

Fístula colecistocutânea espontânea: uma rara complicação da doença calculosa da vesícula biliar

Spontaneous cholecystocutaneous fistula: a rare complication of gallbladder disease

Manlio Basilio Speranzini¹, Sérgio Pezzolo¹, Rodrigo Bornstein Martinelli¹, Lílíana de Souza e Silva Ducatti¹,
Marcus Paulo Lemos Lemes¹, Marita Von Rautenfeld¹, Gilvane S. Honório¹, Rodrigo Castro¹

Resumo

Introdução: As fístulas colecistocutâneas são complicações infrequentes decorrentes de processos inflamatórios ou infecciosos que ocorrem envolvendo a vesícula biliar ou vias biliares incluindo colédoco e ducto cístico. O primeiro relato data de 1640 por Thilesus, e sua incidência vem diminuindo provavelmente devido à melhora dos métodos diagnósticos de imagem e tratamentos medicamentosos. **Relato de caso:** Relatamos aqui um caso de um paciente do sexo masculino, de 63 anos de idade, que apresentou como queixa inicial uma dor em hipocôndrio direito do tipo cólica, há cerca de quatro meses, que evoluiu com abscesso local, drenado em outro serviço. Seguiu-se à drenagem débito bilioso persistente. O paciente foi submetido à colangiopancreatografia retrógrada endoscópica com retirada de múltiplos cálculos do colédoco. Após 30 dias o paciente foi operado, sendo realizada colecistectomia com exploração radiológica das vias biliares que evidenciou normalidade das vias biliares intra e extra-hepáticas, obstrução do ducto cístico, estenose de colédoco proximal de cerca de dois centímetros e ausência de cálculos biliares. Realizou-se ainda a ressecção da porção estenosada do colédoco com anastomose primária término-terminal e drenagem a Kher. O paciente evoluiu com fístula biliar pós-operatória orientada por dreno cavitário, evoluindo com baixo débito de cerca de 150 mililitros até o 15º pós-operatório. **Discussão:** As fístulas colecistocutâneas são uma complicação cada vez mais rara de processos inflamatórios ou infecciosos do trato colecistobiliar, os quais exigem tratamento cirúrgico efetivo envolvendo a colecistectomia com reestabelecimento do trajeto fisiológico de drenagem biliar.

Palavras-chave: Fístula cutânea; coledocolitíase; fístula biliar; colecistectomia.

Abstract

Introduction: The cholecystocutaneous fistulae are unusual complications resulting from infectious or inflammatory processes that occur involving the gallbladder or biliary tract, including choledochal and cystic duct. The first report dates from 1640 by Thilesus, and its incidence has decreased due to improved diagnostic methods for image and drug treatments. **Case report:** We report a case of a 63 years old male patient who presented an initial complaint of pain in the right hypochondrium, type colic, for about four months, who developed local abscess, drained in another service. Following, there was persistent bilious drainage flow. The patient underwent endoscopic retrograde cholangiopancreatography with the withdrawal of multiple choledochal gallbladder. After 30 days the patient was operated with cholecystectomy performed, with the usage of radiological exploration of the biliary tract, which showed normal intra and extra-hepatic bile ducts, obstruction of the cystic duct, stenosis of proximal choledochal of about two centimeters and absence of gallstones. There was also the resection of the portion of choledochal stenosis with primary end-to-end anastomosis and drainage to Khera. The patient evolved with postoperative biliary fistula guided by drain cavity, evolving with low debt of about 150 milliliters to 15 postoperatively. **Discussion:** The cholecystocutaneous fistula is an increasingly rare complication of infectious or inflammatory processes of biliary tract, which require surgical treatment with cholecystectomy involving the effective re-establishment of the physiological pathway of bile drainage.

Keywords: Cutaneous fistula; choledocholithiasis; biliary fistula; cholecystectomy.

Recebido: 4/3/2009

Revisado: 5/8/2009

Aprovado: 13/8/2009

¹ Serviço de Cirurgia do Aparelho Digestivo da Faculdade de Medicina do ABC (FMABC) – Hospital Estadual Mario Covas, Santo André (SP), Brasil
Endereço para correspondência: Manlio Basilio Speranzini – Faculdade de Medicina do ABC – Avenida Lauro Gomes, 2000 – CEP 09060-870 – Santo André (SP)

Introdução

A fístula colecistocutânea (FCC) espontânea era a complicação mais comum da colecistite crônica calculosa até o início do século 20. Thilesus, em 1640, descreveu o primeiro caso de fistula biliar externa¹. Courvoisier descreveu 169 casos em 1890. Em 1949, Henry e Orr coletaram um total de 205 pacientes com fistula biliar externa, adicionando 36 novos casos aos do Courvoisier². Porém, nos últimos 54 anos, apenas 21 novos casos foram adicionados à literatura mundial.

A redução da incidência dessa complicação pode estar associada com os métodos modernos de diagnóstico dessa patologia, com o aumento do espectro da antibioticoterapia e cirurgias eletivas terapêuticas de doenças do trato biliar³. O estabelecimento do diagnóstico pode ser difícil pela falta de uma característica clínica específica e uma evolução insidiosa dos sinais e dos sintomas dessa rara patologia⁴.

A patofisiologia dessa condição tem sido associada com o aumento pressórico na vesícula biliar, secundário a uma obstrução do ducto cístico ou a um tumor. O aumento da pressão intraluminal conduz para um enfraquecimento do fluxo sanguíneo e do suplemento linfático da vesícula biliar, causando a necrose da parede e a perfuração. A perfuração pode ocorrer das seguintes maneiras: 1) perfuração aguda causando peritonite, 2) perfuração subaguda gerando um abscesso ao redor da vesícula ou 3) perfuração crônica com a formação de uma fístula biliar interna ou externa. Essas fístulas frequentemente são geradas no fundo da vesícula biliar^{5,6}.

O objetivo deste relato é apresentar o caso de um paciente portador de colecistite crônica calculosa, que, após drenagem de um abscesso, evoluiu com uma fístula colecistocutânea espontânea.

Relato de caso

Paciente do sexo masculino, de 63 anos, veio encaminhado ao nosso serviço em junho de 2008, referindo saída de secreção biliosa em



Figura 1 – Óstio cutâneo da fístula

quadrante superior direito do abdômen há três meses. Refere que há nove meses foi submetido a uma drenagem de abscesso em região de hipocôndrio direito, realizado em outro serviço, sendo drenada uma grande quantidade de secreção hemático-purulenta. Refere que, desde então, não parou mais de drenar, sendo que a coloração nos últimos três meses mudou para essa hoje referida (Figura 1). Concomitantemente à saída de secreção biliosa, iniciou-se uma dor, tipo cólica, de moderada intensidade, sem irradiação, melhorando com dipirona sódica e piorando com atividade física.

O paciente negava quaisquer outras doenças associadas e, ao exame físico, apresentava somente dor à palpação superficial e profunda em quadrante superior direito do abdômen.

Paciente foi submetido à colangiopancreatografia retrógrada endoscópica (CPRE) com retirada de múltiplos cálculos do ducto colédoco, e se evidenciou dilatação moderada de vias biliares e estreitamento e discreta torção do ducto hepático comum (Figura 2). A tomografia computadorizada de abdômen evidenciou massa com componente necrótico e gás em musculatura abdominal à direita estendendo-se ao fígado (Figura 3). O diagnóstico de uma fístula colecistocutânea foi confirmado com a fistulografia (Figura 4).

Devido ao quadro clínico e aos exames, em julho de 2008, o paciente foi operado, sendo realizada colecistectomia com exploração radiológica das vias biliares, que evidenciou normalidade da via biliar intra-hepática, obstrução do ducto cístico, estenose de colédoco proximal de cerca de dois centímetros e ausência de cálculos biliares. Realizou-se ainda a ressecção da porção estenosada do colédoco com anastomose primária término-terminal e drenagem a Kher.

O paciente evoluiu com fístula biliar pós-operatória orientada por dreno cavitário, evoluindo com baixo débito de cerca de 150 mililitros até o 15º pós-operatório. Paciente evoluiu bem, com o fechamento da fístula biliar, não apresentando nenhuma queixa no retorno ambulatorial.

Discussão

As fístulas colecistocutâneas são frequentemente resultados de negligência de doenças do trato biliar. A evolução muitas vezes é assintomática, sem que o paciente não apresente nenhum episódio de colecistite aguda⁷.

Fístulas externas cutâneas são uma rara apresentação de pacientes com colelitíase. Porém, Chang *et al.*, em 2002, reportou um caso de uma fístula colecistocutânea, devido a uma colecistite sem cálculos⁸. Outro caso, no qual não havia complicações por litíase biliar, foi reportada por Birch. Este sugeriu que condições ou circunstâncias, como esteroides, poliartrite nodosa, febre tifoide, sepsis bacteriana e trauma, juntamente com a inflamação da vesícula biliar, podem levar a uma fistulização, sem haver colelitíase⁹.

Perfurações espontâneas de colecistites crônicas calculosas para um órgão abdominal não são uma complicação incomum. A maior fre-

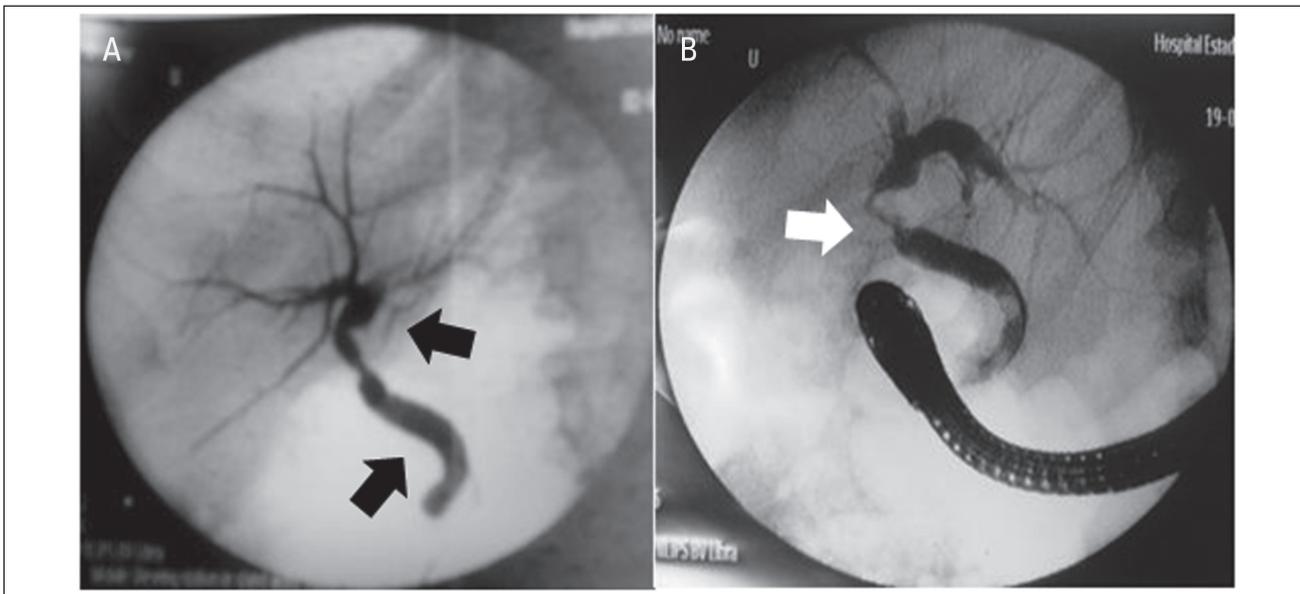


Figura 2 - Colangiopancreatografia retrógrada endoscópica. (A) Dilatação moderada de vias biliares (setas pretas). (B) Estreitamento e discreta torção do ducto hepático comum (seta branca)

quência incide no duodeno (77%) e intestino grosso (15%), sendo muito raras perfurações com o sistema respiratório, o estômago e o trato urinário⁵.

A apresentação clínica das fístulas cutâneas biliares é variável e dependem do curso anatômico das mesmas¹⁰. As fístulas externas frequentemente drenam para o quadrante superior e o flanco direito. O óstio fistular já foi descrito em fossa ilíaca, na virilha e na região glútea do lado direito; porém, houve descrito do aparecimento do óstio no limite costal do lado esquerdo⁵.

A maioria dos pacientes tem mais de 50 anos, são mulheres e apresentam histórico sintomático de doença crônica do trato biliar. Uma lesão eritematosa na pele no quadrante superior direito pode ser a única apresentação do paciente. Contudo, lesões de pele podem conduzir para um erro de diagnóstico (por exemplo, como uma simples celulite) ou atrasar o diagnóstico da patologia⁸.

A ultrassonografia e a tomografia computadorizada podem ser utilizadas para o diagnóstico de patologias do trato biliar e com associações de lesões na pele. Na presença do óstio fistular, a fistulografia se torna necessária para a confirmação da comunicação com a vesícula biliar ou o trato biliar. Contudo, no nosso caso, não houve necessidade, porque a CPRE já havia apresentado o diagnóstico.

O tratamento das fístulas colecistocutâneas envolve a utilização de antibioticoterapia de grande espectro¹⁰. Depois do controle da inflamação aguda da parede abdominal, a colecistectomia convencional eletiva com a extração do trato fistuloso e reestabelecimento do trajeto fisiológico de drenagem biliar é o tratamento definitivo e efetivo para esta doença⁴.

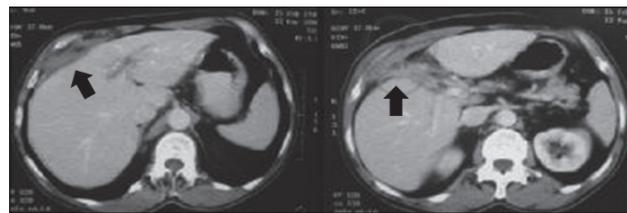


Figura 3 – Tomografia Computadorizada de Abdômen – evidenciando massa com componente necrótico e gás em musculatura abdominal à direita (setas)

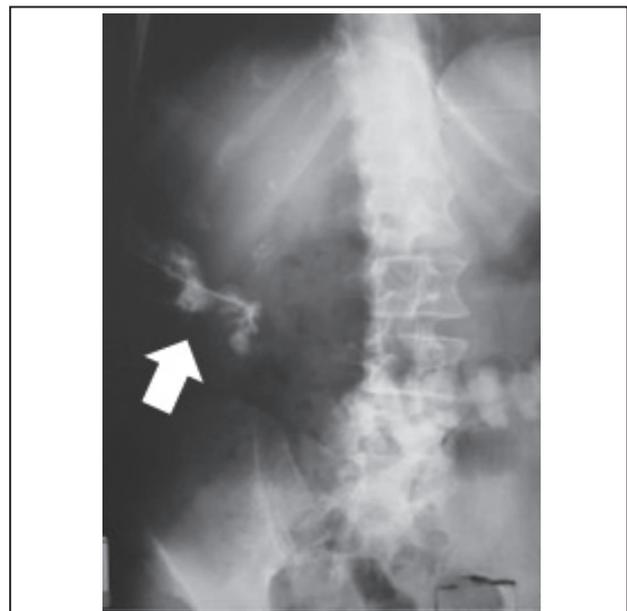


Figura 4 – Fistulografia – confirmando o diagnóstico e o trajeto fistuloso (seta)

Referências

1. Henry CI, Orr TG. Spontaneous external biliary fistulae. *Surgery* 1949;26:641-6.
2. Ramos Rincón JM, Fernández Frías A, Costa Navarro D, Agulló Royo MJ, Arroyo Sebastián A, Martín Hidalgo A et al. Spontaneous bilio-cutaneous fistula. A rare clinical entity. *Gastroenterol Hepatol* 2001;24(8):411-2.
3. Vasanth A, Siddiqui A, O'Donnell K. Spontaneous cholecystocutaneous fistula. *South Med J* 2004;97(2):183-5.
4. Yuceryar S, Erturk S, Karabicak I, Onur E, Aydogan F. Spontaneous cholecystocutaneous fistula presenting with an abscess containing multiple gallstones: a case report. *Mt Sinai J Med* 2005;72(6):402-4.
5. Urban CA, Urban LABD, Lima RS, Bleggi-Torres LF. Spontaneous combined internal and external biliary fistulae in association with gallstones and gliomatosis of the gallbladder. *Rev Bras Cancerol* 2000;47(3):273-6.
6. Nicholson T, Born MW, Garber E. Spontaneous cholecystocutaneous fistula presenting in the gluteal region. *J Clin Gastroenterol* 1999;28(3):276-7.
7. Cruz RJ Jr, Nahas J, de Figueiredo LF. Spontaneous cholecystocutaneous fistula: a rare complication of gallbladder disease. *Sao Paulo Med J* 2006;124(4):234-6.
8. Chang SS, Lu CL, Pan CC, Chiou YY, Wang SS, Chang FY et al. Spontaneous cholecystocutaneous fistula presenting with a cellulitis and portal vein thrombosis. *J Clin Gastroenterol* 2002;34(1):99-100.
9. Birch BR, Cox SJ. Spontaneous external biliary fistula uncomplicated by gallstones. *Postgrad Med J* 1991;67(786):391-2.
10. Nutels DBA, Andrade ACG, Gomes AMBA, Rocha AC. Fístula colecistocutânea espontânea. *ABCD Arq Bras Cir Dig* 2006;19(3):117-9.