

Perforación espontánea de la vía biliar. Reporte de un caso y revisión de la literatura

Nubia Elisa Prada¹, Luis Augusto Zarate²

RESUMEN

Introducción: La perforación espontánea de la vía biliar es una entidad poco frecuente. En la población pediátrica generalmente es idiopática y se presenta como enfermedad subaguda, con síntomas inespecíficos asociados a dolor abdominal súbito, ictericia leve, distensión, ascitis o un abdomen agudo quirúrgico.

Objetivos y metodología: Presentar un ejemplo clásico de esta inusual entidad y revisar la literatura existente al momento. **Resultados:** Presentamos el caso de un menor masculino de 8 años, quien acude a urgencias por síntomas digestivos; durante la evolución presentó abdomen agudo, por lo cual no se realizaron imágenes que sugirieran el diagnóstico prequirúrgico. La laparotomía mostró peritonitis biliar secundaria a perforación puntiforme del confluente cistocolédociano. **Conclusión:** A pesar de ser una entidad poco frecuente, es fundamental el conocimiento de la misma para efectuar un manejo óptimo incluso en casos de diagnóstico intraoperatorio incidental. *Salud UIS 2008; 40: 197 - 201*

Palabras Clave: Conductos biliares extrahepáticos, conducto colédoco, rotura espontánea, fístula biliar, peritonitis, ascitis

ABSTRACT

Introduction: Spontaneous perforation of biliary tract is an uncommon condition presented in children and adults. Pediatric patient usually has not a defined etiology. Clinical presentation is generally sub acute, with unspecific symptoms like abdominal pain, mild jaundice, abdominal distention, ascites or signs of peritonitis. **Objectives:** To describe a clinical case which details the typical presentation of this entity and to review the concerning literature. **Results:** An 8 year old male presented unspecific digestive symptoms and signs of acute abdomen. He did not have ultrasonogram or abdominal scan for preoperative diagnosis. At surgery, he showed a perforation at the junction of the cystic and common bile duct. **Conclusion:** Despite the low incidence of spontaneous perforation of the common bile duct, it is fundamental to know the pathogenesis and optimal management especially in cases of incidental intraoperative diagnosis. *Salud UIS 2008; 40: 197 - 201*

Keywords: Biliary fistula, extrahepatic bile ducts, common bile duct, spontaneous rupture, peritonitis, ascites

1. MD. Residente de Cirugía General IV año, Universidad Industrial de Santander.

2. MD. Cirujano Pediatra, Docente Cirugía Pediátrica, Universidad Industrial de Santander

Correspondencia: Nubia Elisa Prada. E-mail: nubiaelisa@gmail.com

Luis Augusto Zarate. E-mail: zaratiao@hotmail.com

Recibido: Julio 1 de 2008 - **Aceptado:** Diciembre 15 de 2008

INTRODUCCIÓN

La perforación espontánea de la vía biliar es un hallazgo infrecuente tanto en la edad adulta como en pediatría; ocurre generalmente como consecuencia de causas adquiridas, sin embargo éstas varían según la edad y en un número significativo de casos la etiología no es clara. Se habla de perforación idiopática cuando no se encuentra asociada a cálculos, trauma o intervención médico-quirúrgica¹. En el paciente pediátrico, se han reportado aproximadamente 150 casos en la literatura mundial desde sus primeras descripciones en 1932 y 1936²⁻³. Se presenta con mayor frecuencia en niños menores de 4 años, con un pico en los lactantes entre 2 y 20 meses, sin embargo se han presentado casos de diagnóstico desde el periodo antenatal y en el recién nacido, hasta en niños mayores como el presentado en este caso²⁻⁵.

REPORTE DE CASO

Se trata de un paciente masculino de 8 años de edad quien ingresó a la institución con historia de 36 horas de dolor abdominal súbito tipo cólico, en mesogastrio irradiado posteriormente a fosa ilíaca derecha, manejado con antiespasmódicos sin mejoría; presentaba además hiporexia y vómito bilioso en dos oportunidades; sin referencia de fiebre, ni antecedentes previos relevantes.

Al ingreso el paciente se encontraba irritable, sin signos de respuesta inflamatoria sistémica, con ictericia leve en escleras; el abdomen con distensión leve, ruidos intestinales ausentes, y defensa voluntaria. En la valoración inicial se descarta abdomen agudo y se inicia observación clínica. Los valores de laboratorio se muestran en la Tabla 1. En las 6 horas siguientes presenta dolor persistente que aumenta en intensidad por lo cual se decide llevar a cirugía con diagnóstico de abdomen agudo, probablemente por apendicitis. Se realizó abordaje inicial en fosa iliaca derecha, encontrando peritonitis biliar generalizada; se realizó laparotomía con el hallazgo de perforación puntiforme del colédoco a nivel del confluente cisticocoledociano; la vesícula biliar estaba distendida con paredes edematizadas sin cálculos en su interior; no se evidenciaron alteraciones de la vía biliar extrahepática; se realizó exploración de la vía biliar sin hallazgos diferentes a la perforación. El drenaje biliar fue con un tubo en T colocado a través de la perforación. La evolución postquirúrgica transcurrió sin complicaciones; al 10° día se realizó colangiografía por el tubo en T (Figura 1) y se retiró el drenaje. El informe de patología demostró colecistitis crónica inespecífica, con inflamación aguda y hemorragia transmural del confluente cisticocoledociano (Figura 2). Durante el seguimiento el paciente no presentó síntomas adicionales y las pruebas de función hepática así como las imágenes de la vía biliar fueron normales.

Tabla 1. Resultados de los exámenes de laboratorio.

Tiempo de evolución	Informados en el hospital de referencia ^(a)	Ingreso a la institución ^(b)
Cuadro hemático		
Hemoglobina	14,5 mg/dl	13,6 mg/dl
Hematocrito	46%	40,9%
Leucocitos	15600	13400/cc
Segmentados	13%	82%
Linfocitos	9,1 %	8%
Eosinófilos	-	2%
Proteína C reactiva	< 6	12
Bilirribunas totales	1,35 mg/dl	1,94 mg/dl
Directa	1,22 mg/dl	0,72 mg/dl
Indirecta	0,13 mg/dl	1,22 mg/dl
ASAT	471 U/L	96 U/L
ALAT	297 U/L	385 U/L

^a 12 horas de iniciados los síntomas.

^b 36 h de iniciados los síntomas.

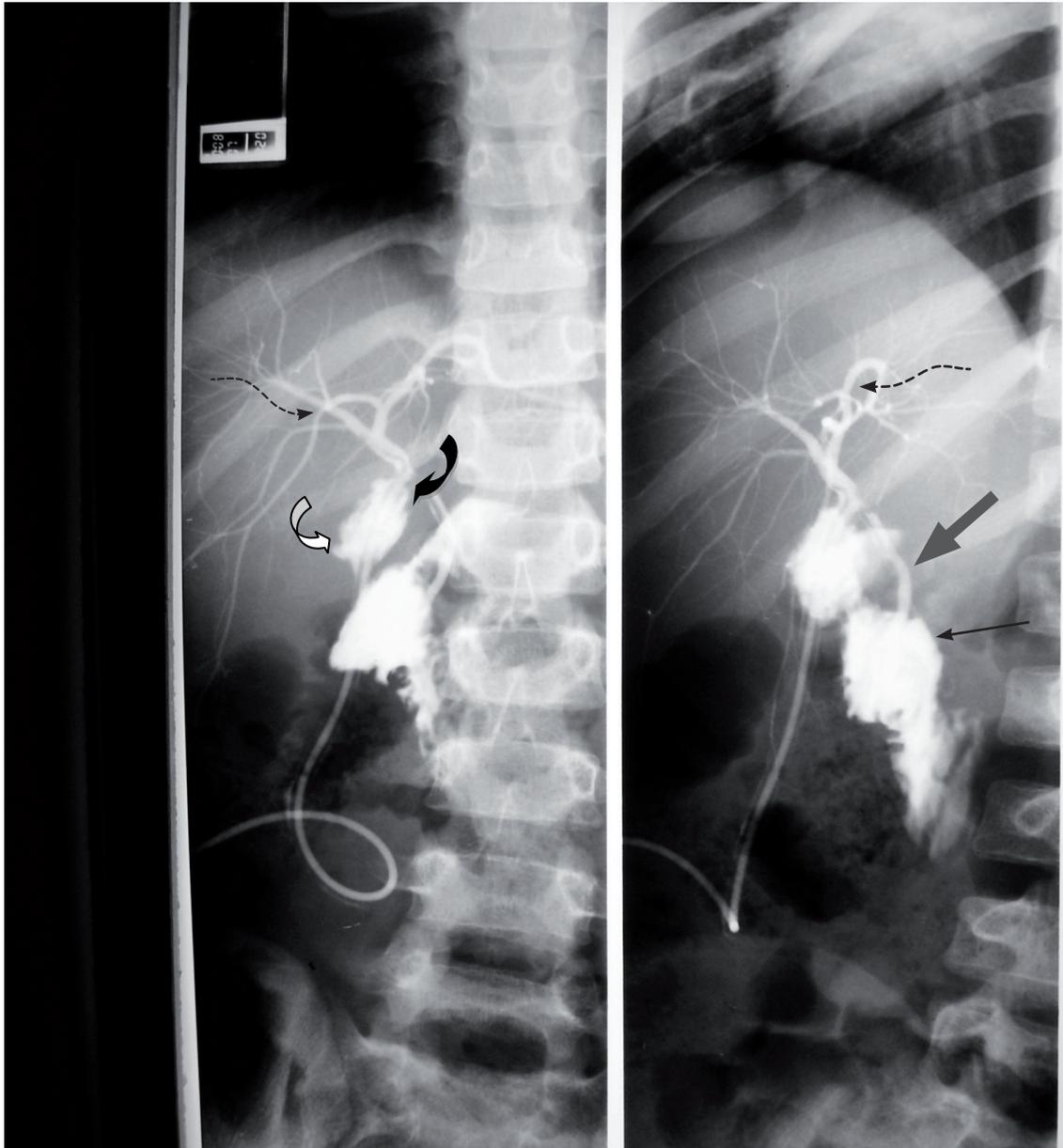


Figura 1. Colangiografía postoperatoria. Colangiografía por tubo en T (10 días postoperatorios): Se observa la vía biliar intrahepática (flechas punteadas), y extrahepática (flecha gris) de calibre normal, sin evidencia de malformaciones, fugas del medio de contraste ni perforaciones adicionales. En la unión del tubo en T con el colédoco (flecha curva negra) no hay escape del medio de contraste. Se observa paso adecuado del medio de contraste al duodeno (flecha negra recta). El escape en las paredes del tubo (flecha curva gris) no constituye un hallazgo anormal.

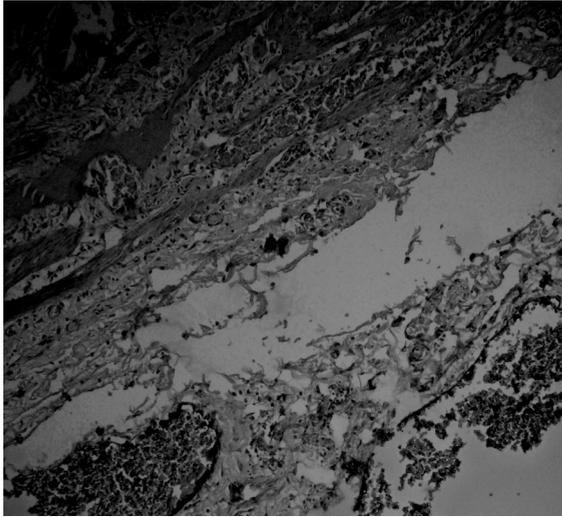


Figura 2. Unión cistocoleodociana. Aspecto microscópico de la perforación (Unión cistocoleodociana): infiltración hemorrágica transmural con infiltrado inflamatorio linfoplasmocitario. Hematoxilina-eosina. 40X.

DISCUSIÓN

Comparativamente con el adulto, la perforación biliar en el niño es con mayor frecuencia idiopática, y la asociación con cálculos o lesiones obstructivas es significativamente menor, del mismo modo el curso clínico y el pronóstico resultan más favorables en la población pediátrica⁶. Una combinación de factores participan en la etiopatogenia de esta entidad, sin embargo el mecanismo preciso no se conoce; es posible que exista una embriogenesis anormal de la pared de la vía biliar, dado por un área de mayor debilidad; el aumento en la presión de la vía biliar en teoría resultaría en la perforación del área defectuosa. Pueden existir factores asociados, como la infección y obstrucción de la vía biliar por cálculos, barro biliar o estenosis; otras causas propuestas son la trombosis de vasos murales, quistes y malformaciones biliopancreáticas, pero en general podría decirse que se trata de un origen multifactorial^{3-7-8,9}.

Las presentaciones clínicas son variadas, desde la peritonitis biliar generalizada, hasta los biliomas localizados en diferentes sitios de la cavidad peritoneal² y retroperitoneal, la colección biliar puede incluso migrar desde el retroperitoneo hasta la región inguinal y el escroto y presentarse como hernias encarceradas¹⁰. El paciente presentado debutó con el cuadro clásico, el cual

se trata de un paciente previamente sano que presenta dolor abdominal agudo, ictericia leve y hallazgos físicos de peritonitis⁷; existen síntomas acompañantes que son inespecíficos como emesis, hiporexia, irritabilidad y distensión abdominal; la tendencia como lo demuestra este paciente es la ausencia de fiebre. Según el tiempo de diagnóstico puede ocurrir deterioro progresivo del estado general, sin embargo habitualmente el paciente se presenta estable, sin deterioro en su función orgánica. Si bien es frecuente el hallazgo de ictericia leve, la función hepática generalmente es normal o muestra cambios discretos revelando un patrón obstructivo^{2,10}. El diagnóstico rara vez puede hacerse en forma prequirúrgica; incluyendo como diagnósticos diferenciales todas las causas de ascitis e ictericia en la población pediátrica⁷. La ecografía y la tomografía muestran líquido peritoneal libre o loculado, cuyos cultivos son generalmente negativos¹¹, y la vía biliar habitualmente no está dilatada⁷. La gammagrafía hepatobiliar es altamente sensible y específica para valorar la extravasación del radionúclido hacia la cavidad peritoneal, sin embargo su realización oportuna depende de un alto índice de sospecha preoperatorio^{12,8}, en ausencia de este método diagnóstico la confirmación mediante paracentesis de ascitis biliar permite realizar un diagnóstico definitivo y definir la conducta terapéutica¹¹.

El tratamiento siempre es quirúrgico y varía según el estado del paciente; si la vía biliar es normal es posible realizar simplemente drenaje externo y esperar el cierre espontáneo de la perforación aproximadamente después de 4 semanas³⁻⁸; sin embargo el manejo específico es controversial y varía entre el drenaje simple, la colecistostomía, cierre primario de la perforación con o sin derivación, drenaje biliar con tubo en T o bilioenteroanastomosis^{7,13}; en este caso, dado que la perforación era visible y el tamaño de la vía biliar permitía la exploración se decidió derivar la vía biliar con un tubo en T a través del sitio de la lesión.

En conclusión el caso descrito, muestra el curso clásico de esta entidad, de origen aun no establecido; aunque el diagnóstico no suele hacerse en forma prequirúrgica y requiere de alto índice de sospecha, en la población pediátrica generalmente sigue un curso favorable, con muy buen pronóstico para la mayoría de pacientes.

CONFLICTO DE INTERÉS

Los autores expresan la no existencia de conflictos de intereses.

REFERENCIAS

1. Spira, I. Spontaneous Rupture of the Common Bile Duct. *Ann. Surg.* 1976; 184(4): 433-5.
2. Kanojia, R.; Sinha, Sh.; Rawat, J.; Wakhlu, A.; Shivnarain, K.; Tandon, R. Spontaneous biliary perforation in infancy and childhood: Clues to diagnosis. *Indian J Pediatr.* 2007;74(5):509-10
3. Goldberg, D.; Rosenfeld, D.; Underberg-Davis, Sh. Spontaneous Biliary Perforation: Biloma Resembling a Small Bowel Duplication Cyst. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2000; 31(2):201-3
4. Topuzlu, G.; Yigit U.; Bulut, M. Is birth trauma responsible for idiopathic perforation of the biliary tract in infancy?. *Turk J Pediatr.* 1994; 36: 263–66.
5. Chilukuri, S.; Bonet, V.; Cobb, M.; Antenatal spontaneous perforation of the extrahepatic biliary tree. *American Journal of Obstetrics & Gynecology.* 1990;163(4 Pt 1):1201-2.
6. Kang, SB.; Han, HS.; Ki Min, S.; Lee, HK. Nontraumatic Perforation of the Bile Duct in Adults. *Arch Surg.* 2004;139:1083-87.
7. Imanieh, MH.; Mowla, A.; Zohouri, D.; Reza, H.; Karimi, M.; Spontaneous perforation of the common bile duct with eosinophilia in an 18-month-old girl: A case report and review of literature. *Med Sci Monit.* 2006; 12(4):CS31-3
8. Kasat, LS.; Borwankar, SS.; Jain, M.; Naregal, A. Spontaneous perforation of the extrahepatic bile duct in an infant. *Pediatr Surg Int.* 2001;17(5-6):463-4.
9. Hasegawa, T.; Udatsu, Y.; Kamiyama, M.; Kimura, T.; Sasaki, T.; Okada, A.; et al. Does pancreatobiliary maljunction play a role in spontaneous perforation of the bile duct in children?. *Pediatr Surg Int.* 2000;16:550-3.
10. Brady, RRW.; McAteer, E.; Weir, CD. Biliscrotum and Retroperitoneal Biloma: Spontaneous Rupture of the Biliary System presenting as an Incarcerated Inguinal Hernia. *Ulster Med J.* 2006; 75 (1):85-7
11. Sharma, Sh. B.; Sharma, SH.C.; Gupta, V. Spontaneous Biliary Perforation: A Rare Entity in Late Infancy and Childhood. *Indian Journal of Pediatrics.* 2003;70(10):829-31.
12. Niedbala, A.; Lankford, A.; Boswell, WC.; Rittmeyer, C. Spontaneous perforation of the bile duct. *Am Surg.* 2000 Nov; 66(11):1061-3.
13. Spigland, N.; Greco, R.; Rosenfeld, D. Spontaneous biliary perforation: does external drainage constitute adequate therapy? *J Pediatr Surg.* 1996 Jun;31(6):782-4.