

Coledocolitiasis múltiple y colangitis en paciente con quiste de colédoco, a propósito de un caso

Multiple choledocholithiasis and cholangitis in a patient with choledochal cyst, a case report

Josefa Venegas N¹, Álvaro Tapia F¹, Carolina Salazar C¹, Alejandra Valdivia C¹, Víctor Ortiz R²

1. Licenciado en Medicina. Facultad de Medicina Universidad Mayor, Temuco, Chile

2. Especialista en Cirugía General, Docente Universidad Mayor, Clínica Mayor, Unidad de Cirugía, Temuco, Chile

Correspondencia a:

Josefa Venegas Navarrete.
Las camelias 1404, Temuco, Chile
Josefa.venegas11@gmail.com

Sin fuentes de financiamiento externo

Palabras Clave

Quiste del colédoco
Ictericia obstructiva
Tracto biliar

Key Words

Choledochal cysts
Cholestatic jaundice
Bile ducts

Recibido para publicación:

18 de Julio de 2016

Aceptado para publicación:

12 de Noviembre de 2016

Los autores declaran no tener conflictos de intereses en relación a este artículo

Citar como:

Venegas J, Tapia A, Salazar C, Valdivia A, et al. Multiple choledocholithiasis and cholangitis in a patient with choledochal cyst, a case report. Rev ANACEM 2015; 9(2): 85-89

RESUMEN

Introducción: El quiste de colédoco (QC) es una patología infrecuente, caracterizada por una dilatación de vía biliar intra o extrahepática. Constituye una lesión congénita, representado 1% de las lesiones biliares benignas. Tiene una incidencia de 1 en 100.000 a 150.000 habitantes. Es más frecuente en mujeres, y su etiología es desconocida. En adultos los síntomas son inespecíficos; predominando dolor abdominal e ictericia. **Presentación del caso:** Mujer de 61 años con cólico abdominal en hipocondrio derecho de tres días, vómitos e ictericia. Al ingreso hospitalario presentaba leucocitosis, hiperbilirrubinemia, aumento de fosfatasa alcalina, transaminasas y amilasa. Se plantearon los diagnósticos de ictericia obstructiva, pancreatitis y quiste hidatídico complicado, por lo que se realiza tomografía computada (TC) de abdomen evidenciando dilatación sacular intra y extrahepática, compatible con QC tipo IV-a. Se realizó colecistectomía y coledocostomía con sonda T de urgencia por evolución a colangitis con resultados favorables. **Discusión:** Los QC son una causa rara de ictericia obstructiva. En Chile existen escasos datos estadísticos al respecto. Se manifiesta con una sintomatología inespecífica, sobretodo en adultos. El diagnóstico se realiza con hallazgos de laboratorio concordantes con ictericia colestásica, donde los estudios imagenológicos como ultrasonido y TC tienen un rol importante, pese a que en algunas ocasiones pueden pasar inadvertido. Es primordial un alto índice de sospecha para el diagnóstico y un tratamiento oportuno debido a su importante riesgo de progresión a colangiocarcinoma.

ABSTRACT

Introduction: Choledochal cysts (CCs) is a rare disease characterized by dilatation of the intrahepatic or extrahepatic bile duct, which is about 1% of all benign biliary lesions. Its incidence is 1:100,000 to 150,000 habitants. It is more common in females, and its etiology is unknown. In adults the symptoms are nonspecific, predominantly abdominal pain and jaundice. **Case Report:** 61 year old female patient with three days of severe abdominal colic in the right upper quadrant, whit both vomiting and jaundice. On admission, she presents leukocytosis, hyperbilirubinemia, and increased levels of alkaline phosphatase, transaminases and amylase. Diagnosis of obstructive jaundice, pancreatitis and complicated hydatid cyst arising. The abdominal CT Scan reveals intra and extrahepatic saccular dilatations, compatible with a type IV-a CCs. Both cholecystectomy and T-tube choledochotomy were done by evolution to cholangitis with favorable results and satisfactory postoperative. **Discussion:** CCs is a rare cause of obstructive jaundice, and in this regard, there are few data described in Chile, Its diagnosis requires a high index of suspicion because of its nonspecific symptoms found mostly in adults. Despite this, the diagnosis is determined with laboratory findings consistent with cholestatic jaundice and support diagnostic imaging such as ultrasound, CT Scan, among others. Although the imaging findings, it may not be detected. A correct diagnosis and appropriate treatment is essential because of its high risk of progre-

ssion to cholangiocarcinoma. Currently the patient is waiting for resection of extrahepatic bile duct and Roux-en-Y hepatic jejunostomy which is the optimal treatment.

INTRODUCCIÓN

La dilatación quística de la vía biliar (DQVB) o quiste del colédoco (QC) es una patología hereditaria de la vía biliar extrahepática, pudiendo estar asociada a una dilatación congénita o adquirida de vía biliar intrahepática (1). Es una malformación infrecuente del árbol biliar (2), constituyendo aproximadamente el 1% de todas las lesiones biliares benignas (3); siendo más del 66% de los casos reportados en Asia y oriente (1). En países occidentales la incidencia oscila entre 1 en 100.000 a 150.000 habitantes (4), siendo solo el 20% diagnosticado en edad adulta (5). En todos estos casos, existe una clara predilección por el sexo femenino (6).

Existe controversia en cuanto a la etiología de los QC. La teoría más aceptada, se basa en estudios de Babbit, que propone una relación anómala en la unión biliopancreática, dando lugar a un conducto común de mayor longitud, grosor y de ángulo más recto antes de su desembocadura, lo que impediría la función normal del esfínter, favoreciendo reflujo pancreático al colédoco, el cual lo lesiona, provocando estenosis distal y conduciéndolo a la dilatación (7).

La presentación clínica varía según la edad del paciente (8), siendo la triada clásica (ictericia, dolor y masa abdominal) más frecuente en niños (85%) en comparación con los adultos (25%) (9), donde los síntomas son más inespecíficos (dolor abdominal e ictericia) por lo que el diagnóstico requiere alto grado de sospecha (2).

Los QC se dividen en 6 tipos (Tabla 1) según la clasificación de Alonso-Lej, modificada por Todani (10, 11). El tipo I es el más frecuente (80-90%) y corresponde a una dilatación segmentaria o fusiforme del colédoco. El tipo II o divertículo en el cístico. El tipo-III o coledococele es el más raro (2%). El tipo IV es el segundo en frecuencia (10-15%) y se caracteriza por múltiples dilataciones

quísticas de la vía biliar intra y extrahepática (IVa) o únicamente de la extrahepática (IVb). El tipo V o enfermedad de Caroli es una afectación difusa quística de la vía biliar intrahepática (12).

PRESENTACIÓN DEL CASO

Mujer de 61 años proveniente de sector rural en Lumaco, sin antecedentes mórbidos, ingresó al Hospital San José de Victoria con cuadro de cólico abdominal en hipocondrio derecho, de tres días de evolución, no irradiado, asociado a vómitos e ictericia.

Al ingreso se encontraba afebril, hemodinamicamente estable, sin requerimientos de oxígeno. El examen físico evidenció ictericia en escleras, abdomen blando, depresible, con dolor a la palpación en hipocondrio derecho, con signo de Murphy presente. En los exámenes de laboratorio destacaron leucocitos de 13.800/mm3, con un 94.3% de neutrófilos segmentados, proteína C reactiva de 44.9 mg/L, bilirrubina total de 6.10 mg/dl, con bilirrubina directa de 5.54 mg/dl, fosfatasas alcalinas de 377 UI/L, glutamato oxaloacética transaminasa de 79.0 UI/L, glutamato pirúvica transaminasa de 80.0 UI/L, gamma-glutamil transpeptidasa de 1059 UI/L y amilasa de 354 UI/L. Se realizó un diagnóstico presuntivo de ictericia colestásica, pancreatitis aguda y quiste hidatídico complicado, por la elevada prevalencia de esta patología en el sector cordillerano de la región de la Araucanía

La tomografía computada (TC) de abdomen y pelvis, reveló hepatomegalia difusa con una significativa dilatación de la vía biliar intra y extrahepática (Figura 1), con imágenes densas sugerentes de litiasis. En el colédoco distal se encontró una imagen nodular redondeada, densa, intraluminal con engrosamiento parietal de

Tabla 1. Clasificación quistes de colédoco

Tipo	Descripción
Tipo I	Dilatación fusiforme del conducto biliar común (80-90% de los casos)
Tipo II	Divertículo de colédoco (0-2% de los casos).
Tipo III	Dilatación sacular del conducto biliar común dentro de la pared duodenal o coledococele
Tipo IV	Múltiples dilataciones biliares intra y extrahepáticas (10-15%): Variante A: compromiso intra y extrahepática. Variante B: confinada a la vía biliar extrahepática.
Tipo V	Dilatación quística, fusiforme o sacular de los conductos biliares intrahepáticos, asociados o no a fibrosis hepática (Enfermedad de Caroli)

Figura 1. Tomografía computada de abdomen y pelvis. Se observa dilatación de vía biliar intrahepática a expensas del hepático izquierdo, sin dilatación de vía biliar periférica, por fuera de conductos hepáticos principales

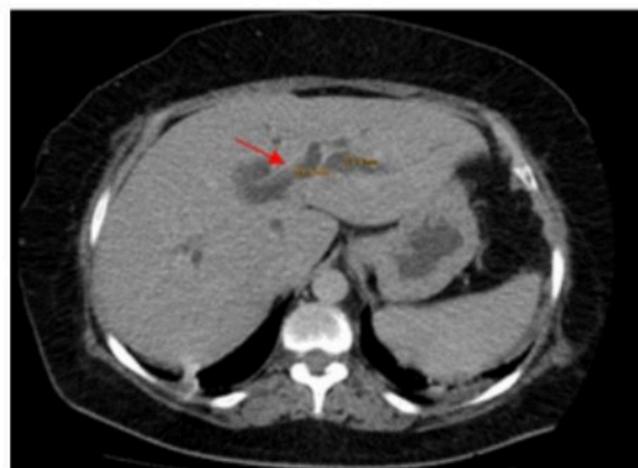


Figura 2. Tomografía computada de abdomen y pelvis. Colédoco distal con imagen nodular redondeada densa intraluminal y engrosamiento parietal de etiología inflamatoria/infecciosa

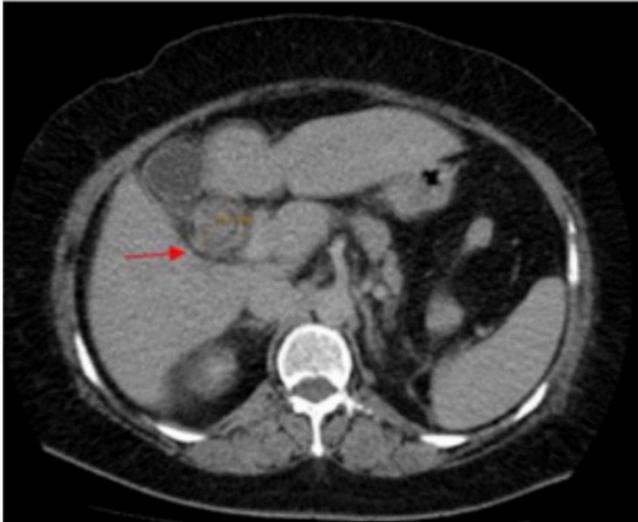


Figura 3. Colangiografía intraoperatoria. Se observa dilatación de vía biliar intra y extrahepática con gran dilatación de ambos conductos hepáticos



etiología inflamatoria-infecciosa (Figura 2), y el páncreas estaba aumentado de tamaño en la cola, sugiriendo un proceso inflamatorio.

Durante el primer día de hospitalización, la paciente presentó un alza térmica de hasta 38.2°C axilar, aumento de dolor abdominal y persistencia de ictericia, diagnosticándose colangitis aguda, que requirió manejo quirúrgico durante el tercer día de hospitalización, efectuándose colecistectomía y coledocostomía con sonda T. En el intraoperatorio se constató una dilatación de la vía biliar extrahepática de 6 cm de diámetro con múltiples cálculos de 3 a 4 cm, asociado a dilatación sacular de conductos hepáticos derecho e izquierdo, este último ocupado por cálculos de 2 a 5 cm, los

que una vez evacuados, dieron salida a múltiples cálculos cilíndricos de procedencia intrahepática. Se realizó una colangiografía intraoperatoria, en la que no se reveló la presencia de cálculos residuales (Figura 3).

La paciente evolucionó de forma favorable, con remisión de sintomatología y normalización de exámenes. Se indicó alta a los 14 días posterior a la cirugía, dada la condición de ruralidad de la paciente. En el control de primer mes postoperatorio, la colangiografía por sonda T reveló dos cálculos residuales en conductos hepáticos derechos.

DISCUSIÓN

El presente caso de DQVB corresponde al tipo IVa según la clasificación descrita por Alonso-Lej, modificada por Todani (13). Forma parte del 10- 15% de los QC, siendo el segundo en frecuencia (12). En vista de la rareza de este cuadro, consideramos importante mencionar este caso con el propósito de incrementar el índice de sospecha diagnóstica de esta infrecuente patología.

En cuanto a la forma de presentación de ésta anomalía, en el caso se manifestó en un paciente adulto de sexo femenino, en concordancia a lo descrito en la literatura, que describe mayor incidencia en mujeres, con una frecuencia de mujer/hombre de 3: 1, respectivamente (14), siendo más prevalente la pesquisa de los QC tipo IVa en la población adulta (15).

Los síntomas más frecuentes, dolor abdominal e ictericia (16) fueron el principal motivo de consulta de la paciente al ingreso. Pese a que no manifestó la triada clásica de ictericia, dolor abdominal y masa palpable, que fue descrita por Rattan en un estudio en el año 2000 (17) y que se manifiesta solo en un 25% de los adultos (10), si presentó un cuadro concordante con colangitis y pancreatitis aguda, características que son descritas como otras manifestaciones de los QC, por un estudio realizado el año 1998 por Ando K junto a otros investigadores (18).

Los exámenes realizados en nuestra paciente, revelaron una elevación de la bilirrubina total a expensas de la fracción conjugada, aumento de la fosfatasa alcalina, transaminasas, amilasas y leucocitosis; alteraciones que están fuertemente relacionadas a la presencia de QC tal como se describe según diversos estudios (4), siendo de igual forma sumamente inespecíficos, lo que en una primera instancia avaló el diagnóstico de colangitis y pancreatitis aguda en el paciente.

Para el establecer el diagnóstico de QC, se sigue empleando el uso del ultrasonido como primera línea (16), con una sensibilidad que va desde el 71% al 97% (19). Sin embargo, en el caso presentado, debido a la sospecha inicial de quiste hidatídico complicado (por la elevada prevalencia de esta patología en la región de la Araucanía) y pancreatitis aguda, se realiza TC de abdomen y pelvis, que confirma la presencia de dilatación de vías biliares intra y extrahepáticas.

Los QC de tipo IVa han sido objeto de controversia con respecto a su tratamiento. La mayor parte de los trabajos publicados recomiendan la resección de los quistes extrahepáticos seguida de una hepaticoyeyunostomía en "Y-de-Roux" (20,21). En nuestra paciente, la cirugía se limitó a una colecistectomía con una coledocostomía por sonda T debido a la necesidad de resolver la patología de forma urgente. Sin embargo, la resolución definitiva, corresponde a la resección de vía biliar extrahepática y reconstrucción de la misma con una hepatoyeyuno anastomosis en Y-de-roux.

La complicación de mayor gravedad en los QC es la malignización de los conductos biliares. Se ha reportado una incidencia de hasta un 30% de carcinoma de la vía biliar en pacientes con QC, diagnóstico que aumenta 20 veces el riesgo en comparación con la población general (0,01%- 0,05%) (22). Es por esto que es de suma importancia su detección temprana y tratamiento oportuno, sobre todo en los quistes tipo IVa debido a que frecuentemente se conserva la porción quística intrahepática, conllevando un mayor riesgo de presentar carcinoma (12, 23); es por esto que deben ser sometidos a un seguimiento muy estrecho de por vida.

AGRADECIMIENTOS

Al Dr. Jorge Sanhueza S., Coordinador de Investigación y Extensión, y docente de la carrera de Medicina, Universidad Mayor, Temuco, Chile. Por su apoyo y motivación en el desarrollo de investigación a nivel académico

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

(1) Crittenden S, McKinley M. Choledochal cyst clinical features and classification. *Am J Gastroenterol.* 1985; 80:643-7.

(2) Arrieta A, Manzano A, Navarro D, Durango R. Dilema en el diagnóstico de quiste de colédoco. Reporte de un caso. *Gen.* 2011; 65:237-9.

(3) Ruiz M, Brenes D, Ayi J. Quiste de colédoco. *Rev Med Cos Gen.* 2011; 596:49-56.

(4) Lee H, Park S, Bum H, Lee A, Moon J, Chang Y. Imaging features of adult choledochal cysts: a pictorial review. *Korean J Radiol.* 2009; 10: 71-80.

(5) Rodríguez S, García R, Prieto R. Quistes del Colédoco: Experiencia Institucional, Clínica del Niño. *Rev Colomb Cir.* 1999; 14:104-8.

(6) Jiménez M, Soria V, Martín J, Olalla J, Giménez A, Alcaraz E, et al. Quiste de colédoco tipo II intrapancreático del adulto malignizado: duodenopancreatectomía. *Rev Esp Enferm Dig.* 2014; 106(3):223-6.

(7) Hill R, Parsons C, Farrant P, Sellars M, Davenport M. Intrahepatic duct dilatation in type 4 choledochal

malformation: pressure related, postoperative resolution. *J Pediatr Surg* 2011; 46: 299-303.

(8) Germani M, Liberto D, Elmo G, Lobos P, Ruiz E. Choledochal cyst in pediatric patients: A 10 years single institution experience. *Acta Gastroenterol Latinoam.* 2011; 41:302-7.

(9) Saluja SS, Nayeem M, Sharma BC, Bora G, Mishra PK. Management of choledochal cysts and their complications. *Am Surg* 2012; 78: 284-290.

(10) Alonso-Lej JF, Rever WB Jr, Pessagno DJ. Congenital choledochocoele cyst, with a report of 2, and analysis of 94 cases. *Int Abstr Surg* 1959; 108:1-30.

(11) Todani T, Watanabe Y, Narusue M, Tabuchi K, Okajima K. Congenital bile duct cyst: Classification, operative procedures, and review of thirty-seven cases including cancer arising from choledochal cyst. *Am J Surg* 1978; 134:263-9.

(12) Lee SE, Jang JY, Lee YJ, Choi DW, Lee WJ, Cho BH, et al. Choledochal cyst and associated malignant tumors in adults: A multicenter survey in South Korea. *Arch Surg.* 2011; 146:1178-84.

(13) Todani T, Watanabe Y, Toki A, Morotomi Y. Classification of congenital biliary cystic disease: special reference to type Ic and IVa cysts with primary ductal stricture. *J Hepatobiliary Pancreat Surg.* 2003; 10:340-4.

(14) Rozel C, Garel L, Rypens F, Viremouneix L, Lapierre C, Decarie JC, Dubois J. Imaging of biliary disorders in children. *Pediatr Radiol.* 2011; 41: 208-220.

(15) Soreide K, Korner H, Havnen J, Soreide JA. Bile duct cysts in adults. *Br J Surg.* 2004; 91:1538-48.

(16) Murphy AJ, Axt JR, Crapp SJ, Martin CA, Crane GL. Concordance of imaging modalities and cost minimization in the diagnosis of pediatric choledochal cysts. *Pediatr Surg Int* 2012; 28: 615-621.

(17) Rattan KN, Khurana P, Budhiraja S, Malik V, Pandit SK. Choledochal cyst: a 10 year experience. *Indian J pediatr.* 2000; 67:657-9.

(18) Ando K, Miyano T, Kohno S, Takamizawa S, Lane G. Spontaneous perforation of choledochal cyst: a study of 13 cases. *Eur J Pediatr Surg.* 1998; 8:23-35.

(19) Spinneti D, Ramírez N, Briceño Y. Quistes del Colédoco en Adultos: estudio de dos casos y revisión de la literatura. *Rev Med Vozandes.* 2006; 2:1-15.

(20) Chaurand M, Canto A. Quistes de colédoco. *Evid Med Invest Salud.* 2015; 8:37-40.

(21) Wang B FQ, Mao JX, Liu L, Wong KK. Early experience with laparoscopic excision of choledochal cyst in 41 children. *J Pediatr Surg* 2012; 47:2175-8.

(22) Domínguez E. Dilataciones congénitas de la vía biliar. *Cir Esp.* 2010; 88:285-91.

- (23) **Ohashi T, Wakai T, Kubota M, Matsuda Y, Arai Y, Ohyama T, et al.** Risk of subsequent biliary malignancy in patients undergoing cyst excision for congenital choledochal cysts. *J Gastroenterol Hepatol* 2013; 28:243-7.
- (24) **Soares K, Arnaoutakis D, Jamel I, Rastegar N, Anders R, Maithel S, et al.** Choledochal Cysts: Presentation, clinical differentiation, and management. *J Am Coll Surg.* 2014; 219:1167-1180