

**CASO CLÍNICO**

# Un caso raro de fístula biliobronquial. Revisión bibliográfica

*Biliobronchial fistula. Case report of a rare complication*

Araceli Carrillo-Muñoz,<sup>1</sup> Tania Sánchez-Valadez,<sup>1</sup> Nashiely Gil-Rojas,<sup>1</sup> Francisco Navarro-Reynoso,<sup>1</sup> Carlos Núñez Pérez-Redondo,<sup>1</sup> Raúl Cícero-Sabido.<sup>2</sup>

## Resumen

La fístula biliobronquial (FBB) es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial, puede ser congénita o adquirida. La presencia de bilis en el pulmón ocasiona neumonitis química. Se presenta el caso de una (FBB) que ocurrió después de diferentes procedimientos quirúrgicos sobre la vía biliar, que coincidieron con derrame pleural. El paciente presentó bilioptisis característica de las (FBB); el diagnóstico se confirmó por fibrobroncoscopia (FBC) y tomografía computada (TC). Otros estudios útiles para el diagnóstico son la colangiografía percutánea, la colangiopancreatografía retrógrada endoscópica (CPRE), el ultrasonido (US) y la colangiografía por resonancia magnética nuclear. El tratamiento para disminuir la presión en el sistema biliar es interdisciplinario. La FBC es útil para el diagnóstico y el tratamiento a través de la aplicación de algún tipo de sellador en la fístula. Si el tratamiento no invasivo no logra el cierre efectivo de la (FBB), el tratamiento definitivo es quirúrgico con fistulectomía y remodelación. Este caso se resolvió con derivación percutánea de la vía biliar y drenaje del derrame pleural.

**Palabras clave:** Fístula biliobronquial, bilioptisis, fibrobroncoscopia, derivación biliar, México.

## Abstract

*Bronchobiliary fistula (BBF) is an abnormal communication between the biliary tract and the bronchial tree may be congenital or acquired. An important chemical pneumonitis caused by the bile is characteristic. A case of a (BBF) with biliptisis occurred after different surgical procedures on the biliary tract coincident with pleural effusion is presented. Diagnosis was confirmed by bronchoscopy, although other procedures may be useful such as percutaneous cholangiography, endoscopic retrograde cholangiopancreatography (CPRE),*

1 Departamento de Endoscopia Torácica, Servicio de Neumología y Cirugía de Tórax "Alejandro Celis", Hospital General de México "Dr. Eduardo Liceaga". México D.F., México.

2 Facultad de Medicina, Universidad Nacional Autónoma de México. México D.F., México.

Correspondencia: Dra. Araceli Carrillo Muñoz. Unidad 406. Dr. Balmis N° 148, Colonia Doctores, Delegación Cuauhtémoc, C.P. 06726, México D.F., México. Teléfono: 2789 2000, ext. 1381. Correo electrónico: araceli.integra@hotmail.com

*ultrasound, computed tomography (CT) and nuclear magnetic resonance cholangiography. The treatment is interdisciplinary. Once the fistula is discovered, the possibility of employ some type of sealant into the fistula may be considered, if non invasive management fails, the definitive treatment is surgical. This case was resolved with percutaneous derivation of the biliary tract and drainage of the pleural effusion.*

**Keywords:** Bronchobiliary fistula, bilioptisis, bronchoscopy, biliary derivation, Mexico.

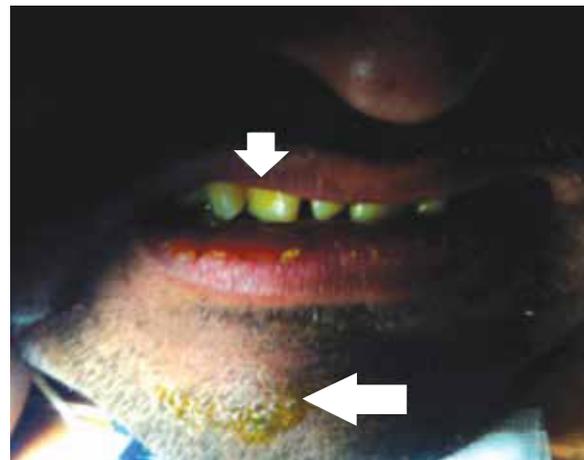
## Introducción

La fistula biliobronquial (FBB) es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial.<sup>1,2</sup> En 1850, Peacock's describió el primer caso en una mujer de 20 años de edad con equinococosis hepática.<sup>3,4</sup> La bilioptisis es característica de la FBB, en el estadio crónico pueden desarrollarse bronquiectasias en el segmento pulmonar involucrado.<sup>5</sup> Se le llama también fístula broncobiliar, hepatobronquial, pleurobiliar y colecistobronquial. Puede ser congénita o adquirida por trauma, enfermedad hepática o por obstrucción biliar.<sup>6-10</sup> El tratamiento es interdisciplinario, el objetivo es disminuir la presión en el sistema biliar. La fibrobroncoscopia (FBC) también tiene utilidad.<sup>11-14</sup> Cuando no se resuelve con medidas conservadoras, el tratamiento definitivo es quirúrgico.<sup>15-17</sup>

## Presentación del caso

Paciente masculino de 42 años de edad, con antecedentes de colecistectomía dos años previos a este ingreso hospitalario, presentó estenosis posquirúrgica de colédoco tipo Bismuth III y "C" de Amsterdam con colangitis secundaria, motivo por el cual ingresó en esta ocasión, se realizó colangiopancreatografía retrógrada (CPRE) con esfinterotomía y colocación de tres prótesis biliares. Dos semanas después presentó disnea grado 3 del *Medical Research Council* (MRC) y bilioptisis más de 500 mL en 24 horas (**Figura 1**), dolor pleurítico en hemitórax derecho y fiebre de 38.7°C. Por exploración física y radiografía de tórax, se diagnosticó derrame pleural derecho (**Figura 2**). Se colocó sonda de toracostomía obteniendo 2 450 mL de exudado líquido amarillo, con 1.5 mg/dL de bilirrubinas. En los exámenes de laboratorio se encontraron bilirrubinas totales 2.5 mg/dL, fosfatasa alcalina 1 374 U/L, gamma glutamil transpeptidasa

**Figura 1.** Paciente expectorando bilis (bilioptisis), se aprecian restos en dientes y barbilla (flechas)



981 U/L. La tomografía computada de tórax (TC) mostró consolidación de lóbulo medio y segmentos basales, derrame pleural, elevación del hemidiafragma derecho, dilatación de la vía biliar, hepatomegalia, múltiples imágenes de baja atenuación con predominio en lóbulo hepático derecho (segmento VII) con septos en su interior (**Figura 3**). Los hallazgos del ultrasonido (US) coincidieron con la TC encontrando dilatada la vía biliar, y en el parénquima hepático múltiples cavidades irregulares con presencia de gas, la mayor de 12 x 12 cm. En la FBC se observó laringe eritematosa edematizada, restos de material biliar desde la carina y en mayor cantidad en tronco de basales derecho (**Figura 4A**), donde se encontró un orificio de aproximadamente 2 mm de diámetro, a través del cual fluía material amarillento de tipo biliar (**Figura 4B**). Se confirma la presencia de fístula biliobronquial. Posteriormente, se practicó derivación de la vía biliar por vía percutánea, con lo que

» **Figura 2.** Radiografía simple de tórax, muestra derrame pleural derecho.



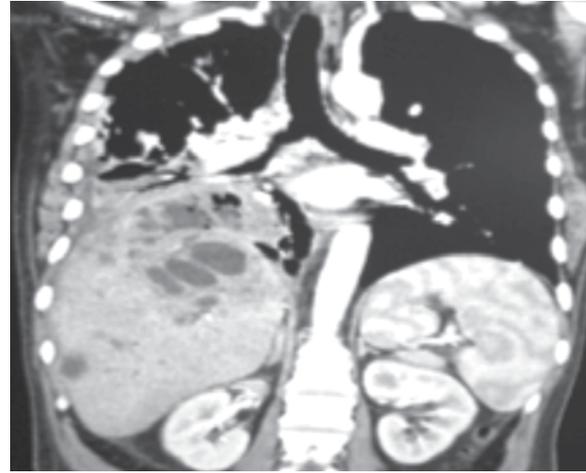
disminuyó en forma importante la biliptisis en las siguientes 24 horas, cediendo posteriormente. Cinco días después se realizó una segunda FBC, en la cual se encontró que el orificio de la fístula había cerrado. En un seguimiento de seis meses, el paciente se encuentra recuperado y sin recidiva de la fístula.

## » **Discusión**

La FBB es una comunicación anormal entre la vía biliar y el árbol bronquial, descrita por primera vez en 1850 por Peacock's.<sup>1-4</sup> Es característica la presencia de biliptisis que puede confundirse con expectoración purulenta, puede presentarse tos y fiebre. El desarrollo de bronquiectasias en el segmento pulmonar involucrado es una complicación frecuente en el estadio crónico.<sup>5</sup> En algunos pacientes pueden ocurrir episodios de neumonía recurrente, acompañadas de derrame pleural, sobre todo en el lado derecho. Debido a la neumonitis química producida por la bilis, puede desarrollarse infección bacteriana y secundariamente sepsis. La FBB puede ser resultado de diversas condiciones clínicas, se reconocen principalmente las formas congénita y adquirida, esta última tiene tres categorías causales.<sup>6-7</sup>

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 biliptisis. La cirugía de

» **Figura 3.** TC corte coronal. En hígado se aprecian varias zonas con disminución de la atenuación que sugieren abscesos, hay comunicación con las colecciones de parénquima pulmonar.



la vía biliar también es otra causa frecuente de FBB, sobre todo en intervenciones de cirugía laparoscópica.<sup>8-9</sup>

2. Fístula por patología hepática: las causas más comunes son el absceso hepático amebiano y el quiste hidatídico.<sup>10</sup> Este último causa hasta 14.3% de las fístulas biliobronquiales.<sup>11</sup> 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 hepática.<sup>5</sup>
3. Fístula debida a obstrucción de la vía biliar: las fístulas biliopleurales y FBB son complicaciones comunes de la enfermedad de la vía biliar, por litos,<sup>10</sup> estenosis, pancreatitis crónica, neoplasias, tuberculosis y *Ascaris lumbricoides*.<sup>6,8</sup>

El diagnóstico es clínico por la presencia de biliptisis y se confirma por estudios de imagen como colangiografía percutánea, US, TC, colangiorresonancia magnética nuclear, CPRE y FBC. En cuanto al tratamiento, a nivel del árbol bronquial hay reportes de casos con resolución vía endoscópica o por FBC.<sup>7,8</sup> La técnica comprende una evaluación inicial con visualización directa para determinar si la FBB es susceptible de tratarse por esta vía, el éxito potencial de este método depende del tamaño y localización de la FBB y del tipo de sellador utilizado.<sup>12</sup> Existe una

» **Figura 4.** Imágenes broncoscópicas de tronco de basales derecho que muestran: **A)** restos de secreción biliar. **B)** La flecha muestra la zona donde se apreció el orificio fistuloso con salida de secreción biliar.



amplia gama de sustancias sintéticas y derivados biológicos que se pueden aplicar en las fistulas bronquiales como tetraciclina y gelfoam a través de broncoscopio flexible,<sup>13</sup> nitrato de plata por broncoscopia rígida,<sup>14</sup> o n-butil cianocrilato, aunque este último ha sido objetado por la posible reacción adversa del tejido bronquial y formación de granulomas a cuerpo extraño con la posibilidad de bronquiectasias.<sup>5,7</sup> También se ha descrito la aplicación en la submucosa con alcohol absoluto, éste se inyecta en varios puntos alrededor de la fistula, lo que ocasiona cierre de la mucosa circundante, este procedimiento es de bajo costo, fácil aplicación y seguridad, no se han encontrado efectos sistémicos del etanol como intoxicación aguda o infección, algunos autores<sup>15</sup> la utilizan en fistulas bronquiales < 3 mm diámetro. La finalidad es conseguir reacción inflamatoria y proliferación de la mucosa, lo que conduce al cierre permanente del defecto. En cuanto a los derivados biológicos, los principales son la fibrina o parches de sangre autóloga, estos tienen la ventaja de no inducir gran reacción inflamatoria, lo que a largo plazo logra preservar el máximo de parénquima pulmonar funcional. A nivel de la vía biliar, lo primordial es disminuir la presión en el sistema biliar, con colocación de prótesis o drenaje por vía percutánea, los cuales son una alternativa a una intervención

quirúrgica mayor, particularmente en fistulas adquiridas,<sup>16-18</sup> permitiendo el libre drenaje de la bilis hacia el duodeno, lo que puede resolver la fistula la mayoría de las veces, como ocurrió en el caso que se presenta. Si el manejo mínimamente invasivo no logra el cierre efectivo de la FBB, el tratamiento es la cirugía, sin embargo, implica alta morbimortalidad,<sup>7,8</sup> sobre todo en FBB congénitas, por la posibilidad de otro tipo de malformaciones asociadas que requieren cirugía mucho más compleja.<sup>8</sup> El resultado depende fundamentalmente de las comorbilidades, edad del paciente y tipo de fistula.<sup>13</sup> El pronóstico de los pacientes con FBB es favorable cuando la etiología es infecciosa, y pobre en pacientes con patología neoplásica.

## » Conclusiones

Las FBB son una complicación con alta morbimortalidad, el presente caso se resolvió con drenaje percutáneo del sistema biliar restableciendo el flujo normal de la vía biliar, lo que condicionó el cierre espontáneo de la fistula evitando un tratamiento quirúrgico mayor. La evolución fue buena y el paciente fue dado de alta por mejoría. A seis meses de su egreso el paciente se encuentra en buenas condiciones, sin datos de recidiva de la fistula.

## » Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

## » Financiamiento

Los autores no recibieron patrocinio para llevar a cabo este estudio.

## Referencias

- Hatice E, Selahattin O, Senol U, et al. Management of acquired bronchobiliary fistula: 3 case reports and a literature review. *J Cardiothoracic Surg* 2007;2:52.
- Losada MH, Vial GM, Manterola DC, et al. Fístula biliobronquial secundaria a quiste hepático hidatídico en tránsito al tórax. Reporte de caso. *Rev. Chilena de Cirugía* 2006;58: 224-227.
- Dasmahapatra HK, Pepper JR. Bronchopleurobiliary fistula. A complication of intrahepatic biliary stent migration. *Chest* 1988;94:874-875.
- Guan-Qun L, Hao W, Guang-Yong Z, et al. Management of acquired bronchobiliary fistula: A systematic literature review of 68 cases published in 30 years. *World J Gastroenterol* 2011;17(33):3842-3849.
- Chong CF, Chong VH, Jalihal A, et al. Bronchobiliary fistula successfully treated surgically. *Singapore Med J* 2008;49(8): e208-e211.
- Kamal AM, Wiley SB, Dale ED, et al. A New Cause For Biliobronchial Fistula. *Dis Chest* 1969;56:539-542.
- Jung HK, Man DK, Young KL, et al. Bronchobiliary fistula treated with histoacryl embolization under bronchoscopic guidance: A case report. *Respir Med CME* 2008;1:164-168.
- Vega-Chavaje GR, Carbajal-Ramos A, López-Arregui JG, et al. Fístula biliobronquial manejada mediante cirugía laparoscópica. Informe de un caso. *Asoc Mex Cir Endoscópica A.C* 2000;2:103-108.
- Ghaham JE. Observations on bronchobiliary fistula with the reports of two cases. *Brit Med* 1897;1(1):1397.
- Corral-Sánchez MA, Gómez-Sanz R, Alvarado-Astudillo A, et al. Cholecyst-Thoracic Fistula a rare complication of lithiasic cholecystitis. *Chest* 1994;106:1303-1304.
- Muñoz CC, Burgos SJL, Fonseca SV. Fístula biliobronquial de origen hidatídico. *Rev Chil de Cir* 2009;61:504-506.
- Shekar K, Foot C, Fraser J, et al. Bronchopleural fistula: an update for intensivists. *J Crit Care* 2010;25:47-55.
- Prado AF, Linares PM, Donoso FA, et al. Cierre efectivo por vía broncoscópica de fístula broncopleuraleal de alto flujo en paciente con síndrome de distress respiratorio agudo grave. *Rev Chil Pediatr* 2006;77:501-505.
- Lugo-Álvarez FG, Céspedes-Meneses EE, Ruiz-Flores J, et al. Fístula broncopleuraleal: tratamiento endoscópico con nitrato de plata. Experiencia de 5 años en el Instituto Nacional de Enfermedades Respiratorias. *Rev Sanid Milit Mex* 2009;63(4):178-181.
- Takaoka K, Inoue S, Ohira S. Central bronchopleural fistulas closed by bronchoscopic injection of absolute ethanol. *Chest* 2002;122:374-378.
- Poullis M, Poullis A. Biliptysis Caused by a bronchobiliary fistula. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1999;118:971-972.
- Andalkar L, Trow TK, Motroni B, et al. Bronchobiliary fistula as a complication of liver metastases: Diagnosis by HIDA Scan. *Clin Nucl Med* 2004;29: 289-291.
- Chua HK, Allen MS, Deschamps C, et al. Bronchobiliary fistula: principles of management. *Ann Thorac Surg* 2000;70:1392-1394.