



OBSERVACIÓN CLÍNICA

Aneurisma esplénico asociado a una fístula arteriovenosa hiliar

Alicia Ruiz de la Hermosa*, Jaime Zorrilla Ortúzar, Marcos Rodríguez-Martín, José Luis Escat Cortés y Alberto Muñoz-Calero Peregrín

Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Clínica Rúber, Madrid, España

Recibido el 30 de noviembre de 2010; aceptado el 21 de febrero de 2011
Disponibile en Internet el 8 de abril de 2011

PALABRAS CLAVE

Esplenectomía;
Aneurisma;
Fístula arteriovenosa hiliar;
Tratamiento quirúrgico;
Tratamiento endovascular

KEYWORDS

Splenectomy;
Aneurism;
Hilar arteriovenous fistula;
Surgical treatment;
Intravascular treatment

Resumen Los aneurismas esplénicos son los aneurismas viscerales más frecuentes. Habitualmente son asintomáticos y se diagnostican de forma incidental al realizar estudios de imagen por otra patología. Su importancia clínica radica en la posibilidad de ruptura y la elevada mortalidad que ello implica. La mayoría de los aneurismas son únicos y de pequeño tamaño. La presencia de una fístula arteriovenosa hiliar o intraesplénica asociada es excepcional y suele estar en relación con traumatismos, cirugías previas, infecciones o ser de origen congénito. Presentamos el caso de un aneurisma intraesplénico asociado a una fístula arteriovenosa en el hilio, tratado satisfactoriamente mediante abordaje laparoscópico.

© 2010 Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Splenic Aneurism Associated with a Hilar Arteriovenous Fistula

Abstract Splenic aneurisms are the most frequent visceral aneurisms. These aneurisms are usually asymptomatic and are diagnosed incidentally by imaging studies performed for other diseases. The clinical importance of these entities lies in the possibility of rupture, leading to high mortality. Most aneurisms are single and small-sized. The presence of an associated hilar or intrasplenic arteriovenous fistula is exceptional and is usually related to trauma, prior surgery, or infections; a congenital origin may also be involved. We present a case of intrasplenic aneurism associated with a hilar arteriovenous fistula, which was satisfactorily treated through the laparoscopic approach.

© 2010 Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

Los aneurismas arteriales viscerales son una entidad poco frecuente, con una incidencia del 0,1-2%¹. La localización más frecuente es la arteria esplénica que representa el 60% de los casos, seguida en segundo lugar de la arteria hepática (20%) y de la arteria mesentérica superior (5,5%). Menos frecuente es hallar aneurismas arteriales en

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: aliciaruiz9@hotmail.com
(A. Ruiz de la Hermosa).

el tronco celiaco, arterias gástricas y gastroepiploicas, arterias intestinales, pancreáticas y pancreático-duodenales o arteria gastroduodenal, y de forma excepcional aparecen en la arteria mesentérica inferior (1,2%)^{2,3}. La mayoría de los aneurismas de la arteria esplénica (AAE) así como el resto de los aneurismas viscerales son clínicamente silentes y son diagnosticados de forma incidental. El empleo cada vez más sistemático de las técnicas de imagen para el diagnóstico de otras patologías hace que sean detectados con mayor frecuencia. El riesgo de ruptura de los AAE varía entre el 3 y el 10%⁴, siendo este relativamente bajo si lo comparamos con el riesgo de ruptura de los aneurismas aórticos que puede llegar hasta el 30-40%⁵. A pesar de esta diferencia, la ruptura de un AAE es la complicación más temida debido a la elevada mortalidad, que puede alcanzar el 50%¹. La mayoría de los AAE son únicos y de pequeño tamaño (<2 cm), aunque pueden ser múltiples en el 20% de los pacientes. Se localizan con mayor frecuencia (80%) en el tercio medio o distal de la arteria esplénica⁴. La asociación de una fístula arteriovenosa ya sea hiliar ya intraesplénica es excepcional, pudiendo ser de origen congénito o deberse a la ruptura espontánea de un AAE preexistente hacia la vena esplénica en relación con traumatismos, cirugías previas, infecciones o embarazos. Existen diversas opciones terapéuticas para el tratamiento de los AAE, sin embargo la técnica estándar es un tema controvertido en la actualidad. Presentamos el caso un AAE asociado a una fístula arteriovenosa en el hilio, tratado satisfactoriamente mediante abordaje laparoscópico.

Observación clínica

Mujer de 55 años múltipara, con antecedentes de hipertensión arterial y en seguimiento anual por un cáncer de mama intervenido hace 6 años. Por este motivo se realiza una ecografía abdominal en la que se detecta de forma incidental una lesión vascular en el parénquima esplénico no visualizada en las exploraciones previas. Ecográficamente se trata de una imagen anecogénica, redondeada de 5 cm y de apariencia quística pero con presencia de flujo en la señal doppler, por lo que se sospecha un aneurisma esplénico. Se completa el estudio mediante una angio-TC abdominal que pone de manifiesto dos dilataciones vasculares, la primera de ellas de origen arterial y visible como una masa hipodensa de casi 6 cm, con calcificación de la pared y localización intraparenquimatosa (fig. 1). La segunda de 3 cm depende de la vena esplénica, que aparece dilatada y tortuosa, se localiza en el hilio y presenta realce venoso precoz en relación con fístula arteriovenosa (figs. 2–4). Tras interrogar de nuevo a la paciente, refiere estar asintomática, no haberse sometido a cirugías abdominales ni haber sufrido traumatismos previos. La exploración física así como los valores analíticos no mostraron alteraciones significativas. Ante el diagnóstico de un aneurisma esplénico grande, de reciente aparición asociado a una malformación vascular hiliar en una paciente ASA I, se opta por una intervención quirúrgica programada para evitar el riesgo de ruptura espontánea. Se realizó una esplenectomía laparoscópica con cuatro puertos. El paciente se coloca en decúbito supino con ligera rotación derecha (30°) y tras la inserción de trocares y la realización del neumoperitoneo se procede a la esplenectomía propiamente dicha. El primer paso consiste en la

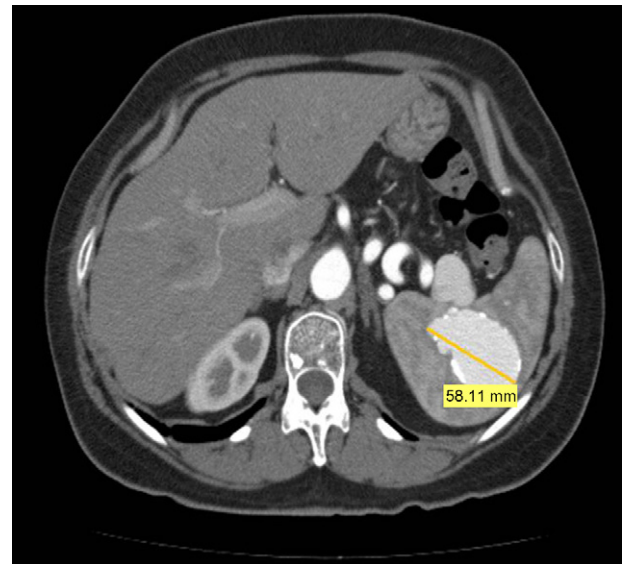


Figura 1 Imagen axial de TC que muestra el tamaño del aneurisma intraesplénico.

liberación del ángulo izquierdo del colon y la sección de los vasos del polo inferior del bazo. El segundo paso es la apertura del ligamento gastroesplénico y sección de los vasos cortos. En tercer lugar se realiza la disección del hilio esplénico y separación cuidadosa de la cola del páncreas para posteriormente proceder a la sección de la arteria y la vena que se realizó con endograpadora vascular, proximal al nivel de la fístula arteriovenosa. El último paso es la extracción de la pieza en una bolsa colectora. La evolución postoperatoria fue satisfactoria, la paciente pudo ser dada de alta a las 48 horas de la intervención y en la actualidad está asintomática. El estudio anatomopatológico demostró tejido esplénico sin alteraciones y la presencia de una pared arterial intraesplénica de 5,7 cm, dilatada y con cambios histológicos compatibles con arterioesclerosis, así como una comunicación arteriovenosa a nivel hiliar.

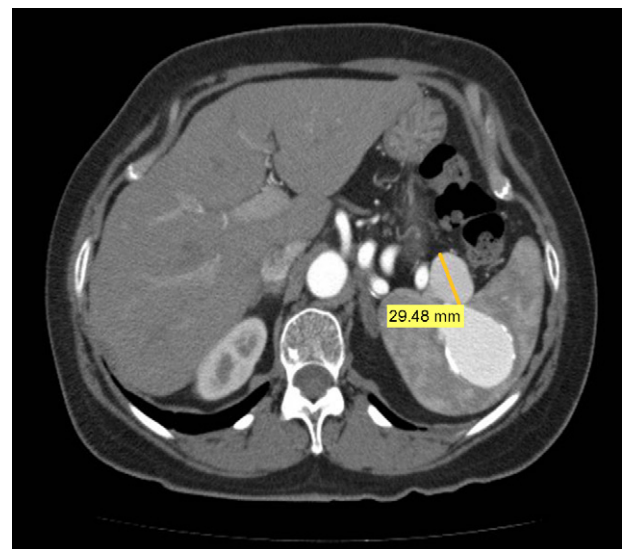


Figura 2 TC que muestra el tamaño de la malformación arteriovenosa en el hilio esplénico.

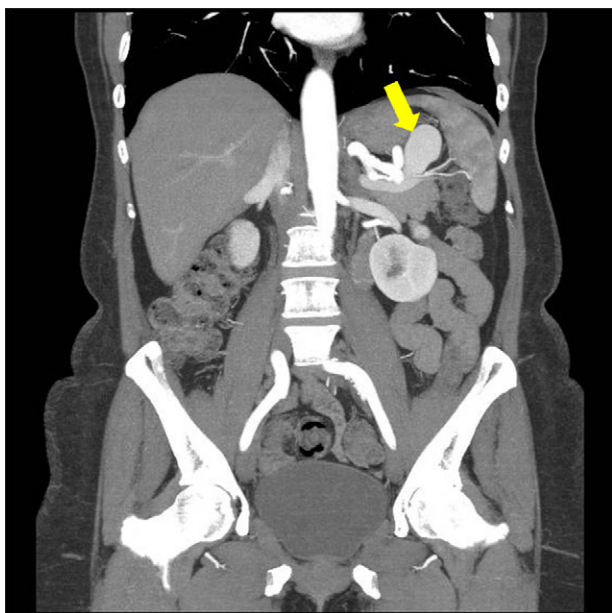


Figura 3 Malformación arteriovenosa en el hilio esplénico en continuidad con una vena esplénica dilatada y tortuosa.

Discusión

La incidencia de los AAE es difícil de evaluar, pero en varias series de autopsias se sitúa entre el 0,01 y el 0,2% y supera el 10% en la población geriátrica. Son más frecuentes en el sexo femenino (4:1) y la edad media de presentación es de 52 años⁴. Los factores etiológicos relacionados con los AAE son múltiples, y los más frecuentes son la hipertensión portal y los embarazos. Otras condiciones incluyen la hipertensión arterial, la fibrodilatación de la arteria esplénica, las infecciones sistémicas y la arteriosclerosis². La pancreatitis ya sea aguda ya crónica es también una causa frecuente de AAE debido a un mecanismo de autodigestión por las enzimas pancreáticas, lo que causa una debilidad de la pared arterial. Varios de estos factores, como son la hipertensión arterial y los embarazos previos, estaban presentes en el caso clínico presentado. Respecto a la arteriosclerosis,

está presente en el 99% de los exámenes histológicos de los AAE y más que una causa primaria parece estar en relación con cambios arterioscleróticos secundarios al propio saco aneurismático⁶. Es importante diferenciar entre los pseudoaneurismas o falsos aneurismas, que son aquellos en los que se encuentra una solución de continuidad en una de las capas de la pared vascular y menos frecuente, y los aneurismas verdaderos, que son aquellos constituidos por todas las capas de la pared arterial. El estudio histopatológico demostró en el caso presentado la presencia de una pared arterial completa pero dilatada, por tanto un aneurisma verdadero.

La asociación con una malformación arteriovenosa es poco frecuente y suele deberse a la ruptura espontánea de un AAE preexistente hacia la vena esplénica. Los traumatismos, las cirugías previas y los embarazos múltiples favorecen esta situación. Brothers et al⁷ describen en su revisión de la literatura la ruptura de aneurismas esplénicos como la causa de las fistulas arteriovenosas en el 44% de los casos. En nuestro caso clínico la presencia de una fístula arteriovenosa en el hilio esplénico puede haber sido la causante de los cambios aneurismáticos a nivel de arteria esplénica. Esto sería debido a los cambios hemodinámicos sufridos por la arteria como consecuencia de una circulación hiperdinámica local en relación con la fístula arteriovenosa. Esta situación excepcional ha sido descrita únicamente en la literatura en un caso⁴, y a la inversa, con la presencia de una fístula arteriovenosa intraesplénica como causa de aneurismas arteriales esplénicos ha sido reportado en otro⁸. La mayoría de los AAE son < 2 cm y raramente superan los 3 cm⁹. Se consideran gigantes cuando superan los 10 cm, siendo esta situación extremadamente rara, aunque se han descrito casos de hasta 18 cm³.

Hasta el 75% de los pacientes con un AAE están asintomáticos y el resto presentan manifestaciones inespecíficas como dolor en el hipocondrio izquierdo o epigástrico. En el caso de los AAE gigantes puede detectarse una masa abdominal pulsátil. La existencia de una fístula arteriovenosa asociada puede causar hipertensión portal, ascitis, esplenomegalia o varices esofagogástricas. La diarrea puede estar también presente en relación con un aumento de presión en la vena mesentérica. Por este mismo mecanismo puede desarrollarse un fracaso cardíaco congestivo. La presencia



Figura 4 Reconstrucción tridimensional de la angio-TC que muestra el aneurisma y el realce precoz de la vena esplénica.

de estos signos en ausencia de hepatopatía debe hacernos sospechar el diagnóstico de una fístula arteriovenosa a nivel esplénico. Sin duda el síntoma más temido de los AAE es la ruptura. Los menores de 2 cm raramente se rompen, pero el riesgo de ruptura de los AAE gigantes es muy alto. Dicha ruptura puede ser a peritoneo libre con hemoperitoneo y shock hemorrágico (2-10%), o ruptura en dos tiempos o doble ruptura (20-30% de los casos). Esta última consiste en una hemorragia autolimitada localizada en la transcavidad de los eplones inicialmente y después en un segundo tiempo da lugar a una hemorragia masiva al comunicarse por el hiato de Winslow con el peritoneo libre. Aunque menos frecuente, es posible la ruptura a una víscera hueca como el estómago con hematemesis y/o melenas, o al colon causando un cuadro de hemorragia digestiva baja. De forma excepcional la ruptura puede producirse al conducto de Wirsung ocasionando crisis de dolor abdominal e hiperamilasemia precediendo a una hemorragia digestiva en forma de melenas. Esta situación es conocida como *hemosuccus pancreaticus* o *wirsungrragia*¹⁰.

El riesgo de ruptura varía entre el 3 y el 10%, aunque puede llegar hasta el 28% en los AAE gigantes⁴ y la mortalidad en estos casos es del 25%. Sin embargo, los pacientes tratados quirúrgicamente de forma electiva presentan una mortalidad (intra y postoperatoria) que no supera el 0,5-5%¹. La incidencia más alta de ruptura se da en mujeres jóvenes embarazadas. Más del 95% de los aneurismas detectados durante el embarazo se rompen, lo que conlleva una mortalidad materna del 70% y una mortalidad fetal mayor del 75%¹¹⁻¹³. Aparte de las gestantes, existe otro grupo de pacientes con alto riesgo de ruptura como son los trasplantados hepáticos, por lo que se ha recomendado el estudio de la arteria esplénica previo al trasplante⁴.

El diagnóstico puede en ocasiones hacerse con una radiografía simple de abdomen, en la que el aneurisma aparece como una calcificación redondeada en la zona de la arteria esplénica, lo que sucede en un 70% de los casos². También pueden detectarse incidentalmente en una ecografía abdominal, como en el caso expuesto. Además la ecografía permite estudiar la presencia de hepatopatía y/o esplenomegalia y el empleo del Doppler permite documentar la existencia de una fístula arteriovenosa asociada. El diagnóstico exacto lo proporciona la arteriografía convencional, considerada como el *gold standard*, pues permite definir con precisión la localización, el origen e identificar la presencia de otros aneurismas. Sin embargo, en la actualidad la TC con contraste intravenoso y sobre todo la angio-TC se ha convertido en la primera modalidad diagnóstica no invasiva, pues permiten una alta resolución y por ello valorar de forma global la vascularización abdominal incluida la aorta y sus diferentes ramas viscerales. A pesar de no permitir maniobras terapéuticas ha pasado a ser la técnica de referencia dejando la arteriografía en un segundo plano. La angiorresonancia magnética es una alternativa útil en aquellas personas que tengan contraindicaciones para la realización de una TC. Las secuencias de T1 brindan una mayor detalle acerca de la presencia de trombosis asociada y las imágenes en 3D permiten visualizar la lesión en cualquier proyección. Sin embargo, comparada con la TC requiere mayor tiempo en la toma de las imágenes y tiene mayor susceptibilidad a artefactos, principalmente por movimiento⁵.

Una vez realizado el diagnóstico es necesario establecer una estrategia terapéutica. No existe ningún criterio universalmente aceptado. En general se admite que todos los aneurismas deberían ser tratados si las comorbilidades del paciente lo permiten. Se aceptan como indicaciones los AAE sintomáticos, las mujeres en edad fértil o embarazadas, AAE que hayan crecido y los mayores de 2 cm^{1,14}. Los < 2 cm son motivo de controversia pues algunos autores abogan por la vigilancia mediante técnicas de imagen cada 6-12 meses^{15,16} y otros defienden el tratamiento por la alta morbimortalidad asociada con la cirugía de urgencias tras su ruptura¹⁷⁻¹⁹.

En la actualidad se contemplan tres opciones de tratamiento: la laparotomía, la laparoscopia y el tratamiento percutáneo endovascular. Tradicionalmente la laparotomía con ligadura aislada del aneurisma, ligadura asociada a esplenectomía o la resección del aneurisma con o sin esplenectomía han sido el *gold standard* en el manejo de los AAE. El abordaje laparoscópico es una alternativa eficaz y mínimamente invasiva, sin embargo no permite la reconstrucción arterial por la alta complejidad que esto supone y precisa de un cirujano experto en cirugía laparoscópica avanzada. Si el aneurisma se localiza en el tercio medio o proximal debe considerarse la aneurismectomía con preservación esplénica. Si el aneurisma se localiza en el tercio distal de la arteria habitualmente suele asociarse la esplenectomía. En el caso de lesiones intraesplénicas la esplenectomía es inevitable²⁰. En estos casos es importante recordar la necesidad de vacunación frente a *neumococo*, *meningococo* y *H. influenza B* al menos en las 2 semanas previas a la esplenectomía electiva.

El tratamiento percutáneo endovascular es una alternativa eficaz, poco agresiva, con baja morbimortalidad y que puede realizarse bajo anestesia local, lo que ha permitido tratar a muchos pacientes previamente desestimados por el alto riesgo quirúrgico¹⁹ y ha permitido asimismo recomendarlo como tratamiento profiláctico en lesiones pequeñas y como complemento a la cirugía en lesiones gigantes. Para algunos autores sería el primer tratamiento de elección en todos los casos¹⁶. El tratamiento endovascular consiste en la embolización del aneurisma mediante coils o en la colocación de endoprótesis o stent. La primera embolización percutánea fue descrita en 1978 por Probst et al²¹, con una tasa de éxito del 80 al 85% y una recidiva del 10 al 21%, y el desarrollo progresivo de la técnica desde entonces hasta la actualidad la han hecho la técnica de elección para el tratamiento de los AAE. En el estudio realizado por Sachdev et al¹⁹ se comparan los resultados del tratamiento endovascular y quirúrgico sin encontrar diferencias en cuanto a la morbimortalidad. A pesar de todas estas ventajas, el tratamiento endoluminal tiene ciertos inconvenientes técnicos como son la imposibilidad de cateterizar selectivamente la arteria esplénica, la dificultad en la colocación de stents debido a su tortuosidad o la exclusión aneurismática incompleta. Es un tratamiento técnicamente complejo y que requiere una curva de aprendizaje. Además se asocia frecuentemente con un síndrome postembolización, que incluye fiebre y epigastralgia y que se atribuye al infarto esplénico y/o abscesos esplénicos postinfarto. Saltzberg et al¹⁵ refieren mayor tasa de complicaciones de este tipo en los aneurismas localizados en el hilio esplénico, por lo que estos autores recomiendan no emplear el tratamiento endovascular para este tipo de

lesiones. En el caso clínico expuesto la presencia de una fístula arteriovenosa en el hilio esplénico y la necesidad de realizar esplenectomía por el aneurisma intraparenquimatoso descartan la posibilidad de tratamiento percutáneo.

En conclusión, los AAE son de gran importancia debido al riesgo de ruptura que suponen. Por ello, a pesar de su baja incidencia es una patología con la que debemos estar familiarizados. Su diagnóstico y tratamiento suponen un reto para gastroenterólogos, cirujanos y radiólogos. En nuestra opinión el tratamiento quirúrgico por vía endoscópica es la mejor opción terapéutica en pacientes con riesgo quirúrgico razonable (ASA I y ASA II o mortalidad peroperatoria inferior al 0,5%). La preservación esplénica debe considerarse siempre que sea posible salvo en las lesiones intraesplénicas que obligan a realizar una esplenectomía. Los pacientes con riesgo quirúrgico muy elevado, contraindicación para la cirugía o como complemento a la misma pueden beneficiarse del tratamiento percutáneo endovascular. La cirugía abierta debe reservarse solo para el tratamiento de las complicaciones o cuando existe contraindicación para la cirugía laparoscópica.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Ruiz-Tovar J, Martínez-Molina E, Morales V, Sanjuanbenito A, Lobo E. Evolution of the therapeutic approach of visceral artery aneurysms. *Scand J Surg*. 2007;96:308–13.
- Zelenock GB, Stanley JC. Splachnic artery aneurysms. En: Rutherford RB, editor. *Vascular Surgery*. 5th ed. Philadelphia: WB Saunders; 2000. p. 1369–82.
- Yadav R, Tiwari MK, Mathur RM, Verma AK. Unusually giant splenic artery and vein aneurysm with arteriovenous fistula with hypersplenism in a nulliparous woman. *Interact Cardiovasc Thorac Surg*. 2009;8:384–6. Epub 2008 Dec 16.
- Agrawal A, Whitehouse R, Johnson RW, Augustine T. Giant splenic artery aneurysm associated with arteriovenous malformation. *J Vasc Surg*. 2006;44:1345–9.
- Cabrera R, O'Brien A. Rotura de aneurisma aórtico abdominal: reporte de un caso y revisión de literatura. *Rev Chil Radiol*. 2006;12:123–7.
- Trastek VF, Pairolero PC, Joyce JW, Hollier LH, Bernatz PE. Splenic artery aneurysms. *Surgery*. 1982;91:694–9.
- Brothers TE, Stanley JC, Zelenock G. Splenic arteriovenous fistula. *Int Surg*. 1995;80:189–94.
- Tada Y, Ueno A, Awane Y. Congenital intrasplenic arteriovenous fistula associated with two splenic arterial aneurysms. *Jap Heart J*. 1969;10:561–6.
- Spittel JA, Fairbairn JF, Kinkaid OW, ReMine WH. Aneurysms of the splenic artery. *JAMA*. 1961;175:452–6.
- Abad C, Montesdeoca-Cabrera D, Sáez-Guzmán T. Aneurisma de la arteria esplénica. Revisión de dos casos intervenidos quirúrgicamente. *An Med Interna*. 2006;23:130–2.
- Caillouette JC, Merchant EB. Ruptured splenic artery aneurysm in pregnancy (Twelfth reported case with maternal and fetal survival). *Am J Obstet Gynecol*. 1993;168:1810–1.
- Angelakis EJ, Bair WE, Barone JE, Lincer RM. Splenic artery aneurysm rupture during pregnancy. *Obstet Gynecol Surv*. 1993;48:145–8.
- O'Grady JP, Day EJ, Toole AL, Paust JC. Splenic artery aneurysm rupture during pregnancy (A review and case report). *Obstet Gynecol*. 1997;50:627–30.
- Maillard M, Novellas S, Baudin G, Benzaken T, Karimjee B, Anty R, et al. Splenic artery aneurysm: diagnosis and endovascular therapy. *J Radiol*. 2010;91:1103–11.
- Saltzberg SS, Maldonado TS, Lamparello PJ, Cayne NS, Nalbandian MM, Rosen RJ, et al. Is endovascular therapy the preferred treatment for all visceral artery aneurysm? *Ann Vasc Surg*. 2005;19:507–15.
- Al-Habbal Y, Christophi C, Muralidharan V. Aneurysms of the splenic artery- a review. *Surgeon*. 2010;8:223–31.
- Grego FG, Lepidi S, Ragazzi R, Iurilli V, Stramanà R, Deriu GP. Visceral artery aneurysms: a single center experience. *Cardiovasc Surg*. 2003;11:19–25.
- Goldberg RF, Maley W, Kennedy EP, Yeo CJ, Lavu H. Giant splenic artery pseudoaneurysm. *J Gastrointest Surg*. 2010 Nov 25 [Epub ahead of print].
- Sachdev U, Baril DT, Ellozy SH, Lookstein RA, Silverberg D, Jacobs TS, et al. Management of aneurysms involving branches of the celiac and superior mesenteric arteries: a comparison of surgical and endovascular therapy. *J Vasc Surg*. 2006;44:718–24.
- Mattar SG, Lumsden AB. The management of splenic artery aneurysms: experience with 23 cases. *Am J Surg*. 1995;169:580–4.
- Probst P, Castaneda-Zuniga WR, Gomes AS, Earl G, Yonehiro EG, Delaney JP, et al. Nonsurgical treatment of splenic artery aneurysm. *Radiology*. 1978;128:619–23.