

## DISCUSSÃO

Adenoma hepatocelular é fortemente associado ao uso de anticoncepcionais orais<sup>9,14</sup>. O risco de desenvolver adenomas aumenta com a duração do uso e níveis estrogênicos da medicação<sup>6,8,14</sup>. É frequentemente visto em mulheres jovens, mas pode também estar associado ao uso esteroides em homens, doença de armazenamento do glicogênio e hemocromatose.

Adenoma hepatocelular é de importância clínica devido à sua tendência a complicações: transformação maligna e ruptura espontânea. O risco de sangramento espontâneo está entre 20-40%, principalmente em pacientes com lesões acima de 5 cm<sup>2,4,6</sup>.

Aproximadamente 10% dos pacientes cursam com dor abdominal aguda devido a ruptura peritoneal e hemoperitônio, associado ou não ao choque hipovolêmico. Podem apresentar sintomas relacionados à hemorragia como dor súbita em quadrante superior direito, náuseas, vômitos, anorexia e febre. Mortalidade importante tem sido associada com o atraso no diagnóstico, sendo resultado de choque hemorrágico, coagulopatia e complicações pós-operatórias<sup>11,13</sup>.

O tratamento conservador pode ser geralmente utilizado em casos pequenos, especialmente os relacionados com a utilização de contraceptivos orais. Acompanhamento rigoroso por meio de exames radiológicos (ultrassom ou tomografia) a cada seis meses é necessário. No entanto, quando a lesão é grande (>5 cm) ou sintomático, o tratamento cirúrgico tem sido recomendado por causa do alto risco de hemorragia e transformação maligna<sup>9,13</sup>.

O tratamento cirúrgico de escolha varia em cada caso, assim como as diferentes abordagens de ressecção. O principal tratamento de escolha deve ser ressecção local ou segmentar, visando preservar o máximo de parênquima hepático possível. Apesar de a hepatectomia laparoscópica ser boa opção para os tumores benignos<sup>3</sup>, abordagem aberta é preferida nestes casos, pois trata-se de lesão rota, localizada posteriormente e próximo a estruturas vasculares, acompanhada de sangramento espontâneo. Pacientes com ruptura de adenoma hepatocelular devem ser tratados eletivamente sempre que possível. Se o paciente está estável e o tumor está localizado em um lobo ou segmento hepático deve-se realizar hepatectomia parcial prontamente. Se há perda sanguínea maciça deve-se fazer controle clínico agressivo com reposição de hemoderivados e em seguida realizar o controle da hemorragia através de ligadura ou embolização do segmento arterial que supre o tumor<sup>15</sup>, seguido de ressecção mais tardiamente com o paciente estável. A embolização arterial seletiva, que induz necrose tumoral, vem mostrando ter papel importante no tratamento de adenomas rotos ou não-rotos com bons resultados e baixas taxas de complicações quando comparadas com a operação de urgência<sup>10</sup>; porém, é um método caro e geralmente indisponível na maioria dos centros.

## REFERÊNCIAS

1. Ardito F, Tayar C, Laurent A, Karoui M, Loriau J, Cherqui D. Laparoscopic Liver Resection for Benign Disease. Arch Surg 2007; 142 (12): 1188-93
2. Barthelemy, Tait, 2005. Barthelemy L, Tait IS: Liver cell adenomas and liver cell adenomatosis. HBP (Oxford) 2005; 7:186-196.
3. Costa SRP, Araujo SM, Lima AOT, Chartuni ATP. Laparoscopic Right Posterior Sectionectomy for Treating Hepatic Tumors. ABCD Arq Bras Cir Dig 2010; 23(4): 275-9.
4. Deneve et al, 2009. Deneve JL, et al: Liver cell adenoma: a multicenter analysis of risk factors for rupture and malignancy. Ann Surg Oncol 2009; 16:640-648.
5. Deodhar A, Brody LA, Covey AM, Brown KT, Getrajdman GI. (2011) Bland embolization in the treatment of hepatic adenomas: preliminary experience. J Vasc Interv Radiol 22:795-799;
6. Dokmak et al, 2009. Dokmak S, et al: A single center surgical experience of 122 patients with single and multiple hepatocellular adenomas. Gastroenterology 2009; 137:1698-1705.

7. Eckhauser FE, Knol JA, Raper SE, Thompson NW. Enucleation combined with hepatic vascular exclusion is a safe and effective alternative to hepatic resection for liver cell adenoma. Am Surg. 1994;60:466-71.
8. Gordon SC, Reddy KR, Livingstone AS, Jeffers LJ, Schiff ER. Resolution of a contraceptive-steroid-induced hepatic adenoma with subsequent evolution into hepatocellular carcinoma. Ann Int Med. 1986;105:547-9.
9. Herman P, Pugliese V, Machado MAC, Montagnini AL, Salem MZ, Bachella T et al. Hepatic Adenoma and Focal Nodular Hyperplasia: Differential Diagnosis and Treatment. World J Surg 2000; 24(5): 372-76
10. Huurman VA, Stoot JH, van der Linden E, Terpstra OT, Schaapherder AF. Necrosis of a large hepatic tumor after hemorrhage and subsequent selective arterial embolization. World J Gastroenterol. 2006;12:6059-61.
11. Marini et al, 2002. Marini P, et al: Management of spontaneous rupture of liver tumours. Dig Surg 2002; 19:109-113.
12. Puech A, Pages A, Dermenghem M, Signalet J. (1964) Multinodular Adenoma of the Liver. Montp Med 65:114-119. Ad'nomem multinodulaire du foie.
13. Ribeiro Junior MAF, Chaib E, Saad WA, D'Albuquerque LAC, Cecconello I. Surgical management of spontaneous ruptured hepatocellular adenoma. Clinics. 2009; 64(8): 775-9.
14. Rosenberg, 1991. Rosenberg L: The risk of liver neoplasia in relation to combined oral contraceptive use. Contraception 1991; 43:643-652.
15. Terkivatan et al, 2001. Terkivatan T, et al: Treatment of ruptured hepatocellular adenoma. Br J Surg 2001; 88:207-209.

ABCD DV/1154

ABCD Arq Bras Cir Dig Carta ao Editor  
2015;28(4):299

DOI: /10.1590/S0102-6720201500030023

## HÉRNIA DE BOCHDALEK À DIREITA EM ADULTO, ASSOCIADA À SÍNDROME COLESTÁTICA: RELATO DE CASO

*Right-sided Bochdalek hernia in adult associated with cholestatic syndrome: case report*

José Moreira dos **SANTOS-NETTO**, Cássio Virgílio Cavalcante **OLIVEIRA**, Marcelo Gonçalves **SOUSA**

Trabalho realizado no Departamento de Cirurgia, Centro de Ciências Médicas, Universidade Federal da Paraíba, Hospital Universitário Lauro Wanderley, João Pessoa, PB, Brasil.

Fonte de financiamento: não há  
Conflito de interesses: não há

### Correspondência:

José Moreira dos Santos Netto Recebido para publicação: 22/01/2015  
Email: moreira\_netto@hotmail.com Aceito para publicação: 16/06/2015

## INTRODUÇÃO

A hérnia diafragmática congênita (HDC) pode ser definida como defeito anatômico no diafragma que permite a herniação de vísceras abdominais no tórax<sup>4</sup>. Sabidamente ocorre devido à falha no fechamento do canal pleuroperitoneal durante o período embrionário. O que leva ao não fechamento, pode ser um teratógeno, mutação genética, ou ambos<sup>4</sup>.

Em termos de localização anatômica, a HDC pode ser do tipo Bochdalek, quando há oclusão incompleta do canal pleuroperitoneal na porção posterolateral; do tipo Morgagni, na vigência de defeito retroesternal; e ainda pode se manifestar transhiato esofágico<sup>11</sup>. Dentre elas, a hérnia de Bochdalek é a mais prevalente, encontrada em 78-90% dos casos; e do tipo retroesternal de Morgagni, em 1,5-6% da vezes; e a transhiatal, 14-24%<sup>11</sup>. Na maioria dos casos, a repercussão clínica ocorre no período neonatal, já que apenas 10% das hérnias são diagnosticada

após este período<sup>7</sup>. Em neonatos o quadro clínico é mais agudo e de maior morbimortalidade, sendo eminentemente respiratório<sup>5</sup>. Na fase adulta, os sintomas, quando existentes, são mais insidiosos, vagos e intermitentes, acometendo não só a dinâmica pulmonar, mas também a função gastrointestinal<sup>5</sup>.

Para a confirmação da hérnia de Bochdalek, radiografia simples de tórax e tomografia computadorizada podem ser utilizadas<sup>2,8,12</sup>. Não obstante, achados de HDC são incidentais quando da realização de exames radiológicos por outros motivos, sendo a direita responsável por 68% destes casos<sup>9,13</sup>.

Em situações eletivas, a cirurgia minimamente invasiva, tanto via videolaparoscópica, quanto videotoracoscópica, podem ser utilizadas, porém com aplicação reduzida em casos de hérnia à direita<sup>3,8</sup>. Defeitos menores, tecnicamente mais fáceis de corrigir, podem ser rafiados normalmente; em casos de aberturas maiores, ou até mesmo de agenesia de hemicúpula diafragmática, a utilização de telas inabsorvíveis é a única saída<sup>2</sup>.

## RELATO DO CASO

Mulher de 45 anos, branca, casada, admitida no Hospital Universitário Lauro Wanderley, queixando de icterícia, há cinco meses, de caráter insidioso, associado a prurido, colúria e leve aumento do volume abdominal. Apresentou há oito meses abortamento espontâneo no 4º mês de gestação. Relatava antecedente de malformação craniana ao nascer, devidamente corrigida cirurgicamente.

Ambulatorialmente foi submetida a exames laboratoriais sorológicos para hepatites virais, todos negativos. A dosagem sérica de bilirrubina total era de 4,3 mg/dl, às custas da fração direta, além de creatinina de 1,7 mg/dl. Em estudo ultrassonográfico, foi evidenciado dilatação de vias biliares intra-hepáticas e hepatomegalia, principalmente às custas do lobo hepático direito. Realizada tomografia axial com contraste, que revelou a ausência parcial de hemicúpula diafragmática direita em sua porção posterolateral, com herniação de lobo hepático direito, rim e suprarenal direita, associada a atrofia acentuada de lobo hepático esquerdo e hipoplasia pulmonar à direita.

Paciente foi submetida inicialmente à laparotomia que evidenciou volumosa hepatomegalia às custas do lobo direito, cuja borda se encontrava ao nível da cicatriz umbilical. Devido à grande dificuldade técnica, foi realizado toracofrenolaparotomia, que evidenciou falha em hemidiafragma direito de aproximadamente 10 cm (Figura 1), com herniação de parte do lobo hepático, rim, suprarenal direita, e ângulo hepático do cólon, associado a torção parcial do hepatocolédoco e dilatação de vias biliares à montante e excessiva tração lateral de primeira e segunda porções do duodeno e cabeça do pâncreas.

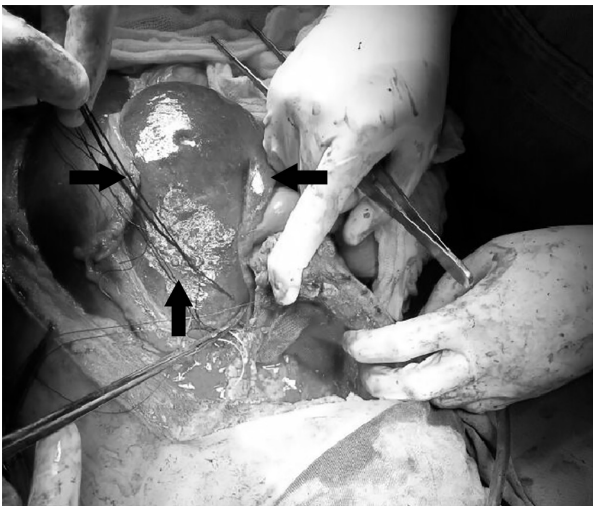


FIGURA 1 - Registro intraoperatório da abertura diafragmática (entre as setas escuras)

Procedeu-se então a redução do conteúdo herniário de volta para cavidade abdominal, com aposição de tela de polipropileno sobre o defeito herniário e drenagem do tórax. Colangiografia intraoperatória foi realizada, demonstrando a recanalização do hepatocolédoco e satisfatório escape de contraste para o duodeno.

O pós-operatório transcorreu com normalização da bilirrubinemia e da função renal. Evoluiu para óbito semanas depois, devido à pneumonia hospitalar e sepse durante internação em unidade de terapia intensiva.

## DISCUSSÃO

A incidência de HDC na população em geral varia entre 2,5-3,8 casos em 10 mil nascidos vivos<sup>4</sup>. Há certa dificuldade em estabelecer a prevalência de hérnia de Bochdalek em adultos. Um estudo retrospectivo de mais de 13.000 tomografias computadorizadas de abdome demonstrou prevalência de cerca de 0,17%. Outros estudos, porém, defendem ela maior, de 6-12%, quando utilizado tomografia computadorizada multislice<sup>9,13</sup>.

Estudos detectaram que há risco 37% menor de população afrodescendente ser portadora de HDC, comparada com a caucasiana não-hispânica. Há risco relativo 50% maior em filhos de mães com idade superior a 35 anos, comparada a idade materna entre 20-24 anos<sup>14</sup>. No caso em questão, a paciente é descendente caucasiana; porém, a idade materna durante o seu nascimento era de 23 anos.

Estudo retrospectivo realizado com 116 casos entre 1991 e 2002 na Austrália, encontrou prevalência de 46,6% de anomalias clinicamente importantes, e 38,8% de anomalias de repercussão clínica mínima, sendo as mais frequentes as neurológicas, musculoesqueléticas, disfórmicas, genitourinárias e gastrointestinais<sup>14</sup>. No relato acima, foi referido antecedente de malformação craniana, não especificada pela paciente.

A hérnia de Bochdalek é mais prevalente à esquerda, já que a hemicúpula direita se desenvolve mais cedo e o fígado previne a protrusão de vísceras abdominais<sup>2,6,11</sup>. Porém, na idade adulta, as hérnias através da hemicúpula direita são mais frequentes, sendo incidentais em 68% dos diagnósticos e acometendo na sua grande maioria o gênero feminino<sup>13</sup>.

O defeito herniário varia desde a falha de 1 cm até a ausência completa de hemicúpula direita<sup>8</sup>. Foi evidenciado durante o procedimento cirúrgico um defeito diafragmático de aproximadamente 10 cm em seu maior diâmetro, na porção posterolateral direita. Em 20% dos casos há um saco herniário, contrastando com a maioria dos casos, onde a comunicação entre as cavidades torácica e abdominal é direta<sup>8</sup>. Em 73% das vezes, as hérnias diafragmáticas contêm apenas gordura visceral ou omento<sup>7</sup>. À ectoscopia intraoperatória, não foi encontrado evidência de saco herniário.

A maioria das HDC são diagnosticadas durante o período neonatal, sendo apenas 10% delas descobertas após este período<sup>7</sup>. Os sintomas em adultos são geralmente insidiosos e indefinidos, podendo ser eles de natureza gastrointestinal, tais como náusea e vômitos pós-prandiais, dor abdominal, dor lombar, distensão abdominal pós-prandial; e de natureza respiratória, como dispnéia, dor torácica, dor referida em ombro<sup>5,8</sup>. No exame físico, a ausculta de sons hidroaéreos típicos de peristaltismo é sinal específico para hérnia diafragmática<sup>2</sup>. No relato exposto, a paciente negou qualquer sintoma durante toda a vida, procurando atendimento por causa da icterícia.

Diferenciando da realidade aqui apresentada, a complicação aguda mais comum, e a mais temida, é o encarceramento e o estrangulamento herniário. O risco de estrangulamento no lado direito é menor comparado a defeito contralateral, já que o orifício herniário daquele lado geralmente é maior<sup>10</sup>. Alguns fatores que aumentam a pressão intra-abdominal, tais como gravidez, trabalho de parto, tosse, espirro e trauma, podem aumentar o risco de estrangulamento do conteúdo herniário<sup>5,13</sup>. Durante anamnese desta paciente, há relato de concepção, seguida de abortamento

três meses antes do início do quadro colestático, processo este que pode ter influenciado no aumento da pressão intra-abdominal, torção do hepatocolédoco e surgimento da icterícia.

Diferentes modalidades de diagnóstico por imagem podem ser utilizadas, dentre elas radiografia simples de tórax, ultrassonografia, tomografia computadorizada, ressonância magnética. A sensibilidade da radiografia simples de tórax é de 70%, não sendo específico suficiente a ponto de excluir o diagnóstico de hérnia de Bochdalek em caso de exame negativo<sup>2,8,12</sup>. O padrão-ouro para diagnóstico é a tomografia axial com duplo contraste<sup>2</sup>. Durante a investigação da icterícia, optou-se pela solicitação de ultrassonografia e tomografia abdominal com contraste; após o diagnóstico, houve complementação com tomografia de tórax.

Em casos de urgência o tratamento preconizado é a cirurgia aberta, com abordagem abdominal inicialmente, partindo para via torácica em casos de dificuldade técnica<sup>5,8</sup>. Em situações eletivas, a cirurgia minimamente invasiva, tanto via videolaparoscópica quanto videotoracoscópica, podem ser utilizadas, porém com aplicação reduzida em casos de hérnia à direita<sup>3,8</sup>.

Defeitos menores, tecnicamente mais fáceis de corrigir, podem ser rafiados normalmente; em situações de aberturas maiores, ou até mesmo de agenesia de hemicúpula, a utilização de telas inabsorvíveis é a única saída<sup>2</sup>. Se hérnia volumosa tiver sido reduzida, a pressão intra-abdominal deverá ser intensivamente controlada no pós-operatório, a fim de evitar o surgimento de síndrome compartimental abdominal<sup>8</sup>. A taxa de recorrência pós-operatória é considerada desprezível<sup>4</sup>.

## REFERÊNCIAS

1. Colvin J, Bower C, Dickinson JE, Sokol J. Outcomes of congenital diaphragmatic hernia: a population-based study in Western Australia. *Pediatrics* 2005; 116: e356-63
2. Esmer D, Alvarez Tostado J, Alfaro A, Carmona R, Salas M. Thoracoscopic and laparoscopic repair of complicated Bochdalek hernia in adult. *Hernia*
3. Fraser JD, Craft RO, Harold KL, Jaroszewski DE. Minimally invasive repair of a congenital right-sided diaphragmatic hernia in an adult. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2009;19:5-7
4. Gaxiola A, Varon J, Valladolid G. Congenital diaphragmatic hernia: an overview of the etiology and current management. *Acta Paediatr*. 2009, Apr. 98(4):621-7.
5. Kanazawa A, Yoshioka Y, Inoi O, Murase J, Kinoshita H. Acute respiratory failure caused by an incarcerated right-sided adult Bochdalek hernia: report of a case. *Surg Today* 2002;32:812-15
6. Laaksonen E, Silvasti S, Hakal T. Right-sided Bochdalek hernia in an adult: a case report. *J Med Case Reports*. 2009;3:92912
7. Lee EJ, Lee SY. Fluid shift on chest radiography: Bochdalek hernia. *CMAJ* 2010; 182: E311-2.
8. Losanoff JE, Sauter ER. Congenital posterolateral diaphragmatic hernia in an adult. *Hernia* 2004;8:83-5
9. Mullins ME, Stein J, Saini SS, Mueller PR. Prevalence of incidental Bochdalek's hernia in a large adult population. *AJR Am J Roentgenol* 2001;177:363-6
10. Owen ME, Rowley GC, Tighe MJ, Wake PN. Delayed diagnosis of infarcted small bowel due to right-sided Bochdalek hernia. *Ann R Coll Surg Engl* 2007;89:W1-2
11. Robinson PD, Fitzgerald DA. Congenital diaphragmatic hernia. *Paediatr Respir Rev* 2007;8:323-35.
12. Rout S, Foo FJ, Hayden JD, Guthrie A, Smith AM. Right-sided Bochdalek hernia obstructing in an adult: case report and review of the literature. *Hernia* 2007;11:359-62
13. Rout S, Foo FJ, Hayden JD, Guthrie A, Smith AM. Right-sided Bochdalek hernia obstructing in an adult: case report and review of the literature. *Hernia* 2007;11:359-62
14. Temizoz O, Gençhellac, H, Yekeler E, et al. Prevalence and MDCT characteristics of asymptomatic Bochdalek hernia in adult population. *Diagn Interv Radiol* 2010;16:52-5.
15. Yang W, Carmichael SL, Harris JA, Shaw GM. Epidemiologic characteristics of congenital diaphragmatic hernia among 2.5 million California births, 1989-1997. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol* 2006; 76: 170-4