

CASO CLÍNICO

Causa rara de icterícia obstrutiva

Liliana Santos, João Coimbra, Isabel Sousa*, Gonçalo Ramos, Ana Carvalho e João Martins

Serviço de Gastroenterologia, Hospital de Santo António dos Capuchos, Lisboa, Portugal

Recebido a 27 de dezembro de 2009; aceite a 29 de outubro de 2010

PALAVRAS-CHAVE

Hemoptises;
Etiologia;
Diagnóstico;
Tratamento

KEYWORDS

Hemoptysis;
Etiology;
Diagnosis;
Treatment

Resumo A hemobilia é uma afecção rara, que < 10% dos casos está associada a neoplasias hepáticas ou intra-biliares.

Apresentamos um doente com cirrose hepática alcoólica, internado por icterícia e colúria. A colangiopancreatografia retrógrada endoscópica (CPRE) não revelou dilatação ou alterações endoluminais da via biliar principal, tendo-se extraído microcálculos após exploração com balão de *Forgaty* e cesto de *Dormia*.

Vinte e quatro horas após o procedimento, verificou-se agravamento da icterícia, tendo repetido CPRE que mostrou a presença de coágulos na via biliar principal. A investigação clínica subsequente revelou uma lesão nodular hepática com 6 cm de diâmetro e extensão para a árvore biliar peri-hilar.

O doente faleceu ao 33º dia de internamento por choque séptico secundário a infecção respiratória.

© 2009 Publicado por Elsevier España, S.L. em nome da Sociedade Portuguesa de Gastroenterologia. Todos os direitos reservados.

Rare cause of obstructive jaundice

Abstract Hemobilia is a rare affection, which in less than 10% of the cases is associated with hepatic or intrabiliary neoplasm.

We present a patient, with alcoholic hepatic cirrhosis that presented with jaundice and coluria. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography [ERCP] was negative for dilation or endoluminal lesions of the common bile duct; *Forgaty* balloon and *Dormia* basket exploration revealed biliary microlithiasis.

Due to clinical deterioration, with increasing jaundice 24 hours, another ERCP was performed, that disclosed the presence of a blood clot in the common biliary duct. The following clinical investigation showed a 6 cm hepatic nodule that extended to the peri-hilar biliary tree.

The patient died 33 days after the admission, due to septic shock secondary to respiratory tract infection.

© 2009 Published by Elsevier España, S.L. on behalf of Sociedade Portuguesa de Gastroenterologia. All rights reserved.

*Autor para correspondência.

Correio electrónico: misousa@netcabo.pt (I. Sousa).

Introdução

A hemobilia é uma situação rara. Corresponde à presença de sangue na árvore biliar como resultado de hemorragia com origem na vesícula, no tracto bilio-pancreático ou no fígado¹. Foi descrita pela primeira vez por Francis Glisson em 1654, no entanto, o termo hemobilia só foi introduzido em 1948, por Sandblom².

As manifestações clínicas são a hemorragia digestiva, a dor abdominal e/ou a icterícia obstrutiva³.

Actualmente, a causa mais frequente de hemobilia nos países ocidentais é o trauma secundário a procedimentos

hepático-biliares percutâneos, endoscópicos ou cirúrgicos. A presença de neoplasias hepato-biliares como causa independente de hemobilia é uma situação rara^{1,3,4}.

Caso clínico

Doente do sexo masculino, de 68 anos, com cirrose hepática alcoólica diagnosticada há 10 anos, seguido em consulta de Gastrenterologia, tendo realizado em Ecografia abdominal 3 anos antes que não mostrou lesões nodulares hepáticas e doseamento de AFP que foi normal.

Foi internado por quadro de icterícia e colúria com 1 semana de evolução, sem dor abdominal.

Dos antecedentes pessoais havia a salientar hipertensão arterial, status-pós acidente vascular cerebral isquémico, doença pulmonar obstrutiva crónica tabágica e litíase vesicular assintomática. Estava medicado com ticlopidina, enalapril, omeprazol e espironolactona.

À admissão apresentava icterícia da pele e escleróticas e hepatomegalia estendendo-se até 4cm abaixo do rebordo costal direito, de consistência firme, superfície lisa, bordo rombo, dolorosa à palpação. O estudo laboratorial revelou bilirrubina total 11 mg/dL (fracção directa 9,6 mg/dL), GGT 987 UI/L, FA 477 UI/L; AST 134 UI/L; ALT 85 UI/L, sem leucocitose ou neutrofilia e PCR elevada (10 g/dL). A ecografia abdominal revelou fígado heterogéneo e dismórfico, litíase vesicular e discreta dilatação das vias biliares intrahepáticas [VBIH].

Tendo em conta a hipótese diagnóstica de litíase vesicular complicada de coledocolitíase, realizou colangiopancreatografia endoscópica retrógrada [CPRE], que mostrou litíase da vesícula, não se tendo observado dilatação ou alterações endoluminais da via biliar principal [VBP] (fig. 1). Foi efectuada esfíncterotomia transpapilar endoscópica [ETE] e extracção de microcálculos após exploração da VBP com balão de *Forgaty* e cesto de *Dormia*.

Cerca de 24 h após este procedimento, observou-se agravamento clínico e laboratorial, com aumento acentuado dos valores séricos de bilirrubina, GGT e fosfatase alcalina. Foi submetido a nova CPRE, que mostrou a presença de um defeito de repleção intraluminal justa-hilar, que após exploração com balão, se constatou tratar de um coágulo intraluminal (fig. 2A). Foram extraídos vários coágulos volumosos com balão e foi colocada prótese biliar plástica na via biliar principal (figs. 2B e 2C).

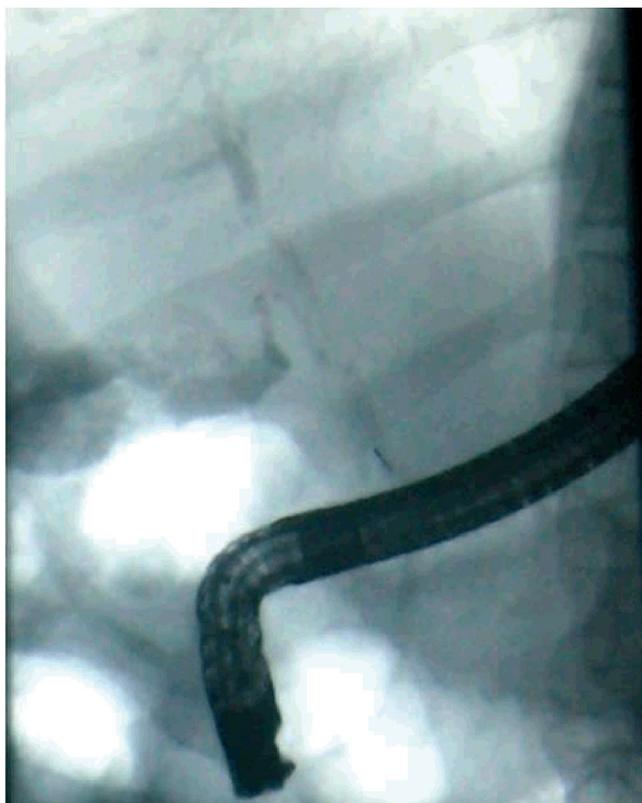


Figura 1 Imagem da colangiografia inicial mostrando colelitíase (sem dilatação ou alterações endoluminais da via biliar principal).



Figura 2 Imagens endoscópicas de CPRE que mostram a presença de coágulos extraídos da via biliar principal (2A e 2B) com balão de *Forgaty*. Posteriormente, foi colocada prótese biliar plástica na via biliar principal (2C).

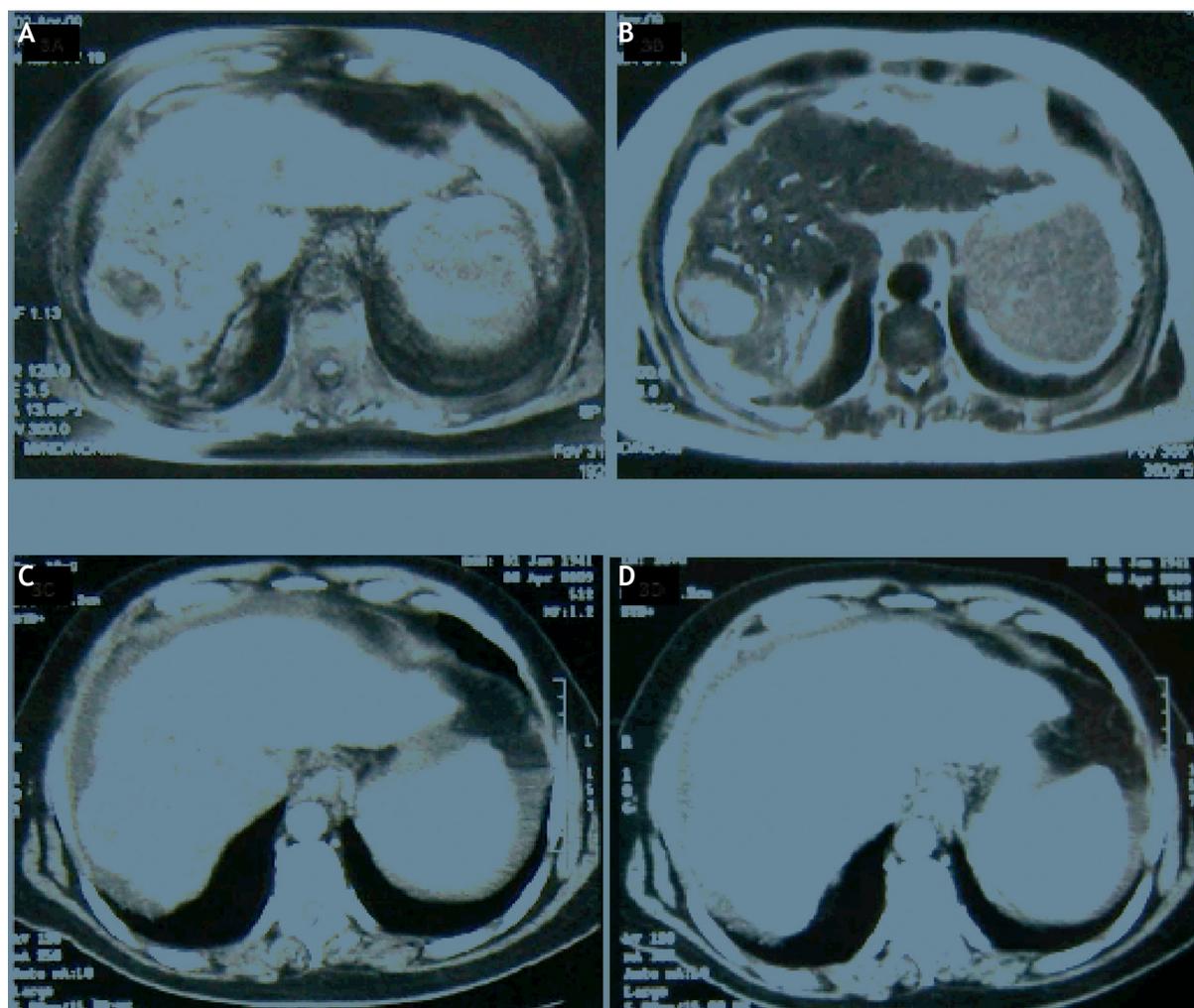


Figura 3 Imagens de RNM (3A e 3B) e TC abdominal (3C e 3D) onde se observa uma lesão nodular intrahepática, subcapsular direita, com extensão perihilar, com 6 cm. A lesão é heterogênea, com áreas hipercaptantes e hipocaptantes e apresenta pseudocápsula.

Não se verificou descida significativa dos valores de hemoglobina ou repercussão hemodinâmica, registando-se descida lenta e gradual da hiperbilirrubinemia para valores próximos ao da admissão.

Na investigação clínica do doente, este veio a realizar ressonância nuclear magnética [RNM] abdominal e colangio-RNM, que mostrou dilatação das VBIH e uma lesão nodular hepática, com 6 cm de diâmetro, subcapsular direita, com extensão peri-hilar. O nódulo tinha pseudocápsula que captava contraste e era heterogêneo, com áreas micronodulares hipercaptantes e extensas áreas hipodensas que captavam o contraste tardiamente, sugestivas de necrose parcial (fig. 3A). Observou-se ainda transformação cavernomatosa da veia porta. A tomografia computadorizada (TC) abdominal confirmou este diagnóstico (fig. 3B)³.

Os valores séricos do CEA e da alfa-feto proteína [AFP] estavam dentro dos valores normais e o valor de CA 19,9 revelou-se muito elevado (5.994 U/mL; N < 37U/mL).

O doente acabou por falecer, ao 33º dia de internamento, por infecção respiratória nosocomial com choque séptico.

Discussão

A presença de neoplasias intrahepáticas ou do tracto biliar como causa independente de hemobilidade é uma situação rara, correspondendo a < 10% dos casos^{1,3,4}. Outras causas incluem: traumatismos acidentais ou iatrogénicos, aneurismas da artéria hepática, coledocolitíase, hipertensão portal, infestações parasitárias das vias biliares, *hemosuccus pancreaticus* e neoplasia da vesícula⁵.

Nas situações de neoplasia, a presença de sangue nas vias biliares pode ser consequência do envolvimento directo das vias biliares pelo tumor, da migração de fragmentos tumorais para a via biliar principal ou de hemorragia intratumoral³.

No doente apresentado, o quadro clínico inicial caracterizado por icterícia, colúria e hepatomegália dolorosa, poderia corresponder a hepatite alcoólica. No entanto, o doente referia abstinência alcoólica nos últimos 10 anos, os exames laboratoriais não mostraram leucitose ou neutrofilia e a ecografia abdominal revelou dilatação das VBIH, factos que não apoiam este diagnóstico.

Assim, as hipóteses diagnósticas colocadas foram as de coledocolitíase e de carcinoma hepatocelular, tendo em conta os antecedentes de litíase vesicular e de cirrose hepática.

A Ecografia abdominal realizada na admissão revelou dilatação das VBIH e confirmou a presença de litíase biliar, não tendo mostrado lesões nodulares intrahepáticas, pelo que se considerou como mais provável a hipótese de coledocolitíase.

O exame seguinte realizado foi a CPRE dada a elevada probabilidade de necessidade de terapêutica endoscópica. No entanto, a colangiografia endoscópica não confirmou esta hipótese diagnóstica, tendo-se extraído apenas microcálculos.

Pelo agravamento da icterícia precocemente após o procedimento, e considerando a probabilidade de complicações e/ou retenção de cálculos biliares, realizou nova CPRE que identificou hemobilia.

Posteriormente, para esclarecimento do quadro, realiza TC e a RM abdominal com administração de contraste endovenoso, que mostraram o nódulo hepático. Estes exames têm elevada sensibilidade para a detecção de nódulos hepáticos em doentes com cirrose hepática e foram importantes para o estabelecimento do diagnóstico.

A Ecografia abdominal não mostrou nódulos intrahepáticos. Este facto corrobora os dados actuais que demonstram que a ecografia convencional, apesar de ter elevada sensibilidade para o diagnóstico de nódulos hepáticos, nos doentes com cirrose hepática, a sua sensibilidade é menor (entre os 68% e os 87%), uma vez que as lesões tumorais podem ser confundidas com nódulos regenerativos. Outros factores que também se relacionam com a sensibilidade da ecografia são o perfil ecográfico do doente e a prática do executante⁶.

Os factores que contribuíram para o aparecimento de hemobilia, foram a presença de um nódulo intrahepático com envolvimento da via biliar, associado à realização de um procedimento invasivo na via biliar, que terá traumatizado a lesão tumoral com conseqüente hemorragia e formação de coágulos que obstruíram a via biliar.

A única manifestação de hemobilia foi o agravamento do quadro de icterícia obstrutiva. De facto, apenas 22% dos doentes, apresenta a tríade sintomática descrita por Quinke: hemorragia digestiva, dor abdominal e icterícia obstrutiva⁷.

O tratamento da hemobilia depende da causa subjacente. No doente apresentado, foi efectuada precocemente CPRE, o que permitiu a extracção dos coágulos e a colocação de prótese biliar, com conseqüente descompressão biliar, redução da icterícia e controle da hemorragia.

Neste doente, não foi efectuada caracterização histológica da lesão. A primeira hipótese diagnóstica a colocar é de

carcinoma hepatocelular, tendo em conta os antecedentes de cirrose hepática. No entanto, os valores de AFP eram normais e havia uma elevação marcada do CA 19,9, pelo que as hipóteses de colangiocarcinoma intrahepático e de hepatocolangiocarcinoma, deverão também ser consideradas, uma vez que a sua incidência está aumentada nos doentes com cirrose hepática^{8,9}.

Não foi possível o tratamento dirigido da lesão tumoral hepática, dada a instabilidade clínica, a idade do doente, a sua *performance status*, o tamanho da lesão e a presença de trombose da veia porta⁴.

Comentários

A hemobilia clinicamente significativa é uma complicação rara da CPRE, correspondendo a uma pequena minoria dos casos de hemorragia pós-CPRE.

O agravamento ou aparecimento «de novo» de icterícia, particularmente se associado a descida dos valores de hemoglobina, hipotensão e/ou hemorragia digestiva, é sugestivo da ocorrência de hemobilia. A CPRE é o método de eleição para o seu diagnóstico e tratamento, permitindo a extracção de coágulos, a descompressão biliar e a hemostase.

Bibliografia

1. Karsenti D, Tchuenbou J, Djarech H, et al. Pancréatite aiguë liée à une hémobilie compliquant un carcinome hépatocellulaire. *Gastroenterol Clin Biol*. 2002;26:1051-4.
2. Manolakis C, Kapsoritakis A, Tsikouras A, et al. Hemobilia as the initial manifestation of cholangiocarcinoma in a hemophilia B patient. *World J Gastroenterol*. 2008;14:4241-4.
3. Cajot O, Descamps C, Navez B, et al. Hémobilie révélatrice d'un très petit carcinome hépatocellulaire rompu dans les voies biliaires. *Gastroenterol Clin Biol*. 1997;21:426-9.
4. Hirsch M, Avinoach I, Keynan A, et al. Angiographic diagnosis and treatment of hemobilia. *Radiology*. 1982;144:771-2.
5. Eds. Feldman M, Friedman LS, Brandt LJ. *Sleisenger and Fordtran's Gastrointestinal and liver disease: pathophysiology, diagnosis, management*. 8^a ed.
6. Shapiro R, Katz R, Mendelson D, et al. Detection of hepatocellular carcinoma in cirrhotic patients: sensitivity of CT and ultrasonography. *J Ultrasound Med*. 1996;15: 497-502.
7. Kumar M, Gupta S, Soin A, et al. Management of massive haemobilia in an Indian hospital. *Indian J Surg*. 2008;70:288-95.
8. Shaib YH, El-Serag HB, Davila JA, et al. Risk factors of intrahepatic cholangiocarcinoma in the United States: a case-control study. *Gastroenterology*. 2005;128:620-6.
9. Bhaga V, Javle M, Yu J, et al. Combined Hepatocholangiocarcinoma. *Int J Gastrointest Cancer*. 2006;37:27-34.