Fístula biliobronquial tardía asociada a neumotórax

Late bronchobiliary fistula associated with pneumothorax

ALDO M. ÁLVAREZ-MORAN^{1*} Y PABLO A. ÁVILA-SÁNCHEZ²

¹Departamento de Cirugía de Tórax, Hospital de Traumatología y Ortopedia de Puebla, Secretaría de Salud; ²Escuela de Medicina, Universidad Anáhuac Puebla. Puebla, México

ABSTRACT

Bronchobiliary fistula is an abnormal communication between the bile duct and the bronchial tree. It is a rare entity with a high mortality in the absence of surgical treatment. The etiology is very varied, and the diagnosis is mainly clinical due to the presence of biliptysis, which is pathognomonic. The presence of bile has a corrosive effect on the lung and pleural space. We present the case of a late bronchobiliary fistula secondary to gunshot wound, which was accompanied by secondary pneumothorax. The resolution was through thoracotomy with non-anatomical segmentectomy and primary diaphragm closure.

Key words: Fistula. Biliptysis. Bronchobiliary fistula. Pneumothorax.

RESUMEN

La fístula biliobronquial es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial. Es una entidad rara y con una elevada mortalidad en ausencia de tratamiento quirúrgico. La etiología es muy variada y su diagnóstico es básicamente clínico, por la presencia de biliptisis, que es patognomónica. La presencia de bilis tiene un efecto corrosivo sobre las estructuras pleuropulmonares. Presentamos el caso de una fístula biliobronquial tardía secundaria a herida por proyectil de arma de fuego, la cual se acompañó de neumotórax secundario. La resolución fue mediante toracotomía con segmentectomía no anatómica y cierre primario del diafragma.

Palabras clave: Fístula. Biliptisis. Fístula biliobronquial. Neumotórax.

Correspondence:

*Aldo M. Álvarez-Moran

E-mail: mdald73@hotmail.com

Date of reception: 10-12-2019

Date of acceptance: 12-06-2020

DOI: 10.24875/HMCM.19000254

Available online: 18-11-2020

Hosp Med Clin Manag. 2020;13:130-5

INTRODUCCIÓN

La fístula biliobronquial (FBB) es un trastorno raro, reportado por primera vez por Peacock en 1850. La FBB consiste en una comunicación entre el tracto biliar y el árbol bronquial. Suele ocasionarse por complicaciones de hidatidosis hepática, absceso hepático amibiano, obstrucción biliar, traumatismo y neoplasia hepática. En este tipo de fístula generalmente se comunican el hígado y el pulmón derecho^{1,2}. El objetivo principal de este trabajo es demostrar la presencia de un neumotórax asociado a FBB debido a que no existen reportes de esta presentación, y resaltar la importancia de tener un diagnóstico temprano.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Hombre de 22 años de edad que ingresa al Servicio de Urgencias al presentar herida por proyectil de arma de fuego a nivel de séptimo espacio intercostal derecho, línea axilar anterior, sin orificio de salida, produciéndole hemoneumotórax derecho, por lo que se le coloca sonda endopleural derecha con evolución satisfactoria y expansión pulmonar adecuada. Se retira sonda endopleural al sexto día de estancia hospitalaria y se egresa a domicilio. A los cinco días de su egreso inicia con tos y expectoración amarga de color amarillo verdoso. Dos días después se agrega dolor en hemitórax derecho de tipo opresivo, con disnea de leves esfuerzos, motivo por el cual acude nuevamente al hospital con tensión arterial de 110/70, frecuencia cardíaca de 82 latidos/min y frecuencia respiratoria de 15/min. La radiografía de tórax presenta evidencia de neumotórax derecho del 30%, por lo que se le coloca sonda endopleural nuevamente. El gasto por la sonda endopleural se muestra de aspecto amarillento con evidencia de fuga aérea a través de esta. La radiografía de control muestra falta de expansión pulmonar, por lo que se realiza tomografía, en la cual se evidencia presencia de neumotórax residual, paquipleuritis y zona de ocupación alveolar en segmentos 9 y 10 basales derechos con plastrón por debajo de lóbulo inferior derecho (Figs. 1 y 2).

Se decide realizar toracotomía exploradora posterolateral derecha, en donde se encuentra pleuritis reactiva con atrapamiento de lóbulo inferior derecho, plastrón inflamatorio y natas de fibrina en segmentos 9 y 10 basales con adherencias firmes hacia el diafragma, además de orificio de aproximadamente 1 cm en segmento 9 con

Figura 1. Tomografía axial, corte axial, en donde se demuestra zona de ocupación alveolar en segmentos 9 y 10 basales derechos. Con pleuritis reactiva y neumotórax asociado.

Figura 2. Tomografía axial, corte sagital, con presencia de zonas de necrosis y ocupación alveolar en segmentos 9 y 10 basales derechos. Se observa zona isodensa en segmentos 5 y 6 hepáticos.

salida de bilis. Se realiza adherenciólisis del lóbulo inferior, encontrándose comunicación hacia el hígado a través de orificio en el diafragma de aproximadamente 3 cm de diámetro a través del cual se aprecia licuefacción de parénquima hepático, y los segmentos pulmonares afectados se encontraban también con licuefacción de tejido en el sitio de comunicación a través del diafragma (Fig. 3).

Se realiza segmentectomía no anatómica de segmentos 9 y 10 y cierre primario de bronquios segmentarios con

Figura 3. Flecha amarilla: presenta los segmentos pulmonares con licuefacción producida por la bilis. Flecha negra: muestra el orificio diafragmático a través del cual se observa tejido hepático licuado.

seda del 0, el cual se refuerza con parche de pleura, además de plastia diafragmática con sutura no absorbible en el sitio donde se encontraba abierto. Se colocan sondas endopleurales anterior y posterior. El postoperatorio cursa con evolución satisfactoria; se retiran sonda anterior al quinto día y sonda posterior al séptimo día del postoperatorio. En seguimiento en la consulta, a las tres semanas de egreso hospitalario el paciente se presenta asintomático y signos vitales con parámetros normales, con radiografía de control que muestra expansión pulmonar completa, con ligera elevación de hemidiafragma derecho. No se realizó colangiorresonancia (Fig. 4).

DISCUSIÓN

La FBB se caracteriza por una conexión anómala entre el sistema respiratorio (tráquea o bronquio) y el tracto biliar. Se han reportado solamente 35 casos en el mundo desde la primera descripción en 1952 realizada por Neuhauser, et al.^{3,4}. Se han reportado casos congénitos, los cuales son debidos a una rara malformación con

Figura 4. Radiografía de tórax que muestra expansión pulmonar completa, sin zonas de opacidad en su interior, borramiento de receso costofrénico derecho secundario a cambios inflamatorios.

alta morbimortalidad si su diagnóstico no se realiza a tiempo. La patogénesis de esta anomalía no es clara; sin embargo, se han postulado dos posibles mecanismos embriológicos: a) la duplicación del tracto gastrointestinal superior, propuesto por Neuhauser, et al., y b) la fusión de una yema bronquial anómala con un conducto biliar anómalo, sugerido por Bremer, et al.⁴ Estas hipótesis se basan en las evaluaciones histológicas de los trayectos fistulosos resecaados.

Es necesario mencionar que la FBB se puede diagnosticar fácilmente como una neumonitis aguda debido a la aparición de biliptisis. Se menciona que la presentación clínica es predominantemente pulmonar y los síntomas abdominales son menos frecuentes. Una tos irritante y expectoración de esputo amarillento denominada «biliptisis» es la presentación típica de la FBB, siendo esta última patognomónica de las FBB⁵.

Los rangos de biliptisis van desde escasa tinción biliar del esputo hasta la expectoración de abundante volumen de bilis, siendo común de 100-200 ml, llegando a alcanzar en algunos casos un volumen superior a 1 l por día. Su volumen está influenciado por la postura, por lo tanto, muchos pacientes tienen dificultad para dormir debido a la expectoración y la tos, que es más marcada en la reclinación. Sutherland y otros autores han descrito un falso bilisptialismo (salivación excesiva) en pacientes con enfermedad de células falciformes y crisis hemolítica. Sin embargo, si estas entidades pueden excluirse, la presencia de bilis en el esputo es patognomónica de la FBB. Otros síntomas comunes de la FBB son fiebre, ictericia, disnea, toracalgia y septicemia^{5,6}.

La FBB puede ser resultado de diversas condiciones clínicas. Se reconocen principalmente las formas congénita y adquirida, esta última con tres categorías causales^{6,7}:

1. Fístula por trauma: es la causa más común de FBB, sobre todo trauma toracoabdominal por heridas que atraviesan el pulmón, diafragma e hígado, produciendo extravasación de bilis en el espacio pleural o biliopneumotórax. La cirugía de la vía biliar también es otra causa frecuente, sobre todo en intervenciones de cirugía laparoscópica⁷. Se ha reportado FBB tardía secundaria a resección quirúrgica de metástasis hepáticas⁸. Nuestro caso fue secundario a traumatismo, demostrando así que efectivamente es una de las causas más frecuentes.
2. Fístula por patología hepática: las causas más comunes son el absceso hepático amibiano y el quiste hidatídico. Este último causa hasta el 14.3% de las FBB. La complicación principal es su ruptura, diseminándose hacia cavidad peritoneal, cavidad pleural y pulmón, lo que condiciona la comunicación de la vía biliar con el árbol bronquial. Otra causa rara es la tuberculosis hepática⁹.
3. Fístula debida a obstrucción de la vía biliar: las FBB y las fístulas biliopleurales son complicaciones comunes de la enfermedad de la vía biliar, ya sea por litiasis, estenosis, pancreatitis crónica, neoplasias, tuberculosis y *Ascaris lumbricoides*¹⁰.

Se han utilizado para el diagnóstico la broncoscopia, broncografía, colangiografía y la tomografía computarizada. Sin embargo, la broncoscopia ha sido la más utilizada (52%) como método diagnóstico, seguida por la colangiografía y la broncografía. Otras modalidades menos utilizadas para el diagnóstico de FBB es mediante colangiografía percutánea, resonancia magnética colangiopancreatográfica, exploración con ácido iminodiacético hepatobiliar, colescintigrafía por tomografía con emisión de positrones y el examen de esputo para bilirrubina¹¹⁻¹³.

En ausencia de tratamiento quirúrgico la mortalidad es alta, pudiendo ser superior al 50%¹⁴. El tratamiento de esta entidad es complejo y no existe una recomendación clara acerca del mejor abordaje. Pueden utilizarse técnicas no invasivas y/o procedimientos quirúrgicos. Existe una tendencia a preferir los procedimientos mínimamente

invasivos como la colangiopancreatografía retrógrada endoscópica con esfinterotomía y el drenaje percutáneo en los casos de obstrucción de la vía biliar, pues se han descrito casos en los que esta conducta es suficiente y evita el uso de intervenciones adicionales. Los procedimientos quirúrgicos, entre ellos la lobectomía pulmonar, cierre del defecto fistuloso en el diafragma, lobectomía hepática y anastomosis bilioentérica, usualmente no son de primera elección¹⁵⁻¹⁷.

Como manejo médico, algunos autores han informado el uso de análogos de la somatostatina como el octreótido, por su efecto en la reducción de las secreciones en el tracto gastrointestinal, sin embargo, a la fecha ningún caso ha sido resuelto en su totalidad únicamente con manejo médico¹⁸⁻²⁰.

En forma general, el tratamiento está dirigido a la interrupción de la comunicación biliobronquial; los métodos utilizados con mayor frecuencia son el drenaje percutáneo o la colocación de prótesis endoscópicas, pero si estos no son posibles, la cirugía es el siguiente paso. Por lo tanto, el tratamiento de elección es el quirúrgico. Se han reportado casos en donde la fístula fue reparada mediante toracotomía, ya sea con la resección (89%) o solamente ligadura (11%). Del mismo modo, hay reportes de casos de cierre espontáneo de la fístula (hasta el 60% en fístulas postraumáticas) después del drenaje biliar endoscópico o subcutáneo²¹.

Los estudios muestran que los métodos más conservadores necesitan un periodo de drenaje prolongado que a veces excede las cinco semanas de duración. La reinserción de tubos o el drenaje de nuevos focos inflamatorios es una indicación de abordaje quirúrgico en el manejo de estos pacientes. Sin embargo, el éxito de estos métodos depende del grado de proceso inflamatorio^{22,23}.

En fístulas crónicas asociadas con deterioro respiratorio, sepsis abdominal y torácica, la terapia agresiva con la cirugía se ha considerado tradicionalmente el estándar de oro. El abordaje quirúrgico mediante toracotomía puede convertirse en muchos casos en la opción de tratamiento. El drenaje pleural por empiema, escisión segmentaria del tejido pulmonar desvitalizado y/o descorticación también se han reportado; en nuestro caso clínico fue el tratamiento que se siguió, en especial de manera temprana. Se puede obtener también acceso inmediato a la cavidad abdominal a través de un

diafragma gravemente enfermo o tomar el control sobre una lesión penetrante con una frenotomía. Además, se puede inspeccionar el área hepática de afectación para bilomas, abscesos y cualquier otra patología que pueda requerir un acceso formal al abdomen²⁴. Los principios según Ferguson y Burford para un exitoso manejo de la fístula se mencionan a continuación²⁵:

- Tratamiento agresivo temprano por toracotomía.
- Drenaje subcostal adecuado del lecho hepático bajo visión directa.
- Cierre seguro de la perforación diafragmática por suturas no absorbibles.
- Descorticación para el pulmón.
- Lobectomía para la FBB y la necesidad de descompresión profiláctica del árbol biliar.

El paso más desafiante de la cirugía es restaurar la barrera natural entre el tórax y el abdomen. El diafragma como parte del proceso inflamatorio entre estos compartimentos es severamente dañado a medida que avanza la disección. Defectos enormes pueden manejarse con la movilización de tejido cercano, como músculo intercostal o grasa pericárdica en un abordaje torácico y con *omentum* mayor en abordaje abdominal²⁶. La malla sintética y AlloDerm también han sido utilizados en el pasado, aunque el escenario más deseable es un cierre primario con sutura no reabsorbible^{27,28}. Se demuestra cómo en el presente caso se realizó lo reportado en la bibliografía, haciéndose un abordaje quirúrgico de elección debido a la etiología de trauma; realizando descorticación y resección del parénquima afectado de forma temprana, así como la plastia diafragmática con sutura no absorbible.

Informes de intentos broncoscópicos para sellar la comunicación broncobiliar y análogos de somatostatina pueden ser considerados, pero la evidencia actual es limitada.

CONCLUSIÓN

La FBB es una entidad rara y de etiología variada, que se debe sospechar ante la presencia de biliptosis, siendo esta patognomónica. En el presente caso se

confirma efectivamente que el daño corrosivo de la bilis en las estructuras pleuropulmonares puede ser muy importante y llegar a ocasionar un neumotórax asociado de manera tardía, lo que lo hace más atípico en su presentación. Debe realizarse un diagnóstico confirmatorio con estudios complementarios y tener presentes las posibles causas que determinarán si el tratamiento debe o no ser quirúrgico.

AGRADECIMIENTOS

Agradecemos al Hospital Ángeles Puebla y al paciente por darnos todas las facilidades para hacer posible la realización de este trabajo.

FINANCIAMIENTO

La presente investigación no ha recibido ninguna beca específica de agencias de los sectores público, comercial o sin ánimo de lucro.

CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

RESPONSABILIDADES ÉTICAS

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

BIBLIOGRAFÍA

1. Guan-qun L, Hao W, Qiu-hui H, Sheng T. A successful treatment of traumatic bronchobiliary fistula by endoscopic retrograde biliary drainage. Chin J Traumatol. 2012;15(1):59-61.

2. Neuhauser EB, Elkin M, Landing B. Congenital direct communication between biliary system and respiratory tract. *AMA Am J Dis Child*. 1952;83(5):654-9.
3. Yu H, Stavas JM, Joseph M. Congenital tracheobiliary fistula combined with hypoplastic common hepatic duct: Management by percutaneous transhepatic drainage. *Radiol Case Rep*. 2011;6(4):564.
4. Pérez CG, Reusmannb A. Fístula broncobiliar congénita. *Caso clínico. Arch Argent Pediatr*. 2016;114(5):350-53.
5. Pappas SC, Sasaki A, Minuk GY. Bronchobiliary fistula presenting as cough with yellow sputum. *N Engl J Med*. 1982;307(16):1027.
6. Sutherland RD, Reynolds J, Sugg WL. Bile ptyalism associated with chest trauma and sickle cell crisis simulating bronchobiliary fistula. *Ann Thorac Surg*. 1972;13:537-42.
7. Mansour KA, Black WS, Dominy DE, Abbott OA. A new cause for biliobronchial fistula. *Dis Chest*. 1969;56:539-42.
8. Miranda M, Martakoush A, Cobos M. Fístula biliobronquial, una complicación tardía de la cirugía hepática. *Arch Bronconeumol*. 2018;54(5):284-96.
9. Muñoz CC, Burgos SJL, Fonseca SV. Fístula biliobronquial de origen hidatídico. *Rev Chil Cir*. 2009;61:504-6.
10. Corral-Sánchez MA, Gómez-Sanz R, Alvarado-Astudillo A, Rico Selas P, Moreno González E. Cholecyst-thoracic fistula a rare complication of lithiasic cholecystitis. *Chest*. 1994;106:1303-4.
11. Yu H, Stavas JM, Joseph M. Congenital tracheobiliary fistula combined with hypoplastic common hepatic duct: Management by percutaneous transhepatic drainage. *Radiol Case Rep*. 2011;6(4):564.
12. Hsu PS, Lee SC, Tzao C, Chen CJ, Cheng YL. Bronchoperitoneal fistula from a lung abscess. *Respirology*. 2008;13:1091-2.
13. Loinaz C, Hernández T, Mitjavila M, Martín J, Ochando F, Madariaga ML, et al. Biliobronchial fistula after liver surgery for giant hydatid cyst. *HPB Surg*. 2011;2011:347654.
14. Rabiou S, Lakranbi M, Ouadnouni Y, Panaro F, Smahi M. Surgical management of hydatid bilio-bronchial fistula by exclusive thoracotomy. *Int J Surg*. 2017;41:112-8.
15. Panda D, Aggarwal M, Yadav V, Kumar S, Mukund A, Baghmar S. Bronchobiliary fistula secondary to biliary obstruction and lung abscess in a patient with pancreatic neuro-endocrine tumor. *J Egypt Natl Cancer Inst*. 2016;28:117-21.
16. Kim JH, Kim MD, Lee YK, Hwang SG, Lee JH, Kim EK, et al. Bronchobiliary fistula treated with histoacryl embolization under bronchoscopic guidance: A case report. *Respir Med CME*. 2008;1:164-8.
17. Liao GQ, Wang H, Zhu GY, Zhu KB, Lv FX, Tai S. Management of acquired bronchobiliary fistula: A systematic literature review of 68 cases published in 30 years. *World J Gastroenterol*. 2011;17(33):3842-9.
18. Mehrzad H, Aziz A, Mangat K. Transhepatic embolisation of a traumatic bronchobiliary fistula: a novel approach. *BMJ Case Rep*. 2012 Nov 28;2012:bcr2012006702.
19. Singh B, Moodley J, Sheik-Gafoor MH, Dhooma N, Reddi A. Conservative management of thoracobiliary fistula. *Ann Thorac Surg*. 2002;73(4):1088-91.
20. Ong M, Moozar K, Cohen LB. Octreotide in bronchobiliary fistula management. *Ann Thorac Surg*. 2004;78(4):1512-3.
21. Galindo P, Bejarano J, Labrador C. Fístula biliopleurobronquial: reporte de un caso. *Rev Gastroenterol Peru*. 2017;37(4):391-3.
22. Dajer-Fadel W, Borrego R, Ibarra C. Fístula biliobronquial secundaria a herida torácica por proyectil de arma de fuego. *Neumol Cir Torax*. 2012;71(4):343-6.
23. Liao GQ, Wang H, Zhu GY, Zhu KB, Lv FX, Tai S. Management of acquired bronchobiliary fistula: A systematic literature review of 68 cases published in 30 years. *World J Gastroenterol*. 2011;17:3842-9.
24. Kontoravdis N, Panagiotopoulos N, Lawrence D. The challenging management of hepatopulmonary fistulas. *J Thorac Dis*. 2014;6(9):1336-9.
25. Ferguson TB, Burford TH. Pleurobiliary and bronchobiliary fistulas. *Surgical management*. *Arch Surg*. 1967;95:380-6.
26. Chua HK, Allen MS, Deschamps C, Miller DL, Pairolero PC. Bronchobiliary fistula: principles of management. *Ann Thorac Surg*. 2000;70:1392-4.
27. Gandhi N, Kent T, Kaban JM, Stone M, Teperman S, Simon R. Bronchobiliary fistula after penetrating thoracoabdominal trauma: case report and literature review. *J Trauma*. 2009;67E:143-5.
28. Rubikas R. Diaphragmatic injuries. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2001;20(1):53-7.