

Diagnóstico e tratamento da fístula bronquiobiliar

Review article management of bronchobiliary fistula

MARCOS LYRA KADDOUM¹, GUSTAVO PEIXOTO SOARES MIGUEL², LORAINÉ ENTRINGER FAIQUETO³, TIAGO NEVES FERREIRA⁴, DOGLAS GOBBI MARCHESI⁵

RESUMO

Fístula bronquiobiliar (FBB) é uma afecção rara, de alta morbidade e mortalidade, decorrente da comunicação anormal entre a árvore brônquica e a via biliar, sendo a bilioptise um sinal clínico patognomônico. Normalmente está associada a doenças hepatobiliares, mas principalmente ao trauma e complicações de cirurgias hepatobiliares. Devido à gravidade e à complexidade, associadas à baixa incidência, seu manejo é desafiador, não havendo um consenso na literatura. Este trabalho identifica os métodos diagnósticos e terapêuticos mais utilizados, e propõe um fluxograma do manejo da FBB com intuito de auxiliar a conduta de novos casos.

Unitermos: Bilioptise, Fístula Biliar, Fístula Brônquica, Abscesso Abdominal, Abscesso Pulmonar, Abscesso Hepático, Lesões Abdominais, Lesões Torácicas, Cisto Hidático.

SUMMARY

Bronchobiliary fistula is a rare clinical finding, with a high morbidity and mortality rate, characterized by abnormal communication between the biliary tract and the bronchial tree, having bilioptysis as a pathognomonic sign. It is usually associated to hepatobiliary diseases, but mostly related to trauma and as a complication of hepatobiliary surgery. Due to the low incidence, complexity and gravity, it's management is a challenge, and little consensus on

its diagnosis and treatment exists. We identified the most used diagnostic and therapeutic procedures, and propose a flowchart that could assist in the management of new cases.

Keywords: Bilioptysis, Biliary Fistula, Bronchial Fistula, Abdominal Abscess, Lung Abscess, Liver Abscess, Abdominal Injuries, Thoracic Injuries, Hydatid Cyst.

INTRODUÇÃO

A fístula bronquiobiliar (FBB) é uma afecção rara, decorrente da comunicação anormal entre a árvore brônquica e a via biliar. No passado, era frequentemente associada à ruptura de cisto hidático,^{1,2} porém, atualmente, está mais relacionada a doenças obstrutivas da via biliar (neoplasia³ e coledocolitíase⁴), às complicações de cirurgias hepato-biliares,⁵ à má formação congênita,⁶ à endometriose hepática,⁷ à doença policística hepática e renal,⁸ à pancreatite crônica⁹ e, principalmente, ao trauma hepatobiliar.^{10,11,12,13,14,15}

Foi descrita originalmente por Peacock em 1850 a partir de dois casos de ruptura de cisto hidático, nos quais a bilioptise estava presente. Nestes casos, o diagnóstico foi confirmado através da necropsia com identificação do trajeto fistuloso em um deles. Também citou casos de expectoração de cisto hidático de outros autores, porém, sem menção à bilioptise.¹

1. Cirurgião Geral pela Universidade Federal do Espírito Santo (UFES). **2.** Professor Adjunto – Unidade de Cirurgia Geral do Hospital Universitário Cassiano Antônio de Moraes (HUCAM)/EBSERH/UFES. **3.** Acadêmica da Faculdade de Medicina da UFES. **4.** Cirurgião Geral pela Universidade Federal do Espírito Santo (UFES). **5.** Médico Residente em Transplante Hepático pela UFES/Hospital Meridional. **Endereço para correspondência:** Marcos Kaddoum - Rua Mário Augusto de Moraes, 1 Cacheiro do Itapemirim - ES -CEP: 29303-287/**e-mail:** kaddoumm@gmail.com. **Recebido em:** 08/06/2014. **Aprovado em:** 12/08/2014.

Sugere-se que o aumento da incidência de fístula bronquio-biliar está diretamente relacionada ao aumento da incidência de trauma hepático e das cirurgias e procedimentos invasivos para tratamento de doenças hepáticas. Esta complicação apresenta alta taxa de morbidade e mortalidade (12,2%).¹⁶ Estima-se que 2 a 4% dos casos de trauma hepático evoluem para fístula biliar^{8,11}; destes apenas um pequeno percentual evolui para comunicação entre a via biliar e a árvore brônquica. A incidência de FBB variou entre 4% e 10,5% em 453 pacientes com abscesso hepático piogênico e 3.608 pacientes com abscesso subfrênico, respectivamente.¹⁷⁻¹⁹

Considerando a gravidade e a baixa frequência de FBB observa-se que sua abordagem é complexa. Não existem estudos com elevado nível de evidência que norteiem seu diagnóstico e conduta terapêutica. Este é o objetivo do presente estudo.

APRESENTAÇÃO CLÍNICA

A FBB pode manifestar-se inicialmente com sintomas respiratórios como tosse e dispneia. A expectoração de bile (biliopitise) é patognomônica, manifestação frequente da FBB. Já a icterícia obstrutiva é menos comum.¹⁴ Dor em abdome superior e no tórax podem estar presentes. A presença de sinais clínicos e laboratoriais de infecção sistêmica, pneumonia, derrame pleural, empiema pleural, abscesso pulmonar, abscesso hepático e colangite também devem ser considerados como indicativos de FBB quando associados.^{5,10,11,17,18,19}

DIAGNÓSTICO

Mesmo quando firmado o diagnóstico clínico, a investigação radiológica da FBB é fundamental para determinar não somente a etiologia da doença, mas também a extensão da lesão, os órgãos afetados e o trajeto fistuloso, permitindo o planejamento terapêutico adequado.¹⁶ Diversos métodos radiológicos auxiliam no diagnóstico da FBB, devendo sua indicação ser avaliada com base em sua sensibilidade, disponibilidade, custo e morbidade (Tabela 1).

Tomografia Computadorizada

A tomografia computadorizada (TC) de abdome e tórax com contraste endovenoso é o exame de escolha na avaliação inicial. Infelizmente, na grande maioria dos casos não é capaz de definir o diagnóstico da FBB e de fornecer informações suficientes para o planejamento terapêutico.^{11,19} Por outro lado, ela pode revelar sinais indiretos dessa doença, como lesões hepáticas, coleções subfrênicas, lesões diafragmáticas, derrame pleural, atelectasias, bronquiectasias e abscesso pulmonar (Figuras 1 e 2).^{11,18-20}

Tabela 1. Recursos diagnósticos por imagem na fístula bronquio-biliar.^{11,20,22-29}

Exames	Vantagens	Desvantagens
Tomografia computadorizada	Maior disponibilidade e agilidade	Raramente demonstra trajeto fistuloso e não permite o estudo das vias biliares.
Colangiressonância contrastada	Exame não invasivo e de baixa morbidade. Estuda a via biliar e permite o diagnóstico de FBB*.	Contraindicações ao método. Maior custo e tempo necessário para execução.
CPRE**	É diagnóstica e potencialmente terapêutica (descompressão da via biliar)	Exame invasivo, com maior morbidade que os demais. Curva de aprendizado do endoscopista.
Colangiografia percutânea	É diagnóstica e potencialmente terapêutica (descompressão da via biliar)	Exame invasivo, com maior morbidade, maior custo e pouca necessidade.
Cintilografia hepatobiliar	Exame diagnóstico não invasivo. Sugere-se maior sensibilidade em relação às colangiografias com contraste iodado.	Avaliação anatômica limitada. Exame pouco disponível.

*FBB: Fístula bronquio-biliar;

**CPRE: Colangiopancreatografia retrógrada endoscópica.

Figura 1. Tomografia computadorizada de tórax com abscesso pulmonar por FBB.

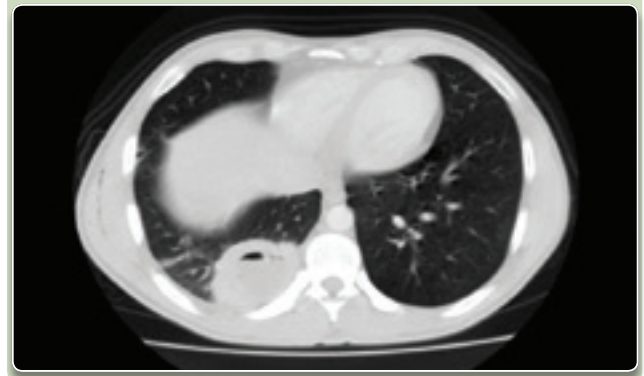
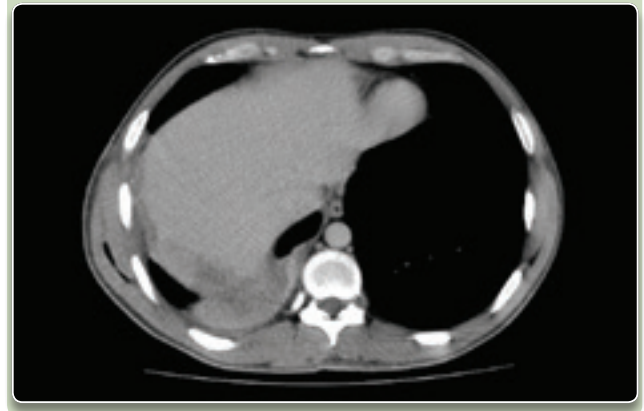
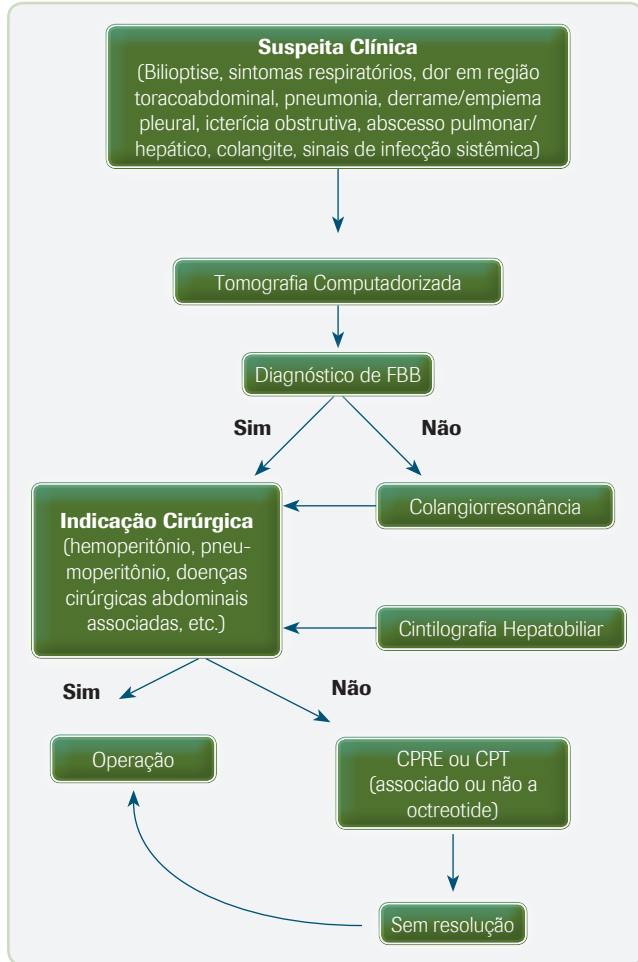


Figura 2. Tomografia computadorizada tóraco-abdominal com abscesso pulmonar contíguo à laceração hepática.



Portanto, a menos que o diagnóstico de FBB esteja claro na TC, a complementação diagnóstica com outro exame como a colangiorressonância com contraste, a CPRE, a colangiografia percutânea transhepática e, em casos selecionados, a cintilografia hepatobiliar se faz necessária (Figura 3).

Figura 3. Algoritmo diagnóstico e terapêutico na Fístula Bronquiobiliar (FBB); CPRE (Colangiopancreatografia retrógrada endoscópica); CPT (Colangiografia Percutânea Transhepática).



Colangiorressonância com contraste

O diagnóstico radiológico é possível através da colangiorressonância com contraste endovenoso. É um exame de baixa morbidade e não invasivo, que possibilita estudo detalhado do sistema biliar e permite o diagnóstico não somente da FBB, mas também de lesões primárias, tais como coledocolitíase ou neoplasia.²⁰

Colangiopancreatografia retrógrada endoscópica

A colangiopancreatografia retrógrada endoscópica (CPRE) tem sido cada vez mais indicada no estudo de fístulas pan-

creáticas e hepatobiliares. Alguns autores demonstraram que as fístulas hepatobiliopancreático-pleurais apresentaram boa resposta ao tratamento conservador.²¹ Tal como a colangiorressonância, a CPRE possibilita o estudo do sistema biliar e diagnóstico da doença primária, com a vantagem de permitir a abordagem terapêutica através da papilotomia endoscópica, com ou sem o implante de *stents* de via biliar.^{22,23} No entanto, é um procedimento invasivo com morbidade e taxa de sucesso relacionadas diretamente à experiência do endoscopista.

Cintilografia hepatobiliar

A cintilografia hepatobiliar é um exame não invasivo e de baixa morbidade, que permite o estudo do sistema biliar e o diagnóstico de extravasamento de bile para outro órgão ou cavidade.²⁴⁻²⁶ É uma opção à colangiorressonância no caso de pacientes com contraindicação à ressonância nuclear magnética ou ao uso de contraste paramagnético (pacientes renais crônicos, pacientes em uso de próteses metálicas, marcapassos). Foi descrito um caso em que a CPRE não demonstrou FBB diagnosticada posteriormente pela cintilografia hepatobiliar.²⁷

Colangiografia percutânea transhepática

Trata-se de um procedimento invasivo indicado em pacientes com suspeita ou diagnóstico de lesão de via biliar obstrutiva com dilatação da mesma. A punção pode ser guiada por radioscopia, tomografia computadorizada ou ultrassonografia.^{28,29} Além do diagnóstico, propicia a drenagem da via biliar indicada em casos associados à colangite ou à septicemia.

TRATAMENTO

A terapêutica ideal da FBB ainda é controversa.³⁰ A evolução das técnicas de endoscopia proporcionam cada vez mais o manejo conservador da doença,^{20,29} antes tratada exclusivamente por meio cirúrgico.¹² A associação entre métodos terapêuticos são também uma opção no tratamento da FBB, como, por exemplo, o uso de octreotida como tratamento medicamentoso potencializando os demais métodos.^{11,21,31,32}

Os métodos invasivos parecem ser a peça chave no sucesso terapêutico. A abordagem cirúrgica está indicada em casos com necessidade operatória por outras causas e nos refratários ao tratamento conservador.^{7,10,11-13,16,31} Quanto à antibioticoterapia, o tratamento empírico é preconizado.¹⁴

Colangiopancreatografia retrógrada endoscópica com descompressão

A CPRE é cada vez mais aplicada no manejo das FBB, principalmente devido à possibilidade de associar em um único procedimento um método diagnóstico de boa sensibilidade

e uma terapia efetiva, porém, conservadora. Em casos não complicados de FBB, diversos autores sugerem o tratamento endoscópico com papilotomia, associado ou não ao implante de *stent* para descompressão da via biliar.

A drenagem interna da via biliar tem se mostrado suficiente para a resolução e cicatrização de trajetos fistulosos entre via biliar, brônquios, espaço pleural e pele.^{11,23,24,29,33}

Drenagem percutânea transhepática

Assim como a CPRE com papilotomia, outro tratamento descompressivo é a drenagem percutânea transhepática. Na experiência de alguns autores, é uma técnica efetiva no tratamento da FBB não complicada.

Paralelamente, na presença de coleções sugestivas de bilomas ou abscessos hepáticos ou pulmonares, a drenagem também pode ser realizada na mesma abordagem.^{16,18,27,28}

Tratamento cirúrgico

Apesar das diversas opções minimamente invasivas já descritas para o tratamento da FBB, a conduta com maior resolutividade é o manejo operatório.^{7,10,11-13,32}

O primeiro relato de abordagem cirúrgica de uma FBB foi feito por Graham em 1897¹³.

O acesso cirúrgico mais utilizado é o toracofreno-laparotomia com decorticação pulmonar, abertura do diafragma e exploração do espaço subfrênico.^{12,33}

Isso viabiliza a drenagem de eventuais coleções, a identificação e a ressecção completa dos segmentos hepático e pulmonar afetados (Figura 4).

Após o domínio sob visão direta dos trajetos fistulosos, realiza-se a segmentectomia do parênquima pulmonar afetado (Figura 5 e 6).^{10,11}

Dessa forma, a programação terapêutica deve considerar o quadro clínico do paciente, a etiologia, a localização e as manifestações da fístula, os tratamentos prévios com insucesso, as doenças associadas e outros fatores intrínsecos do paciente.

Assim, a abordagem cirúrgica permanece como uma boa opção em todos os casos, mas principalmente quando há complicações orgânicas associadas (abscesso, peritonite biliar, empiema, lesões parenquimatosas complexas, etc) e nos casos refratários ao tratamento conservador, proporcionando controle direto dos trajetos fistulosos, diminuindo a possibilidade de recidiva da fístula e tratando de forma definitiva o foco infeccioso local.^{7,10-13,16,34}

Figura 4. Lesão estrelada em segmento hepático VIII com trajeto fistuloso transdiafragmático até o segmento posterior do lobo inferior do pulmão direito.

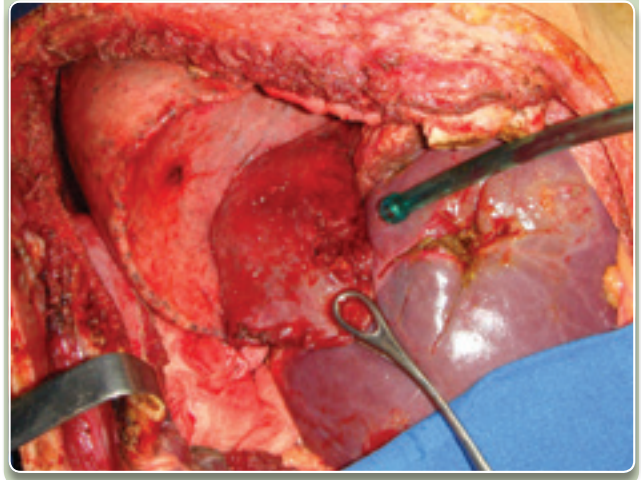


Figura 5. Segmentectomia pulmonar.

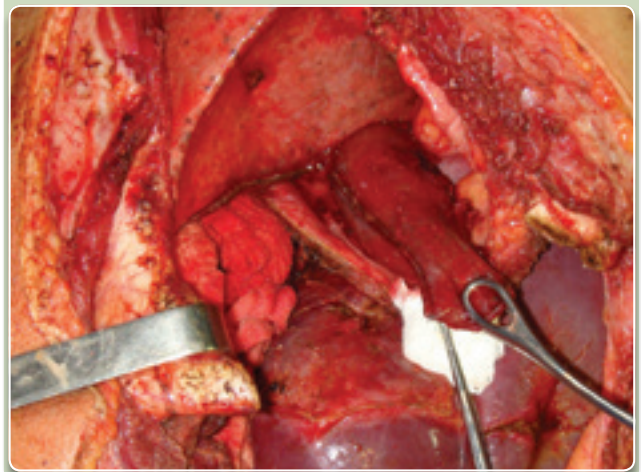
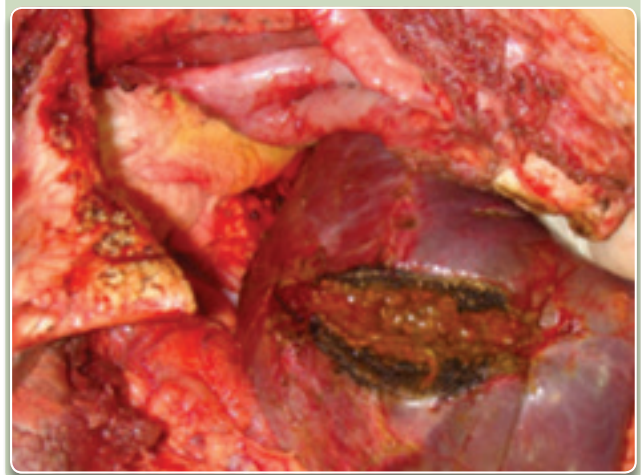


Figura 6. Fistulotomia hepática com rafia dos ductos biliares.



CONCLUSÃO

Devido à baixa incidência, não há na literatura de consenso quanto à abordagem diagnóstica e terapêutica dessa moléstia, tampouco dados suficientes para elaboração de um protocolo de manejo bem estabelecido na medicina baseada em evidências. Nesta revisão não evidenciamos sequer um estudo prospectivo em relação à fístula bronquiobiliar. Todavia, notamos uma tendência à implementação de uma série de procedimentos baseada na evolução clínica do paciente resumidos no fluxograma proposto anteriormente.

O manejo minimamente invasivo pode ser adequado para o tratamento da FBB nos casos não complicados, o que tem se mostrado uma tendência atual, apesar da ausência de evidências que comprovem que sua eficácia seja superior ao tratamento operatório. Este mantém-se como o de escolha para os casos refratários ao tratamento conservador ou associados a complicações, tais como abscessos hepático e pulmonar, peritonite biliar, lesões parenquimatosas complexas, ou associados à necessidade de abordagem cirúrgica por outras causas.

REFERÊNCIAS

1. Peacock TB. Case in which hydatids were expectorated and one of supuration of a hydatid cyst of the liver communicating with the lungs. *Edinburgh Med Surg J* 1850; 74:33-46.
2. Tocchi A, Mazzoni G, Miccini M, Drumo A, Cassini D, Colace L, Tagliacozzo S. Treatment of hydatidbronchobiliary fistulas: 30 years of experience. *Liver Int.* 2007 Mar;27(2):209-214.
3. Baudet JS, Medina A, Moreno A, Navazo L, Avilés J, Soriano A. Bronchobiliary fistula secondary to ruptured hepatocellular carcinoma into the bile duct. *JHepatol.* 2004 Dec;41(6):1066-1667.
4. Chaudhary A, Gupta NM. Choledocholithiasis presenting as bronchobiliary fistula. *IndianJGastroenterol.* 1984 Jul;3(3):165.
5. Taylor MA, Parks RW, Diamond T. Bronchobiliary fistula complicating open cholecystectomy. *UlsterMedJ.* 1998 Nov;67(2):132-133.
6. Najdi T, Sibai H, Zineddine A, Sakhi A, Habzi A, Lahbabi MS, Benomar S. Congenital bronchobiliary fistula: a case report. *ArchPediatr.* 2009 Aug;16(8):1137-1141.
7. Schulz J, Justinger C, Wagner M, Bohle RM, Kollmar O, Schilling MK, Richter S. Bronchobiliary fistula: a rare complication of hepatic endometriosis. *FertilSteril.* 2011 Feb;95(2): 804 e 815-818.
8. Bird R, Fagen K, Taysom D, Silverman ED. A case of bronchobiliary fistula in the setting of adult polycystic kidney and liver disease, with a review of the literature. *ClinNucl Med.* 2005 May;30(5):326-328.
9. Eck BD, Passinault WJ. Bronchobiliary fistula. A rare complication of chronic pancreatitis. *Int J Pancreatol.* 1996 Dec;20(3):213-216.
10. Gandhi N, Kent T, Kaban JM, Stone M, Teperman S, Simon R. Bronchobiliary fistula after penetrating thoracoabdominal trauma: case report and literature review. *J Trauma Infect Crit Care.* 2009 Nov;67(5):143-145.
11. Sheik-Gafoor M.H., Singh B., Moodley J. Traumatic thoracobiliary fistula: report of a case successfully managed conservatively, with an overview of current diagnostic and therapeutic options. *J Trauma Infect Crit Care* 1998; 45: 819-821.
12. Navsaria PH, Adams S, Nicol AJ. Traumatic thoracobiliary fistulae: a case report with a review of the current management options. *Injury.* 2002 Sep; 33 (7): 639-643.
13. Prodromos P, Condilis N. Thoracobiliary fistula. A rare complication of thoracoabdominal trauma. *Ann ItalChir.* 2009 Nov-Dec; 80 (6): 467-470.
14. Crnjac, Anton, Vid Pivec, and Arpad Ivanecz. Thoracobiliary fistulas: literature review and a case report of fistula closure with omentum majus. *Radiology and oncology;* 2013, 47 (1): 77-85.
15. Andrade-Alegre, Rafael, and Maylin Ruiz-Valdes. Traumatic thoracobiliary (pleurobiliary and bronchobiliary) fistula. *Asian Cardiovascular and Thoracic Annals;* 2013; 21 (1): 43-47.
16. Eryigit H, Oztas S, Urek S, Olgac G, Kurutepe M, Kutlu CA. Management of acquired bronchobiliary fistula: 3 case reports and a literature review. *J Cardiothorac Surg.* 2007 Dec 3;2:52.
17. Gugenheim J, Ciardullo M, Traynor O, Bismuth H. Bronchobiliary fistulas in adults. *Ann Surg,* 1988, 207: 90-94.
18. Oschner A, De Bakey M, Murray S. Pyogenic abscess of the liver; an analysis of 47 cases with review of the literature. *Am J Surg.* 1938; 40:292-319.
19. Oschner A, De Bakey M. Subphrenic abscess, collected review and analysis of 3608 collected and personal cases. *IntAbstr Surg.* 1938; 66:426-438.
20. Karabulut N, Cakmak V, Kiter G. Confident diagnosis of bronchobiliary fistula using contrast-enhanced magnetic resonance cholangiography. *Korean J Radiol.* 2010 Jul-Aug;11(4):493
21. Chaves, Dalton M; Previdelli, Maurício; Previdelli, Ivna Hitzschky F.V.; Sakai, Paulo; Ishioka, Shinichi. Tratamento endoscópico da vístula pancreatopleural: relato de casa e revisão de literatura / Endoscopic treatment of pancreaticopleural fistula: report of case and literature review. *Gastroenterol. Endosc. Dig.* 2002 21(6): 269-274.
22. Singh B, Moodley J, Sheik-Gafoor MH, Dhooma N, Reddi A. Conservative management of thoracobiliary fistula. *Ann Thorac Surg.* 2002;73: 1088-1091.
23. Jha AK1, Pokharna R, Nijhawan S, Sharma A, Sharma SS, Nepalia S. Successful endoscopic management of bronchobiliary fistula in a patient of pulmonary tuberculosis. *Trop Gastroenterol.* 2011 Jan-Mar;32(1):62-63.
24. Velchik MG, Roth GM, Wegener W, Alavi A. Bronchobiliary fistula detected by cholecintigraphy. *J Nucl Med.* 1991 Jan;32(1):136-138.
25. Berk F, Corapcioglu F, Demir H, Akansel G, Guvenc BH. Bronchobiliary fistula detected with Hepatobiliary scintigraphy. *ClinNucl Med* 2006;31:237-239.
26. Damle N, Sahoo M, Bal C, Tripathi M, Chakraborty P, Arora S, Malapure S, Gupta S, Kumar P. Diagnosis of Bronchobiliary Fistula-Utility of 99 m Tc-Mebrofenin Scan and SPECT/CT. *Nucl Med Mol Imaging.* 2013 Jun;47(2):141-142.
27. Annovazzi A, Viceconte G, Romano L, Sciuto R, Maini CL. Detection of a suspected bronchobiliary fistula by Hepatobiliary scintigraphy. *Ann Nucl Med.* 2008 Aug;22(7):641-643.
28. Yoon DH, Shim JH, Lee WJ, Kim PN, Shin JH, Kim KM. Percutaneous management of a bronchobiliary fistula after radiofrequency ablation in a patient with hepatocellular carcinoma. *Korean J Radiol.* 2009 Jul-Aug;10(4):411-415.
29. Schwartz ML, Coyle MJ, Aldrete JS, Keller FS. Bronchobiliary fistula: complete percutaneous treatment with biliary drainage and stricture dilation. *Radiology.* 1988 Sep;168(3):751-752.
30. Graham SE. Observation on bronchobiliary fistula. *BMJ.* 1897; 1: 1397-1400.
31. Ertugrul I, Koklu S, Koksai AS, et al. Treatment of bronchobiliary fistula due to an infected hydatid cyst by a nonsurgical approach. *Dig Dis Sci.* 2004; 49: 1595-1597.
32. Ong M, Moozar K, Cohen LB. Octreotide in bronchobiliary fistula management. *Ann Thorac Surg.* 2004 Oct; 78 (4):1512-1513.
33. Memis A, Oran I, Parildar M. Use of histoacryl and covered nitinol stent to treat a bronchobiliary fistula. *J VascIntervRadiol.* 2000;11:1337-1340.
34. Chua HK, Allen MS, Deschamps C, Miller DL, Pairolo PC. Bronchobiliary fistula: principles of management. *Ann Thorac Surg.* 2000;70:1392-1394.