

CHISTUL DE COLEDOC – CAZ CLINIC

D. Moga¹, V. Meșteru¹, A. Popențiu¹, Dorelia Maican², H. Magdu¹

1 Serviciul de Chirurgie; 2 Serviciul A.T.I.

Spitalul Militar de Urgență „Dr. Alexandru Augustin” Sibiu

CHOLEDOCHAL CYST – CASE REPORT (Abstract): The choledochal cyst (CC) is a rare condition involving the biliary tree, characterized by saccular dilation. The complications of the disease, mainly the malignant change, justify the interest of the authors. We present the case of a male patient (GA, 58 years), that was admitted presenting right upper quadrant and epigastric pain, nausea, vomiting. The abdominal ultrasonography suspected the diagnosis of empyema of the gallbladder. The laparoscopic exploration showed great dilation of the main bile duct. A transcystic cholangiography was performed, and revealed a choledochal cyst Todani IV A (extra-hepatic and intra-hepatic cysts). Considering the risks of the intervention and the poor general status of the patient, we only performed the laparoscopic cholecystectomy; during the intervention, one aberrant bile duct was isolated and clipped. After the first operation, bile leakage was noted through the subhepatic drain, and therefore an exploratory laparotomy was performed. The source of the biliary fistula proved to be the aberrant bile duct, which was ligated. A complete resection of the extrahepatic bile duct was also performed, followed by a hepaticojejunostomy. In the presented case, the choledochal cyst remained undiagnosed until adulthood, with vague symptoms, and was revealed by the intraoperative laparoscopic cholangiography. The surgical cure was recommended, with complete resection of the extra-hepatic bile duct, followed by a standard end-to-side hepaticojejunostomy with a Roux-en-Y loop.

KEY WORDS: CHOLEDOCHAL CYST, SURGICAL PROCEDURES

Correspondență: Dr. Doru Moga, Serviciul de Chirurgie, Spitalul Militar de Urgență „Dr. Alexandru Augustin” Sibiu, B-dul Victoriei 44-46, 550024 Sibiu; Tel.: 0269-211209; e-mail: mogadoru@yahoo.com*

INTRODUCERE

Chistul de coledoc (CC) este o malformație congenitală caracterizată prin dilatarea chistică sau fuziformă a arborelui biliar, legată probabil de o disembrionogenă de cauză necunoscută, între a 5-a și a 7-a săptămână de gestație [1].

Din punct de vedere al terminologiei, se mai utilizează în literatură termeni ca dilatația chistică congenitală a căii biliare principale sau dilatația segmentară idiopatică a canalului hepatocoledoc [2].

Prima descriere necropsică a afecțiunii a fost făcută de către Vater, în 1723, iar primul caz clinic raportat a fost în 1852, de către Douglas [3,4].

Reprezintă o patologie rară, fiind a doua anomalie congenitală a căii biliare principale ca frecvență după atrezie [5]. Incidența bolii în America și Europa este între 1 caz la 100.000 și 1 caz la 150.000 de noi născuți vii [6]. Cele mai multe cazuri au fost raportate în Asia, în special în Japonia [5,7].

Boala este mai frecvent întâlnită la femei (raportul femei/bărbați: 3-4/1) [8].

Afecțiunea este de obicei diagnosticată în primele decade de viață, în aproximativ 60% din cazuri diagnosticul făcându-se înaintea vârstei de 10 ani [9].

Clasificarea tipurilor anatomice a CC propusă de Todani în 1977 [10-12]:

- tip I – chist extrahepatic izolat (79%);
- tip II – diverticul extrahepatic supraduodenal (3%);
- tip III – diverticul intraduodenal (coledococel) (4%);
- tip IV A – chiste extrahepatice și intrahepatice,
B – chiste multiple extrahepatice, (13%);
- tip V – chiste intrahepatice multiple (Boala Caroli) (1%).

* received date: 23.07.2007
accepted date: 15.09.2007

PREZENTAREA CAZULUI

Pacientul GA, în vârstă de 58 de ani, se internează în secția de chirurgie în ianuarie 2007, acuzând dureri în epigastru și hipocondru drept, gust amar, balonări postprandiale.

Antecedente personale patologice încărcate: diabet zaharat tip II cu retinopatie diabetică severă, hipertensiune arterială stadiul III, cardiopatie ischemică cronică dureroasă (infarct miocardic în martie 2006), insuficiență cardiacă congestivă NYHA II, bronșită cronică.

Din istoricul bolii, reținem apariția unui sindrom dispeptic de tip biliar cu debut de 2 ani și dureri de hipocondru drept, după consumul de alimente colecistochinetice. Datorită accentuării simptomatologiei de cca o lună, pacientul efectuează o examinare ecografică abdominală în ambulatoriu, care evidențiază: colecist mărit de volum (90 x 38 mm), cu pereți îngroșați, cu aspect de hidrops vezicular, mici ecouri fără umbră posterioară (microcalculi), iar calea biliară principală (CBP) nu se vizualizează din cauza meteorismului. Pentru aceste motive, pacientul se adresează serviciului nostru în vederea tratamentului chirurgical.

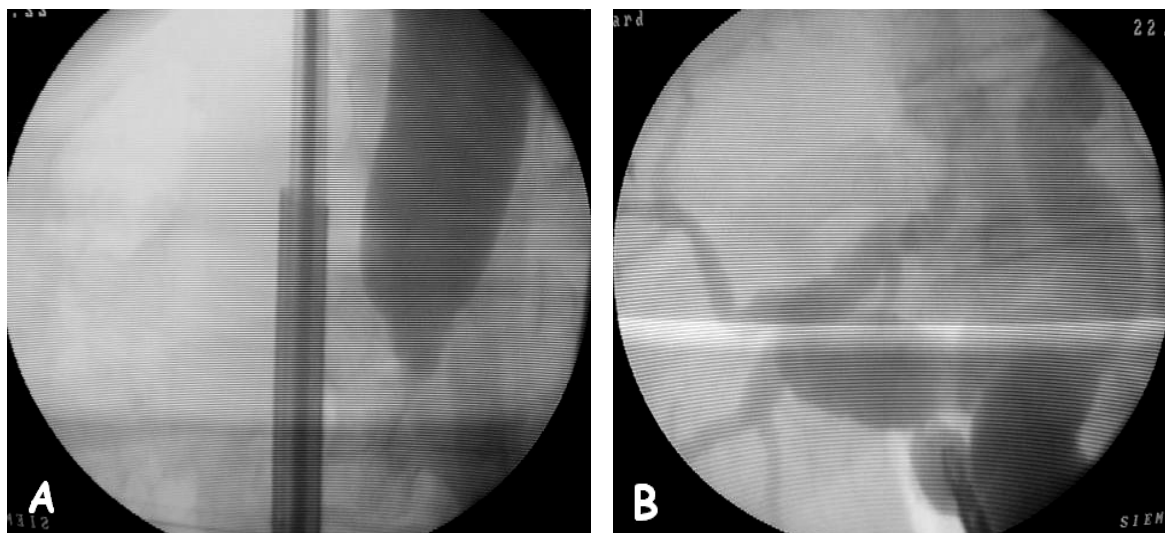


Fig. 1 Colangiografie transcistică laparoscopică

A) CBP dilatată; B) CBIH și CBP dilatate, precum și pasajul contrastului în duoden.

La internare, pacient cu stare generală bună, abdomen cu jenă dureroasă la palparea profundă în hipocondrul drept. Din analizele inițiale reținem: leucocite 10500/mm³, hemoglobină 11,1 g/dL, AST 29U/L, ALT 27 U/L, bilirubina totală 0,42 mg/dL, GGT 517 U/L, amilazemie 64 U/L. Examenul ecografic vizualizează ficat cu ecogenitate crescută și atenuare posterioară, moderat mărit de volum, colecist mult mărit de volum, în hidrops (100 x 60 mm), cu multiple imagini de calculi mici, infundibulo-cistici, CBP liberă (3 mm), fără dilatații de CBIH sau CBEH.

Cu diagnosticul preoperator de *Hidrops vezicular* se intervine chirurgical prin abord laparoscopic. Se constată ficat micronodular, colecist situat la stânga ligamentului rotund, mărit de volum, cu perete îngroșat, CBP dilatată. Se practică colangiografie transcistică care vizualizează CBIH și CBEH dilatate (CBP 20-22 mm), fără imagini de calcul, fără a se vizualiza pasaj trans-oddian al substanței iodate (Fig. 1A, B). Se introduce transcistic o sondă Dormia (CH4); sub control radiologic aceasta traversează cu ușurință în duoden; la retragerea sondei, exteriorizare de câțiva microcalculi pigmentari. Se stabilește diagnosticul de *Chist de coledoc Todani IVA, Colecist situat la stânga ligamentului rotund*. Dată fiind descoperirea intraoperatorie a leziunii, lipsa acordului pacientului pentru rezecția de cale biliară și riscul

anestezico-chirurgical mare, se decide temporizarea intervenției radicale și practicarea doar a colecistectomiei.

Colecistectomie laparoscopică (colecist nelocuit) cu identificarea și cliparea unui canalicul biliar aberant (diametru de 1-1,5 mm) situat la stânga patului vezicular. Drenaj subhepatic. În condițiile unui drenaj bilios persistent postoperator (cca 100 mL/24h), în ziua a 5-a postoperator se decide reintervenția. Prin laparotomie mediană xifo-ombilicală, se identifică ca sursă a biliragiei canaliculul biliar clipat incomplet la prima operație și se practică colangiografie prin bontul distal canalicular (Fig. 2) (ce se varsă în hepaticul comun la nivelul convergenței). Întrucât se opacifiază CBEH și CBIH, se consideră că este vorba de un canalicul subsegmentar al segmentului III și se practică ligatura acestuia.

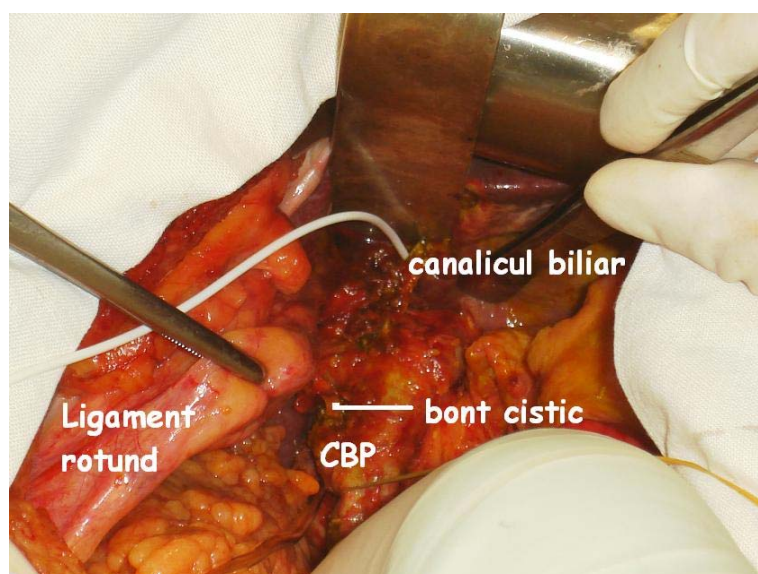


Fig 2. Aspect intraoperator

se remarcă CBP disecată, bontul cistic, preum și canaliculul biliar aberant cateterizat

Se practică rezecția CBP de la cca 1 cm sub convergență și până la nivelul coledocului intrapancreatic, care se înfundă în bursă (Fig. 3), urmată de anastomoză hepatico-jejunală termino-laterală (PDS 5-0 puncte separate) pe ansă în „Y” à la Roux (de cca 80 cm), trecută precolică, datorită unei retracții de mezocolon transvers. De asemenea, se efectuează biopsie hepatică, iar intervenția se finalizează cu drenaj subhepatic.

Perioada postoperatorie este grevată de apariția unei escare de decubit presacrate și a unei supurații de plagă cu evoluție lent favorabilă.

Rezultatul examenului histopatologic al segmentului de CBP rezecat arată structură canaliculară dilatată cu perete fibromuscular îngroșat, la interior cu epiteliu simplu, cilindric cu zone erodate; infiltrat inflamator cronic redus, fără atipii în materialul examinat. Hepatită cronică cu activitate moderată și fibroză severă.

Pacientul se externează vindecat chirurgical, iar controlul postoperator la 5 luni, nu decelează modificări patologice biologice sau ecografice.

DISCUȚII

Triada clinică clasică a CC este reprezentată de icter, durere în hipocondrul drept și masă abdominală palpabilă. Aceasta este prezentă în aproximativ 85% din cazuri la copii, dar la adulți nu este regăsită decât la 25% din cazuri [11].

Pacienții adulți au de obicei simptome vagi, cel mai frecvent dureri de hipocondru drept, iar o parte din ei prezintă febră, grețuri și vărsături [6]. În cazul prezentat nu am întâlnit decât dureri în epigastru și hipocondru drept, gust amar, balonări postprandiale. Forma frustă a CC este raportată în 4-21% din cazuri [13]. Jumătate dintre pacienți au litiază veziculară simptomatică sau colecistită acută, la 10-50% dintre aceștia practicându-se colecistectomie sau o altă explorare chirurgicală înaintea stabilirii diagnosticului [5,11].

Pe plan biologic, există o perturbare nespecifică a bilanțului hepatic sau o hiperamilazemie. Bilirubina este de obicei crescută, iar fosfataza alcalină și gama glutamil transferaza sunt frecvent modificate. În cazul pacientului nostru, singura perturbare a tabloului biologic a fost reprezentată de creșterea importantă a gama glutamil transferazei. Transaminazele pot fi și ele crescute într-o mică măsură, dar examenele de laborator pot fi și în limite normale [5,6].

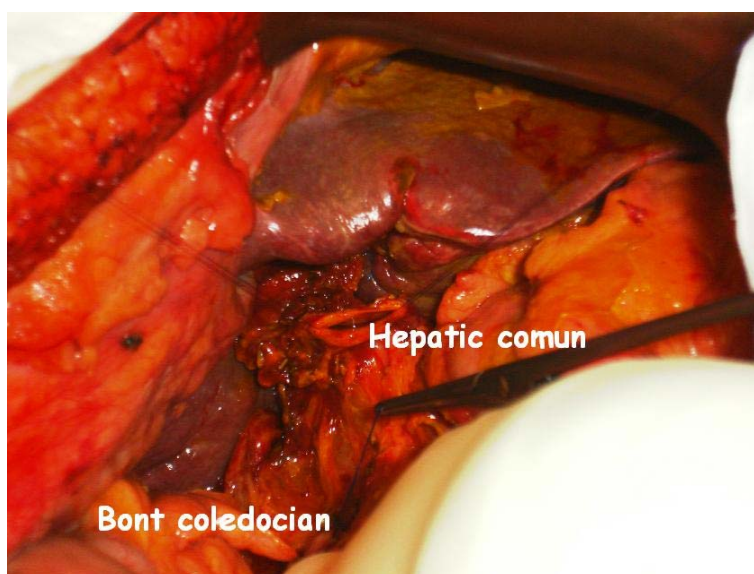


Fig. 3 Aspect intraoperator
bontul coledocian și canalul hepatic comun după rezeecția CBP

Diagnosticul morfologic poate fi stabilit printr-o examinare ecografică, CT, colangio-RMN, ERCP, ecoendoscopie, scintigrafie biliară; dintre acestea colangio-RMN-ul este considerat „gold standard-ul” diagnostic [1,6,11]. S-a constatat că detecția CC crește odată cu îmbunătățirea metodelor imagistice [14]. În prezent CC poate fi diagnosticat imagistic la orice vârstă, inclusiv antenatal prin ecografie [6,15].

Macroscopic, dimensiunile CC variază de la câțiva centimetri până la 25-30 cm sau chiar mai mult [2].

Particularitatea cazului prezentat, asocierea CC cu malformația de poziție a colecistului și prezența canalicului biliar aberant, este considerată ca fiind ocazională [16].

Diagnosticul poate fi sugerat de clinică, poate fi stabilit fortuit printr-o investigație imagistică sau poate fi o descoperire intraoperatorie. În cazul prezentat, examinările ecografice nu au reușit să evidențieze malformația de cale biliară, aceasta fiind suspicionată intraoperator și confirmată prin colangiografie.

În ceea ce privește CC tip IVA, acesta este mai frecvent întâlnit la adulți, ceea ce sugerează că deși are o origine congenitală, progresează cu trecerea timpului, putându-se dezvolta și manifesta târziu în cursul vieții [11].

CC pot evolua spre complicații mecanice, infecțioase sau degenerare malignă:

- litiaza intrachistică, este prezentă la peste 70% dintre adulții cu CC [11] (în cazul prezentat am constatat câțiva microcalculi pigmentari);

- ruptura chistică, spontană sau post-traumatică [5,7,11];
- pancreatita cronică calcifiantă [17];
- pancreatita acută întâlnită la 30-70% din cazuri [11,18,19];
- angiocolita acută, septicemia, abcesul hepatic [1,11];
- atrofia hepatică, ciroza biliară secundară, hipertensiunea portală (mai frecvente în CC tip IV și V) [6,11] (în cazul prezentat, biopsia hepatică a relevat modificări de hepatită cronică, fără a o putea considera cu certitudine secundară CC);
- malignizarea.

Toate chisturile de coledoc trebuie considerate ca fiind veritabile stări precanceroase, suspecte de malignitate până la proba contrarie [1]. Un rol esențial în geneza acestuia este reprezentat de anomalia joncțiunii bilio-pancreatice (canal comun bilio-pancreatic de cel puțin 1,5 cm) [11]. Dintre cofactorii de carcinogeneză cei mai frecvent incriminați sunt litiaza pigmentară intrachistică (calculo-chisto-cancer) și antecedentele de derivație chisto-enterală [1]. Cea mai frecventă varietate histologică este colangiocarcinomul, acesta putând apare în peretele chistului, în țesutul restant după rezecție sau în porțiunile nedilatate ale căilor biliare intra- sau extrahepatice. Colangiocarcinomul poate apare în toate tipurile de chist, dar incidența acestuia este mai mare în tipurile I și IV, chiar după excizia acestuia [11]. Incidența variază între 2,5 și 26% [1], față de riscul în populația generală care este de 0,012-0,48% [5], cei mai mulți pacienți afectați fiind în decada a 5-a de viață [18]. Două treimi dintre cancere sunt descoperite în timpul intervenției chirurgicale, restul cazurilor apărând în perioada de urmărire postoperatorie, la intervale diferite de timp [1]. Prognosticul neoplasmului dezvoltat pe CC este rezervat, cu o supraviețuire medie de 6,2 luni [1].

Se apreciază că între 60 și 80% dintre adulții cu chist de coledoc prezintă una sau mai multe dintre complicațiile menționate. În urma complicațiilor netratate, letalitatea tinde spre 100% și este de 95-97% în cazurile tratate conservator [2].

Scopul tratamentului este de a trata simptomele atunci când acestea sunt prezente și de a preveni riscul degenerării maligne [5].

Un tratament chirurgical corect presupune practicarea colecistectomiei asociată cu ablația în totalitate a căii biliare extrahepatice, până la emergența canalelor hepatice. Intervenția este nuanțată, în funcție de interesarea limitată sau difuză a lobilor hepatici, de prezența stricturilor, litiazei sau cirozei, de asocierea colangiocarcinomului [6]. Rezecția completă a căii biliare extrahepatice prezintă 2 avantaje în prevenția apariției colangiocarcinomului, prin îndepărtarea porțiunii cel mai frecvent afectate de malignizare și prin separarea fluxurilor biliar și pancreatic [18].

Restabilirea continuității bilio-digestive poate fi realizată prin mai multe tehnici: hepatico-jejunostomie, hepatico-duodenostomie sau procedeul Chicago-Beijing (interpoziție de ansă jejunală între ductul hepatic și duoden) [6]. Pentru tipurile I și II, au fost raportate și rezecții laparoscopice [1]. Dintre aceste procedee, cea mai frecvent utilizată este hepatico-jejunoanastomoza pe ansă în „Y” à la Roux [6,9,11], pe care am utilizat-o și noi.

În cazul operațiilor de urgență, pentru complicații infecțioase severe sau ruptură, operația se va limita la un drenaj biliar extern [14], într-un timp ulterior practicându-se intervenția radicală.

Operațiile de drenaj intern, considerate procedeul de elecție în anii '50 [2], numai sunt acceptate, întrucât nu reduc riscul complicațiilor pancreatice și de transformare malignă [10].

În cazul chistului tip IVA, asociat cu stricturi și litiază a căilor biliare intrahepatice limitate mai ales la lobul stâng, unii autori recomandă practicarea și a unei rezecții hepatice [7,11,14].

Examenul histopatologic al chistului excizat, evidențiază lipsa de mucoasă de la nivelul căii biliare, aceasta fiind înlocuită de un țesut conjunctiv prezentând câteva plaje de mucoasă intactă. Restul peretelui poate fi sediul unor leziuni inflamatorii, hipervascularizate.

Uneori în interiorul chistului sunt prezente concreții biliare sau calculi, rezultat al stazei biliare [9]. Cele mai frecvente complicații postoperatorii sunt strictura anastomozei asociată cu litiaza intrahepatică și colangita ce apar mai ales în tipul IVA [6], abcesul hepatic și pancreatita [11], necesitând astfel o urmărire pe termen lung. Apariția colangiocarcinomului după rezecția chistului este apreciată ca având o incidență de 0,7% [18].

CONCLUZII

Chistul de coledoc este o afecțiune congenitală rară, care deși este mai frecvent diagnosticată în prima decadă de viață, poate fi descoperită și la vârste înaintate. Interesul legat de această afecțiune este datorat complicațiilor de ordin mecanic, infecțios, respectiv transformarea malignă. Întrucât complicațiile apar la majoritatea pacienților, în urma stabilirii diagnosticului este necesară exereza precoce. Tratamentul chirurgical trebuie să fie reprezentat de colecistectomie și excizia completă a căii biliare extrahepatice cu anastomoză hepatico-jejunală pe ansă în „Y” à la Roux, cu o urmărire postoperatorie pe termen lung.

Mulțumiri: Autorii doresc să mulțumească dr. Răzvan Scurtu pentru aportul său la redactarea acestui articol.

BIBLIOGRAFIE

1. Baumann R., Simler J. Anomalie de jonction biliopancreatique et dilatations kystiques congénitales du cholédoque. *E.M.C.* 2003; 7-044-A-20: 1-7.
2. Popovici A, Mitulescu G, Hortopan Monica, Stanciu C. Dilatația chistică a căii biliare principale. *Chirurgia*. 2000; 95(2): 139-155.
3. Zheng L, Jia H, Sun Z. Experience of congenital choledochal cyst in adults: treatment, surgical procedures and clinical outcome in the second affiliated hospital of Harbin Medical University. *J Korean Med Sci*. 2004; 19: 842-847.
4. Hotineanu V, Hotineanu A, Marga S. Despre ectazia cistică congenitală a căilor biliare intra- și extrahepatice. *Arta Medica*. 2003; 3: 53-58.
5. Fraleu-Louer B, Sezeur A. Les dilatations congénitales de la voie biliaire principale. In: Vlad L, editor. *Selected Topics of Hepatobiliary Surgery*. Cluj-Napoca: Editura Medicală Universitară; 2000. p. 154-185.
6. Lipsett Pamela, Pitt H. Surgical treatment of choledochal cysts. *J Hepatobiliary Pancreat Surg*. 2003; 10: 352-359.
7. Stipsanelli Ekaterini, Valsamaki Pipitsa, Zerva C. Spontaneous rupture of a type IVA choledochal cyst in a young adult during radiological imaging. *World J Gastroenterol*. 2006; 12(6): 982-986.
8. Bulat C, Pădureanu S, Bișcă L. Angiocolită supurată pe un chist coledocian hemoragic, degenerat malign. *Chirurgia*. 2003; 98: 163-165.
9. Branchereau S, Valayer J. Malformations kystiques de la voie biliaire chez l'enfant: dilatation congénitale de la voie biliaire principale. Traitement chirurgical. *E.M.C.* 2002; 40-976, 1-10.
10. Komuro H, Makino S, Nagai H. Pancreatic complications in choledochal cyst and their surgical outcomes. *World J Surg*. 2001; 25: 1519-1523.
11. Soreide K, Korner H, Havnen J, Soreide J. Bile duct cysts in adults. *Br J Surg*. 2004; 91: 1538-1548.
12. Ungureanu F, Ioachimescu M, Moldovan A. Chist coledocian congenital - anomalie complexă a căilor biliare intra și extrahepatice. *Chirurgia*. 2005; 100: 63-68.
13. Sarin Y, Sengar M, Puri A. Forme fruste choledochal cyst. *Indian Pediatrics*. 2005; 42: 1153-1155.
14. Tao K, Lu Z, Dou K. Procedures for congenital choledochal cysts and curative effect analysis in adults. *Hepatobiliary Pancreat Dis Int*. 2002; 1: 442-445.
15. Couto J, Leite J, Silva M. Diagnostic anténatal du kyste du cholédoque. *J Radiol*. 2002; 83: 647-649.
16. Dong Q, Jiang B, Hao X. Management strategy for congenital choledochal cyst with co-existing intrahepatic dilatation and aberrant bile duct as well as other complicated biliary anomalies. *Yonsei Med J*. 2006; 47(6): 826-832.
17. Wang J, Wu N. Type IV congenital choledochal cyst concurrent with acute pancreatitis: a case report. *Hepatobiliary Pancreat Dis Int*. 2005; 4: 311-312.
18. Wanatabe Y, Toki A, Todani T. Bile duct cancer developed after cyst excision for choledochal cyst. *J Hepatobiliary Surg*. 1999; 6: 207-212.
19. Hiramatsu K, Paye F, Belghiti J. Choledochal cyst and benign stenosis of the main pancreatic duct. *J Hepatobiliary Pancreat Surg*. 2001; 8: 92-94.