

## Fístula biliopleurobronquial: reporte de un caso

Bronchobiliary fistula. Report of a case

Pablo Galindo Orrego<sup>1</sup>, Janeth Bejarano Rengifo<sup>1</sup>, Christian Labrador López<sup>1</sup>, Geovanny Hernández Cely<sup>2</sup>, Oscar Alfredo Beltrán Galvis<sup>2</sup>, Martín Alonso Garzón Olarte<sup>2</sup>, Enrique Ponce de León Chau<sup>2</sup>, Jorge Alberto Ceballos Hurtado<sup>2</sup>, Diana Carolina Salinas Gómez<sup>2</sup>, Adriana Varón Puerta<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Universidad del Rosario. Bogotá, Colombia.

<sup>2</sup> Servicio de Gastroenterología y Endoscopia Digestiva, Fundación Cardioinfantil, Instituto de Cardiología. Bogotá, Colombia.

Recibido: 6-12-2016

Aprobado 18-5-2017

### RESUMEN

La fístula biliopleurobronquial (FBB) es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial. Es una condición infrecuente, generalmente secundaria a un proceso infeccioso local o a un evento traumático. La biliopneumotórax es patognomónica. Presentamos el caso de una mujer de 37 años con historia de cirrosis biliar secundaria, en lista para trasplante hepático, con múltiples episodios de colangitis previos y usuaria de derivación biliar externa, quien cursó con biliopneumotórax y mediante gammagrafía HIDA con SPECT se confirmó fístula biliopleurobronquial. Este caso se resolvió con derivación percutánea de la vía biliar.

**Palabras clave:** Conductos biliares; Fístula bronquial; Gammagrafía (fuente: DeCS BIREME).

### ABSTRACT

Bronchobiliary fistula (BBF) is an abnormal communication between the biliary tract and the bronchial tree. Is an infrequent condition, usually secondary to a local infectious process or a traumatic event. Biliopneumotórax is pathognomonic. We present the case of a 37 year old woman with secondary biliary cirrhosis, in list for liver transplantation, with several episodes of cholangitis and carrier of external biliary diversion, who presented biliopneumotórax and HIDA scintigraphy with SPECT confirmed BBF. This case was resolved with percutaneous derivation of the biliary tract.

**Keyword:** Bile ducts; Bronchial fistula; Radionuclide imaging (source: MeSH NLM).

## INTRODUCCIÓN

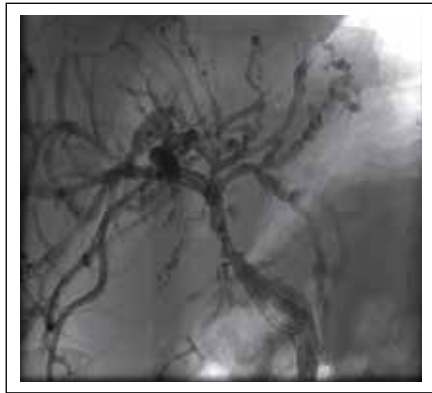
La fístula biliobroncopulmonar es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial, es una condición infrecuente, reportada por primera vez por Peacock en 1850<sup>(1)</sup>. El síntoma principal es la biliopneumotórax, puede ser congénita o adquirida, secundaria a la ruptura de quistes hidatídicos, abscesos hepáticos, trauma o iatrogenia<sup>(2,3)</sup>. El tratamiento es multidisciplinario, no hay una estrategia de manejo ampliamente aceptada, puede incluir técnicas mínimamente invasivas y/o procedimientos quirúrgicos<sup>(2)</sup>.

## CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 37 años, con antecedente de colecistectomía laparoscópica convertida por lesión de la vía biliar a nivel del hilio hepático hace 4 años, múltiples episodios de colangitis posteriores, usuaria de derivación biliar percutánea y con cirrosis biliar secundaria CHILD A, MELD 14, en lista para trasplante

hepático por múltiples descompensaciones en forma de sangrado variceal, ingresa con cuadro clínico de 7 días de evolución consistente en tos con expectoración verdosa abundante de características biliares, disnea mMRC 3/4 y ausencia de drenaje biliar en los últimos 4 días previos al ingreso. A la exploración física con taquicardia, tinte icterico en piel y mucosas, estertores en base pulmonar derecha, dolor a la palpación del hipocondrio derecho sin irritación peritoneal y derivación biliar sin drenaje. Con leucocitosis leve, neutrofilia, elevación de reactantes de fase aguda, alteración del perfil hepático con patrón obstructivo, con deterioro con respecto a valores previos, e hipoxemia moderada.

La radiografía de tórax evidenció discreto engrosamiento intersticial peribroncovascular parahiliar, basal derecho e infiltrados alveolares en lóbulo medio. Con sospecha de fístula biliobronquial se inicia cubrimiento antibiótico y se realiza colangiografía por el catéter de derivación biliar interno-externo



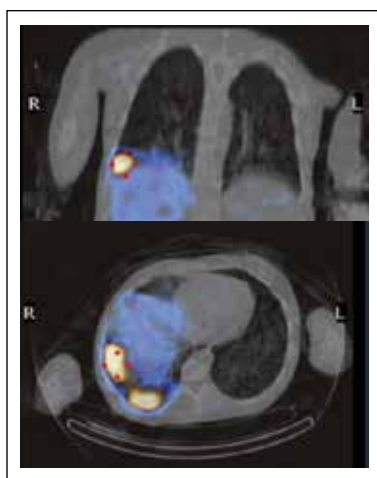
**Figura 1.** Colangiografía por catéter. Dilatación arrosariada de la vía biliar.

que muestra adecuada opacificación de la vía biliar, dilatación "arrosariada" de ésta, sin identificar fístula biliobronquial (Figura 1).

Ante la persistencia de biliopneumotórax se realiza gammagrafía hepatobiliar HIDA con tomografía computarizada de emisión monofotónica (SPECT) en la que se identifica radiotrazador en el espacio pleural del hemitórax derecho, en la luz del árbol bronquial ipsilateral, en la carina y en el rastreo del esputo (Figuras 2, 3 y 4), confirmándose la presencia de fístula biliopleurobronquial.

Se decide cambio de catéter de derivación biliar izquierda y adicional derivación de la vía biliar derecha, logrando aumento del débito a través de éstas y resolución de la biliopneumotórax.

La paciente egresa de la institución y a los 4 días recibe un trasplante hepático de donante cadavérico.



**Figura 2.** Gammagrafía HIDA con SPECT. Depósito del radiotrazador en el receso costofrénico lateral y posterior derecho, confirma fístula biliopleural con derrame bilioso derecho.

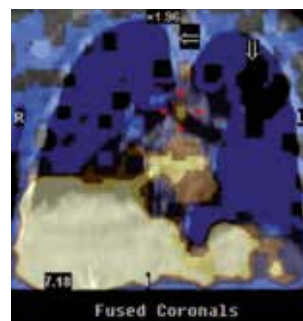
## DISCUSIÓN

La fístula biliobroncopleural es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial. Generalmente son secundarias a ruptura de procesos infecciosos hepáticos (quistes hidatídicos, abscesos), iatrogenia de la vía biliar durante cirugías hepatobiliares, condiciones predisponentes de obstrucción de la vía biliar (litiasis, neoplasias, estenosis) en las que se forma un bilioma que erosiona el diafragma y condiciona una comunicación directa entre los árboles biliar y bronquial<sup>(3)</sup>.

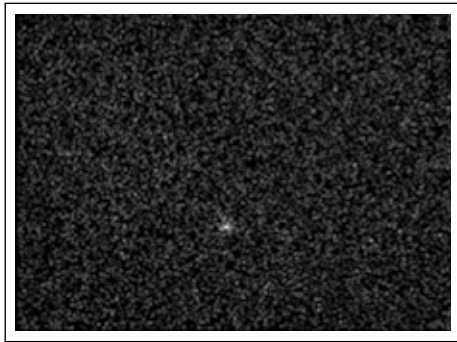
La presencia de biliopneumotórax es patognomónica, se presenta en casi el 100% de los casos. Otros síntomas frecuentes son la tos, dolor torácico, dolor abdominal en el cuadrante superior derecho, ictericia y fiebre. Algunos pacientes pueden cursar con neumonía bacteriana recurrente asociada a derrame pleural derecho por la neumonitis química que produce la bilis<sup>(2-4)</sup>.

El diagnóstico puede ser difícil de realizar, entre los estudios imagenológicos que han demostrado utilidad para confirmar esta condición están la gammagrafía con HIDA, colangiopancreatografía por resonancia nuclear magnética (colangiografía RM), tomografía axial computarizada (TAC), colangiopancreatografía retrograda endoscópica (CPRE) y colangiografía transhepática percutánea<sup>(2,3,5,6)</sup> los dos últimos considerados los más precisos y con posibilidad de intervención terapéutica<sup>(2)</sup>. En éste caso la gammagrafía HIDA con SPECT confirmó el diagnóstico. El sitio más frecuente de formación de FBB es la región posteromedial del hemidiafragma derecho<sup>(3)</sup>.

El tratamiento de ésta entidad es complejo, no existe una recomendación clara acerca del mejor abordaje. Pueden utilizarse técnicas no invasivas y/o procedimientos quirúrgicos<sup>(7,8)</sup>. Existe una tendencia a preferir los procedimientos mínimamente invasivos como la CPRE con esfinterotomía y el drenaje



**Figura 3.** Gammagrafía HIDA con SPECT. Presencia del radiotrazador en la luz de la carina, confirma fístula biliopleurobronquial.



**Figura 4.** Gammagrafía HIDA. Presencia de material radiactivo en el rastreo del esputo.

percutáneo en los casos de obstrucción de la vía biliar, se han descrito casos en los que esta conducta es suficiente y evita el uso de intervenciones adicionales <sup>(2)</sup>, como ocurrió con nuestra paciente.

Los procedimientos quirúrgicos, entre ellos la lobectomía pulmonar, cierre del defecto fistuloso en el diafragma, lobectomía hepática, anastomosis bilioentérica, usualmente no son de primera elección.

Su utilidad queda relegada al fallo de las técnicas mínimamente invasivas o cuando la FBB es secundaria a tumores o trauma <sup>(2)</sup>.

Se han descrito abordajes terapéuticos con cirugía laparoscópica, embolización endobronquial, embolización transhepática con buenos resultados <sup>(9-12)</sup>.

Como manejo médico, algunos autores han informado el uso de análogos de la somatostatina, como el octreotide, por su efecto en la reducción de las secreciones en el tracto gastrointestinal, sin embargo, a la fecha ningún caso ha sido resuelto completamente únicamente con manejo médico <sup>(3,13,14)</sup>.

El pronóstico de los pacientes con FBB depende de la etiología de la FBB (favorable cuando es infecciosa, y pobre en casos de neoplasias) <sup>(2)</sup>, del estado de salud previo del paciente, de la capacidad para tolerar la cirugía y del diagnóstico temprano.

En conclusión, la FBB es una patología poco común, con elevada morbilidad, que exige un diagnóstico y manejo oportunos. El manejo debe ser individualizado, podría requerir de la combinación de estrategias terapéuticas, tal elección queda a criterio de un grupo multidisciplinario de especialistas, de acuerdo a las condiciones del paciente, la etiología de la FBB, la tecnología disponible y la experiencia del centro.

**Conflictos de intereses:** Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

**Fuente de financiamiento:** Ninguna.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Peacock TB. Case in which hydatids were expectorated and one of suppuration of hydatidcyst of the liver communicating with the lungs. *Edinburgh Med Surg J.* 1850;74:33-46.
2. Liao G-Q, 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.
3. Crnjac A, Pivec V, Ivanecz A. Thoracobiliary fistulas: literature review and a case report of fistula closure with momentum. *Radiol Oncol.* 2013;47(1):77-85.
4. Olivencia-Yurvati AH, Rollins C. Bilorrhea secondary to bronchobiliary fistula. *Int Surg.* 2014;99(4):438-41.
5. Karabulut N, Cakmak V, Kiter G. Confident diagnosis of bronchobiliary fistula using contrast-enhanced magnetic resonance cholangiography. *Korean J Radiol.* 2010;11(4):493-6.
6. Seyyedmajidi M, Kiani M, Javadi H, Raeisi A, Assadi M. Hepatobiliary scintigraphy with SPET in the diagnosis of bronchobiliary fistula due to a hydatid cyst. *Hell J Nucl Med.* 2015;18(2):160-2.
7. Kuo YS, Lee SC, Chang H, Hsieh CB, Huang TW. Thoracoscopic surgery for bronchobiliary fistula: a case report. *J Cardiothorac Surg.* 2014;9:139.
8. Na KJ, Jung JC, Hwang Y, Lee HJ, Park IK, Kang CH, et al. Minimally invasive surgical repair for congenital bronchobiliary fistula in an adult. *Ann Thorac Surg.* 2016;101(4):1584-7.
9. Mehrzad H, Aziz A, Mangat K. Transhepatic embolisation of a traumatic broncho-biliary fistula: a novel approach. *BMJ Case Rep.* 2012;2012. pii: bcr2012006702.
10. Jung GO, Park DE. Successful percutaneous management of bronchobiliary fistula after radiofrequency ablation of metastatic cholangiocarcinoma in a patient who has a postoperative stricture of hepaticojejunostomy site. *Korean J Hepatobiliary Pancreat Surg.* 2012 Aug;16(3):110-4.
11. Mukkada RJ, Antony R, Francis JV, Chettupuzha AP, Augustine P, Venugopal B, et al. Bronchobiliary fistula treated successfully with endoscopic microcoils and glue. *Ann Thorac Surg.* 2014;98(2):e33-4.
12. Kostopanagiotou K, George RS, Kefaloyannis E, Papagiannopoulos K. Novel technique in managing bronchobiliary fistula in adults: Endobronchial embolization using silicone spigots in 2 cases. *Ann Thorac Med.* 2015;10(1):67-8.
13. Singh B, Moodley J, Sheik-Gafoor MH, Dhooma N, Reddi A. Conservative management of thoracobiliary fistula. *Ann Thorac Surg.* 2002;73(4):1088-91.
14. Ong M, Moozar K, Cohen LB. Octreotide in bronchobiliary fistula management. *Ann Thorac Surg.* 2004;78(4):1512-3.

### Correspondencia:

Janeth Bejarano Rengifo

Cll. 163A # 13B-60 Departamento Medicina Interna, Fundación Cardioinfantil. Bogotá, Colombia.

E-mail: janesita87@gmail.com