

Hemangioma Hepático Esclerosado. Reporte de Casos y Revisión de la Literatura

Sclerosed Hepatic Hemangioma. A Case Report and Literature Review

Carlos Manterola^{1,2,3}; Nataniel Claros^{4,5} & Renato Becker^{3,6}

MANTEROLA, C.; CLAROS, N. & BECKER, R. Hemangioma hepático esclerosado. Reporte de casos y revisión de la literatura. *Int. J. Morphol.*, 43(5):1643-1648, 2025.

RESUMEN: El hemangioma hepático esclerosante (HHE), es un tumor de carácter benigno e infrecuente. Su etiología desconocida, su comportamiento errático, la escasa información disponible, e inexperiencia médica en su diagnóstico y tratamiento; han transformado a esta entidad en un desafío clínico, pues suele confundirse con tumores hepáticos y biliares malignos; por lo que su terapéutica sigue siendo motivo de controversia. El objetivo de este manuscrito fue informar dos casos de HHE diagnosticado de forma incidental en el curso de una colecistectomía laparoscópica; y presentar una revisión de la literatura, con énfasis en el proceso diagnóstico-terapéutico. Caso 1. Paciente femenina de 52 años, con diagnóstico de colecistitis crónica litiásica, a la que se le practicó una colecistectomía laparoscópica electiva, durante la cual, se verificó la existencia de una lesión hepática de segmentos V-VI, de 55 mm. Se realizó tumorectomía adicional sin incidentes. El curso postoperatorio fue favorable, y la paciente fue dada de alta a las 6 horas posteriores. El examen histológico fue HHE. Caso 2. Paciente femenina de 51 años, con diagnóstico de coledocitis, a la que se le practicó una colecistectomía laparoscópica electiva, durante la cual, se verificó la existencia de una lesión hepática de segmentos IVb-V, de 45 mm, blanquecina y bien delimitada. Se realizó colecistectomía y tumorectomía laparoscópica. El curso postoperatorio fue favorable, y la paciente fue dada de alta a las 6 horas posteriores. El examen histológico fue HHE. Se documentan dos casos de HHE. La evidencia existente es escasa, heterogénea y basada sólo en reportes de casos, lo que hace imposible obtener conclusiones válidas y confiables.

PALABRAS CLAVE: Hemangioma; Hemangioma/cirugía; Hepatectomía; Hemangioma esclerosante; Hemangioma esclerosado hepático; Hemangioma esclerosante del hígado; Resección hepática; Reporte de caso.

INTRODUCCIÓN

Los hemangiomas hepáticos esclerosados (HHE), son tumores benignos del hígado más bien esporádicos. Tanto así, que se estima una frecuencia de 2 de cada 1000 necropsias (Berry *et al.*, 1985), producidos por cambios degenerativos, como la formación de trombos, necrosis y formación de cicatrices en el hemangioma cavernoso hepático, aunque el mecanismo exacto de estos cambios degenerativos en el hemangioma cavernoso hepático no se ha esclarecido completamente (Miyamoto *et al.*, 2015).

Los primeros casos de HHE fueron publicados en 1983. Se trataba de 4 pacientes de 45, 62, 63 y 69 años (3 hombres y una mujer), cuyos diagnósticos fueron

realizados en el intraoperatorio en dos de ellos, y por necropsia en los otros dos (Shepherd & Lee, 1983). Desde entonces, hay registros de alrededor de 143 casos, con una edad y diámetro lesional promedio de 57,9 años y 55,6 mm respectivamente; 58,0% de sexo femenino (Tabla I).

Además, los HHE representan una proporción de las lesiones agrupadas bajo el concepto de "incidentalomas hepáticos", llamados así porque se diagnostican de manera incidental, en estudios de imágenes realizados como exámenes de rutina o por razones distintas a la evaluación de una masa hepática (Bajenaru *et al.*, 2015).

¹ Centro de Estudios Morfológicos y Quirúrgicos (CEMyQ), Universidad de La Frontera, Chile.

² Programa de Doctorado en Ciencias Médicas, Universidad de La Frontera, Chile.

³ Clínica RedSalud Mayor, Temuco, Chile.

⁴ Hospital Obrero N°1, La Paz, Bolivia.

⁵ Universidad Mayor San Andrés, La Paz, Bolivia.

⁶ IPAT. Instituto de Patología Celular y Molecular, Temuco, Chile.

Tabla I. Características de los casos de HHE publicados.

Año	Autor	Nº	Edad	Sexo	Segmento	Diámetro (mm)
1983	Shepherd	4	59,8	F:3 / M:1	LD	60
1994	Lee	1	37	F	8	50
1994	Mathieu	1	40	M	2, 3	40
1995	Ishii	1	81	F	3	25
1995	Haratake	1	64	F	8	26
1996	Kobayashi	1	49	F	7	22
1998	Ukai	1	66	F	6	10
2000	Yamashita	1	67	F	4	50
2001	Okada	1	77	M	8	23
2001	Aibe	1	67	F	4	40
2002	Makhlouf	20	63	F:11 / M:9	LD:8 / LI:12	30
2003	Hayakawa	1	70	F	2	30
2005	Morikawa	1	66	M	8	50
2005	Lee	1	65	F	6	53
2005	Okamoto	1	50	F	3	30
2006	Hamatsu	1	59	M	8	25
2006	Hayashi	1	82	F	2, 3	55
2006	Iida	1	77	F	2	39
2007	Sawai	1	67	F	LD	145
2008	Kaji	1	65	F	5	25
2008	Tsumaki	1	70	F	8	47
2008	Mori	1	77	F	6	100
2009	Park	1	77	M	5, 6	50
2010	Yoshida	1	75	F	5, 6	37
2010	Usui	1	57	F	2	17
2010	Jin	1	52	M	6, 7	38
2010	Hida	1	75	F	5, 6	30
2011	Miyaki	1	60	F	3	30
2011	Kitami	1	72	F	3	55
2011	Tanaka	1	71	M	6	15
2011	Mikami	1	74	F	2	22
2011	Shin	1	50	M	LD	100
2012	Wakasugi	1	61	F	2, 5	25,5
2012	Yamada	1	75	M	8	11
2013	Khalid	3	50	F:1 / M:2	2, 3	120
2013	Shimada	1	63	M	8	10
2013	Song	1	63	F	2, 3	91
2014	Ridge	12	65	F:5 / M:7	NR	33
2015	Andeen	1	60	F	NR	35
2015	Miyamoto	1	76	M	6, 7	59
2015	Wakasugi	1	67	M	1, 6	65
2017	Hao	1	52	F	LD	160
2017	Shimada	1	27	M	NR	22
2018	Ando	1	69	F	LI	39
2018	Dima-Cozma	1	70	F	4	73
2018	Hada	1	83	F	7, 8	20
2018	Liu	1	33	M	2, 3, 4	200
2018	Miyata	1	60	M	NR	27
2018	Navale	1	69	F	4, 5	40
2018	Ozaki	1	57	M	2, 3	45
2018	Pandit	1	49	F	2,3	150
2018	Sugo	1	39	F	LD	170
2018	Yugawa	1	48	M	LD	67
2019	Hwang	9	58	F:4 / M:5	NR	20
2019	Koyama	1	68	M	5	22
2019	Renzulli	1	68	M	NR	20
2019	Toumi	1	17	F	NR	80
2019	Xu	1	65	M	LD	167
2020	Akahoshi	1	56	M	8	20
2020	Desai	1	38	F	5, 6, 7, 8	170
2020	Yoo	1	71	M	NR	45
2021	Jia	12	50,5	F:7 / M:5	NR	40
2021	Kim	18	62,1	F:10 / M:8	NR	22
2022	Poras	1	85	F	4	30
2022	Takinoshita	1	60	F	8	35
2022	Wang	1	57	M	5, 8	32
2022	Yoshimmizu	2	53	F:2	2, 3 & 7, 8	100
2023	Ibrahim	1	36	F	LD	157
2023	Zhan	1	52	F	LI	100
2025	Manterola	2	51,5	F:2	5,6 & 4,5	50
T O T A L		143	X=57,9±18,5	F: 83 / M: 60		X=55,6±46,2

X: Promedio, M: Masculino, F: Femenino, LD: Lóbulo derecho, LI: Lóbulo izquierdo, NR: No reportado

El objetivo de este manuscrito fue informar dos casos de HHE diagnosticado de forma incidental en el curso de una colecistectomía laparoscópica; no detectados en la ultrasonografía abdominal; y presentar una revisión de la literatura relevante, con énfasis en el proceso diagnóstico-terapéutico.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1. Paciente de 52 años, de sexo femenino, que se presentó en la consulta ambulatoria de cirugía por colelitiasis sintomática demostrada por ultrasonografía, sin signos de ictericia. No tenía antecedentes clínicos relevantes. El examen clínico fue normal. Las pruebas de laboratorio se encontraban dentro de los límites normales. A la exploración ultrasonográfica del abdomen, no se verificó la lesión hepática, sólo signos de colecistitis crónica litiásica. Se practicó una colecistectomía laparoscópica electiva, durante la cual, se verificó la existencia de una lesión hepática entre los segmentos V-VI (Fig. 1A), de 65 mm, blanda y bien delimitada. No se encontraron linfonodos aumentados de tamaño en el ligamento hepatoduodenal ni signos de carcinomatosis peritoneal. Se realizó una tumorectomía asociada a la colecistectomía sin incidentes, con un tiempo quirúrgico total de 65 min. El curso postoperatorio fue favorable, y la paciente fue dada de alta a las 6 horas posteriores. El examen histológico fue HHE.

Caso 2. Paciente de 51 años, de sexo femenino, consultó por cólicos biliares de 12 meses de evolución. Se realizó ultrasonografía abdominal en la que se constató la existencia de colelitiasis. Los análisis de laboratorio estaban dentro de rangos normales. Se realizó una colecistectomía

laparoscópica electiva, durante la cual, se verificó la existencia de una lesión hepática de segmentos IVb-V (Fig. 1B), de 45 mm, sólida, blanquecina y bien delimitada (Fig. 1B). No se encontraron linfonodos sospechosos, otras lesiones hepáticas, ni signos de carcinomatosis peritoneal. Se realizó la tumorectomía adicional sin incidentes, con un tiempo quirúrgico total de 55 min. El curso postoperatorio fue favorable, y la paciente fue dada de alta a las 6 horas posteriores. El examen microscópico fue HHE.

Datos generales: La cirugía realizada en ambos pacientes fue la resección tumoral laparoscópica con márgenes libres, durante el curso de la colecistectomía (Fig. 1A y 1B). Ambos especímenes fueron extraídos en bolsa de polietileno por el puerto epigástrico.

El postoperatorio transcurrió sin incidencias y ambas pacientes fueron dadas de alta el mismo día de la cirugía. No se registraron complicaciones postoperatorias ni se requirió de reintervenciones.

Ambos especímenes fueron enviados a estudio histopatológico, verificándose fragmentos irregulares de tejido pardo-grisáceo, constituidos por fracciones de tejido hepático de arquitectura lobulillar y disposición trabecular en general conservada; con cápsulas y tejidos con inflamación linfocitaria leve y abundante fibrosis asociada a vasos sanguíneos de mediano calibre, de paredes fibróticas y lúmenes en partes colapsados, sin atipias aparentes; sin trombos ni epitelios quísticos (Figs. 2A-D).

Con un seguimiento clínico y ultrasonográfico de 12 meses para ambos casos, no se verificó morbilidad alejada ni signos de recidiva.

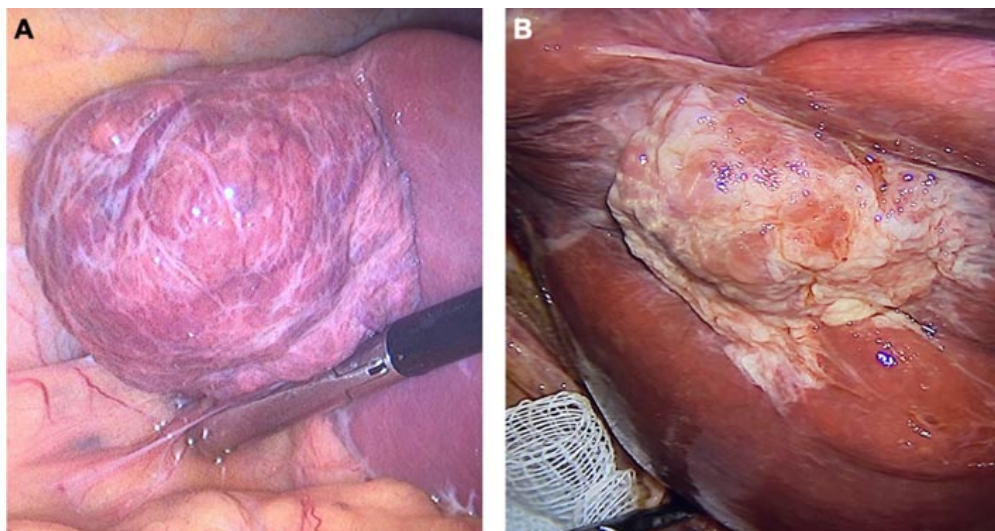


Fig. 1. Imágenes laparoscópicas de pacientes con HHE. 1A: Segmento V-VI, de aproximadamente 5 cm de diámetro. 1B: Segmento IVb-V (se aprecia retracción del parénquima hepático circundante).

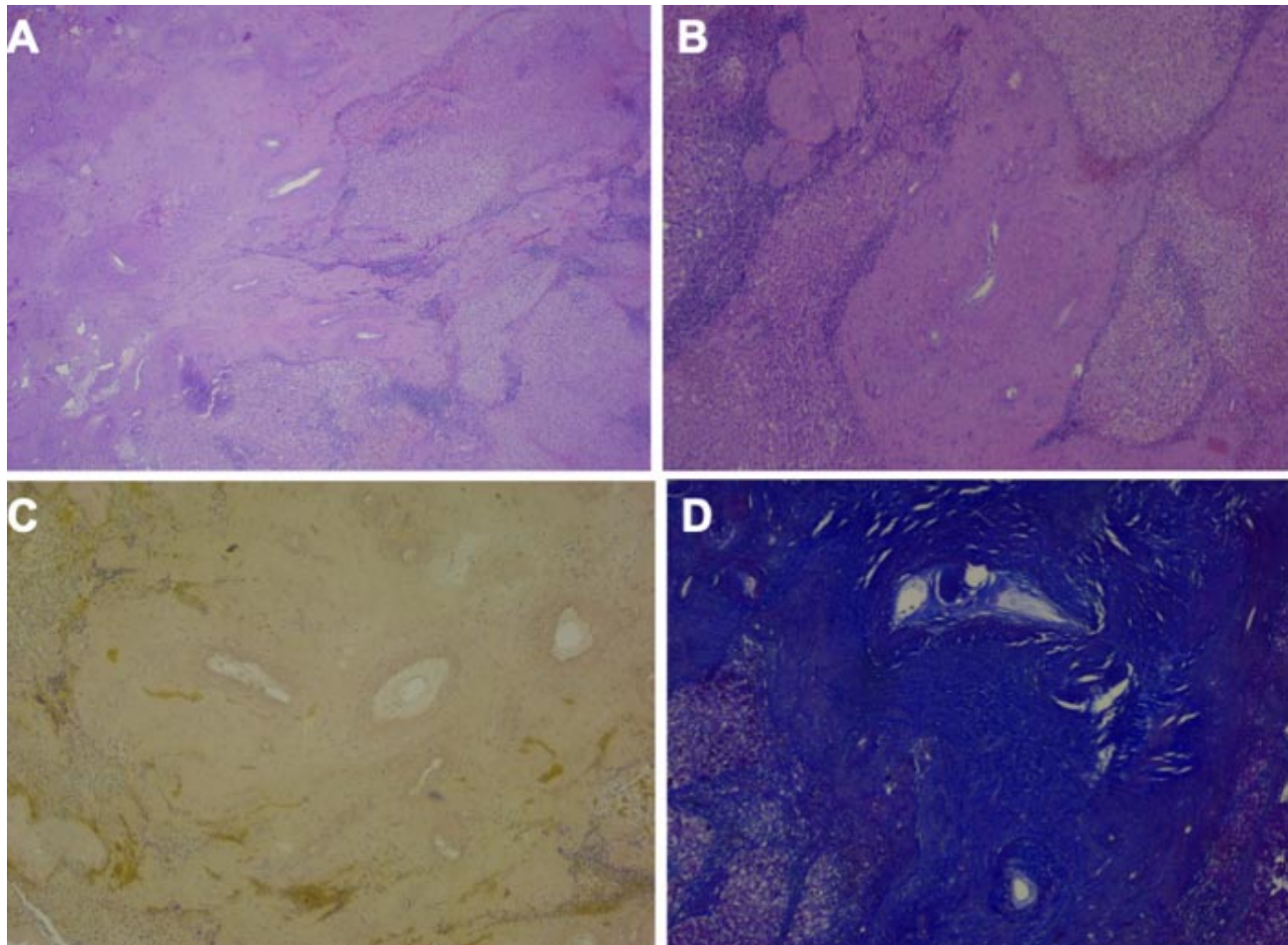


Fig. 2. Microfotografía de HHE. Fragmentos de tejido hepático de arquitectura lobulillar y disposición trabecular en general conservada. Cápsula y tejido subcapsular con leve inflamación linfocitaria y abundante fibrosis asociada a vasos sanguíneos de mediano calibre de paredes fibróticas y lúmenes en partes colapsados, sin atipías aparentes. No se reconocen trombos ni epitelios quísticos. 2A: Tinción de hematoxilina-eosina, 2,5x. 2B: Tinción de hematoxilina-eosina, 5x. 2C: Tinción de Van Gieson elástica, 5x. 2D: Tinción tricrómico de Masson, 5x.

DISCUSIÓN

Los HHE suelen ser asintomáticos, y los síntomas comienzan a aparecer en lesiones de diámetros superiores a 5 cm., habitualmente por distensión de la cápsula de Glisson, trombosis, hemorragia, o compresión de órganos vecinos. Entre ellos destaca náuseas, anorexia y dolor inespecífico en hipocondrio derecho (Jin, 2010; Miura *et al.*, 2014).

El diagnóstico preoperatorio de un HHE es difícil, incluso con los avances imagenológicos actuales, debido a que se trata de una entidad de carácter benigna muy inusual; y porque sus características radiológicas se asemejan a algunas neoplasias hepáticas, como el colangiocarcinoma y el cáncer metastásico de hígado (Miyamoto *et al.*, 2015; Takinoshita *et al.*, 2022).

El diagnóstico diferencial malformación arteriovenosa del hígado (Bian *et al.*, 2023), atrofia segmentaria del hígado (Findeis-Hosey *et al.*, 2019), tumores malignos primarios como colangiocarcinoma intrahepático (Mathieu *et al.*, 1994; Miyata *et al.*, 2018), hepatocarcinoma (Zhan *et al.*, 2023), y cistoadenocarcinoma (Sugo *et al.*, 2018); y secundarios o metastásicos (Koyama *et al.*, 2019); e incluso con cáncer de la vesícula biliar (Navale *et al.*, 2018).

En relación con los estudios de imagen, las características principales incluyen un patrón geográfico, retracción capsular, disminución del tamaño con el tiempo y pérdida de áreas previamente observadas de realce. Otras características adicionales incluyen la presencia de

diferencias transitorias en la atenuación hepática, realce en anillo y regiones nodulares de intenso realce. En el caso de la TC habitual, suele observarse realce en anillo, semejando una metástasis hepática o un colangiocarcinoma intrahepático. A la RM suele observarse una señal de baja intensidad en T1 y una señal de alta intensidad en T2. En el caso de la TC dinámica y RM se asemejan a malignidades hepáticas, lo que induce a un diagnóstico preoperatorio erróneo. Por otra parte, el PET-FDG scan, puede mostrar acumulación de 18F-FDG, lo que sugiere que podría ser útil para el diagnóstico diferencial de HHE con tumores malignos (Miyamoto *et al.*, 2015).

El tratamiento del HHE es controvertido. La mayor parte de las veces son extirpados quirúrgicamente (vía abierta o laparoscópica), sobre todo dada su similitud macroscópica con lesiones malignas. Sin embargo, no se sugiere realizar biopsia percutánea con aguja, debido a la posibilidad de diseminación de células cancerosas si el tumor es maligno; por lo que la resección del HHE con márgenes quirúrgicos sanos sigue siendo recomendada. La cirugía es la modalidad terapéutica más eficaz; pudiendo aplicarse: resección, enucleación y ligadura de la arteria hepática. La elección del procedimiento depende de la ubicación, el número y el tamaño del tumor, la presencia de complicaciones, la preferencia del cirujano y la experiencia (Ibrahim *et al.*, 2023). También se puede aplicar una resección mínimamente invasiva (vía laparoscópica), especialmente en lesiones de localización anterior. Las complicaciones reportadas (hemorragia, derrame pleural, abscesos abdominales, fuga biliar), suelen asociarse a lesiones de más de 10 cm de diámetro (Ibrahim *et al.*, 2023).

Es frecuente que cuando se produce una fibrosis parcial de las estructuras vasculares tapizadas con células endoteliales separadas por tabiques de tejido conectivo de un hemangioma cavernoso, este pase a denominarse HHE; y cuando los espacios vasculares están extensamente ocupados por tejido fibroso, se denominan hemangiomas cavernosos esclerosados (Poras *et al.*, 2022). De tal forma que los HHE se caracterizan por extensa fibrosis con posterior hialinización y un marcado estrechamiento u obliteración de los espacios vasculares (Makhlouf & Ishak, 2002; Shimada *et al.*, 2013).

La evidencia disponible respecto de morbilidad quirúrgica en pacientes con HHE es muy escasa y asociada especialmente con reportes de casos aislados, por lo que no se puede hablar de frecuencias. Sólo existen reportes de morbilidad quirúrgica en pacientes con hemangiomas hepáticos resecaados, la que fluctúa entre 3,5% y 33,3% (Manterola *et al.*, 2022). Del mismo modo, la mortalidad operatoria se desconoce, y sólo podría asimilarse a la

reportada en pacientes con hemangiomas hepáticos resecaados, que varía entre 0,2% y 0,8% (Manterola *et al.*, 2022).

A modo de conclusión, se puede señalar que el HHE suele ser sintomático. Y que la resección quirúrgica se puede realizar sin mortalidad y con escasa morbilidad asociada, tanto en términos numéricos como de gravedad de la complicación observada.

MANTEROLA, C.; CLAROS, N. & BECKER, R. Sclerosed hepatic hemangioma. A case report and literature review. *Int. J. Morphol.*, 43(5):1643-1648, 2025.

SUMMARY: Sclerosing hepatic hemangioma (SHH) is a rare benign tumor. Its unknown etiology, unpredictable behavior, limited available information, and lack of medical experience in its diagnosis and treatment have made this condition a clinical challenge, as it is often mistaken for malignant hepatic and biliary tumors. Consequently, its therapeutic approach remains a subject of controversy. The aim of this manuscript was to report two cases of SHH incidentally diagnosed during the course of laparoscopic cholecystectomy and to present a literature review with an emphasis on the diagnostic and therapeutic process. Case 1. A 52-year-old female patient, diagnosed with chronic cholecystitis, underwent an elective laparoscopic cholecystectomy. During the procedure, a 55-mm hepatic lesion located in segments V-VI was identified. An additional tumorectomy was performed without complications. The postoperative course was favorable, and the patient was discharged 6 hours later. Histological examination confirmed a SHH. Case 2. A 51-year-old female patient, diagnosed with cholelithiasis, underwent an elective laparoscopic cholecystectomy. During surgery, a 45-mm whitish, well-demarcated hepatic lesion in segments IVb-V was detected. A laparoscopic cholecystectomy and tumorectomy were carried out. The postoperative course was favorable, and the patient was discharged 6 hours later. Histological examination confirmed a SHH. In conclusion, two cases of SHH are documented. The existing evidence is scarce, heterogeneous, and based solely on case reports, making it impossible to draw valid and reliable conclusions.

KEY WORDS: Hemangioma; Hemangioma/surgery; Hepatectomy; Sclerosing hemangioma; Hepatic sclerosed hemangioma; Sclerosed hemangioma of the liver; Liver resection; Case report.

REFERENCIAS BIBLIOGRAFICAS

- Bajenaru, N.; Balaban, V.; Savulescu, F.; Campeanu, I. & Patrascu, T. Hepatic hemangioma -review. *J. Med. Life., 8 Spec. Issue(Spec. Issue):*4-11, 2015.
- Bian, W.; Yuan, J. & Yao, Y. Hemorrhage and necrosis of the liver caused by hepatic arteriovenous malformations in a fetus: A case report. *Medicine (Baltimore)*, 102(12):e33380, 2023.
- Berry, C. L. Solitary "necrotic nodules" of the liver: a probable pathogenesis. *J. Clin. Pathol.*, 38(11):1278-90, 1985.
- Findeis-Hosey, J. J.; Zhou, Z. & Gonzalez, R. S. Hepatic sclerosing cavernous haemangioma can mimic the nodular elastosis stage of segmental atrophy. *Histopathology*, 75(6):876-81, 2019.

- Ibrahim, A. H.; Boumarah, D. N.; AlGhamdi, A. A. & Alshammary, S. A. Giant sclerosing hepatic hemangioma presenting as Bornman-Terblanche-Blumgart syndrome: a case report and review of the literature. *Med. Arch.*, 77(4):314-8, 2023.
- Jin, S. Y. Sclerosed hemangioma of the liver. *Korean J. Hepatol.*, 16(4):410-13, 2010.
- Koyama, R.; Minagawa, N.; Maeda, Y.; Shinohara, T. & Hamada, T. A hepatic sclerosing hemangioma emerged in the postoperative course of multiple gastric carcinoid tumors masquerading as metachronous liver metastasis. *Int. J. Surg. Case Rep.*, 58:1-5, 2019.
- Makhlouf, H. R. & Ishak, K. G. Sclerosed hemangioma and sclerosing cavernous hemangioma of the liver: a comparative clinicopathologic and immunohistochemical study with emphasis on the role of mast cells in their histogenesis. *Liver*, 22(1):70-8, 2002.
- Manterola, C.; Claros, N. & Grande, L. Single giant liver hemangioma. case series with follow-up of patients treated surgically. *Int. J. Morphol.*, 40(6):1475-80, 2022.
- Mathieu, D.; Rahmouni, A.; Vasile, N.; Jazaerli, N.; Duvoux, C.; Tran, J. V. & Zafrani, E. S. Sclerosed liver hemangioma mimicking malignant tumor at MR imaging: pathologic correlation. *J. Magn. Reson. Imaging*, 4(3):506-8, 1994.
- Miyamoto, S.; Oshita, A.; Daimaru, Y.; Sasaki, M.; Ohdan, H. & Nakamitsu, A. Hepatic Sclerosed Hemangioma: a case report and review of the literature. *BMC Surg.*, 15:45, 2015.
- Miyata, T.; Beppu, T.; Kuramoto, K.; Nakagawa, S.; Imai, K.; Hashimoto, D.; Namimoto, T.; Yamashita, Y. I.; Chikamoto, A.; Yamashita, Y.; *et al.* Hepatic sclerosed hemangioma with special attention to diffusion-weighted magnetic resonance imaging. *Surg. Case Rep.*, 4(1):3, 2018.
- Navale, P.; Habib, M.; Stueck, A. & Fiel, M. I. Hepatic sclerosing hemangioma simulating gallbladder carcinoma: a rare case. *J. Clin. Exp. Hepatol.*, 8(4):474-7, 2018.
- Poras, M.; Katsanos, G.; Agrafiotis, A. C.; Demetter, P.; Pezzullo, M. & Lucidi, V. Case report: Sclerosed hemangioma of the liver: A diagnostic challenge. *Front. Surg.*, 9:985849, 2022.
- Shepherd, N. A. & Lee, G. Solitary necrotic nodules of the liver simulating hepatic metastases. *J. Clin. Pathol.*, 36(10):1181-3, 1983.
- Shimada, Y.; Takahashi, Y.; Iguchi, H.; Yamazaki, H.; Tsunoda, H.; Watanabe, M.; Oda, M. & Yokomori, H. A hepatic sclerosed hemangioma with significant morphological change over a period of 10 years: a case report. *J. Med. Case Rep.*, 7:139, 2013.
- Sugo, H.; Sekine, Y.; Miyano, S.; Watanobe, I.; Machida, M.; Kojima, K.; Okubo, H.; Ura, A.; Ogura, K. & Matsumoto, T. Hepatic sclerosing hemangioma with predominance of the sclerosed area mimicking a biliary cystadenocarcinoma. *Case Reports Hepatol.*, 2018:7353170, 2018.
- Takinoshita, S.; Ishimaru, H.; Okano, S.; Otsuka, T.; Ishimaru, Y.; Miyazaki, S.; Nakagawa, J.; Koga, M.; Soyama, A.; Hidaka, M.; *et al.* Hepatic sclerosing haemangioma showing restricted diffusion: A case report with histopathologic correlation. *BJR Case Rep.*, 8(4):20220029, 2022.
- Wang, F.; Numata, K.; Nihonmatsu, H.; Chuma, M.; Ideno, N.; Nozaki, A.; Ogushi, K.; Tanab, M.; Okada, M.; Luo, W.; *et al.* Added value of ultrasound-based multimodal imaging to diagnose hepatic sclerosed hemangioma before biopsy and resection. *Diagnostics (Basel)*, 12(11):2818, 2022.
- Zhan, X.; Gao, Y.; Xu, J.; Wu, D.; Wang, P. & Zhou, H. Multiple sclerosing hemangiomas mimicking hepatocellular carcinoma: A case report. *Int. J. Immunopathol. Pharmacol.*, 37:3946320231190898, 2023.

Autor de correspondencia:

Dr. Carlos Manterola
Departamento de Cirugía y CEMyQ
Universidad de La Frontera
Av. Francisco Salazar 01145
Temuco
CHILE

E-mail: carlos.manterola@ufrontera.cl