

Rottura intrabiliare di cisti da echinococcosi epatica: presentazione di un caso clinico e revisione della letteratura

L. IZZO, M. CAPUTO, G. TIZIANO, F. SAMMARTINO, G. GALATI, E. FIORI, B. BINDA, M. BONONI

RIASSUNTO: Rottura intrabiliare di cisti da echinococcosi epatica: presentazione di un caso clinico e revisione della letteratura.

L. IZZO, M. CAPUTO, G. TIZIANO, F. SAMMARTINO, G. GALATI, E. FIORI, B. BINDA, M. BONONI

La rottura intrabiliare di cisti idatidea è una complicanza dell'echinococcosi epatica.

Gli Autori presentano un caso giunto alla loro osservazione e sottoposto ad intervento di pericistectomia totale e sutura della fistola biliare, trattamento d'elezione per questo tipo di complicanza.

SUMMARY: Intrabiliary rupture of hydatid cyst of liver: a case report and review.

L. IZZO, M. CAPUTO, G. TIZIANO, F. SAMMARTINO, G. GALATI, E. FIORI, B. BINDA, M. BONONI

Intrabiliary rupture of hydatid cyst of liver is a complication of hydatid disease.

The Authors report the case of a patient surgically treated by total pericystectomy and suture communication with biliary system, the best treatment for this condition.

KEY WORDS: Idatidosi epatica - Pericistectomia totale - Fistola biliare.
Hepatic hydatidosis - Total pericystectomy - Biliary fistula.

Premessa

La rottura nella via biliare di una cisti da echinococcosi epatica è una complicanza della malattia idatidea che si riscontra con un'incidenza variabile dal 5 al 25% dei casi (12).

L'echinococcosi è una zoonosi causata dallo stadio larvale della tenia *Echinococcus* che, pur presentando una maggiore incidenza in aree rurali, può considerarsi a distribuzione ubiquitaria, dal momento che il cane può essere l'ospite definitivo. L'uomo, invece, è un ospite intermedio (4).

La pressione intracistica è la causa maggiore di rottura ed è stimata in un range che va dai 30 agli 80 cm di acqua (20).

La rottura intrabiliare è la conseguenza di un processo bifasico: inizialmente si ha un incremento della pressione intracistica e la membrana idatidea, tenacemente aderente alla via biliare, va incontro ad un processo degenerativo; nella seconda fase si ha la rottura dell'endoblasto, con il conseguente svuotamento del contenuto cistico nelle vie biliari (1, 20).

La diagnosi di rottura non è sempre facile; è infatti comune una sintomatologia polimorfa e poco specifica (6): più spesso può simulare una colica biliare da litiasi, con o senza ittero; altre volte può assumere il quadro di un'epatocolangite o più raramente l'evento suppurativo è caratterizzato da forme complesse, come quelle che provocano filtrazioni di bile e/o rottura della cisti idatidea in peritoneo o, infine, dalla forma cosiddetta pseudotumorale, con ittero ingravescente, legata ad una compressione lenta e graduale della via biliare principale (VBP) (7).

Per quanto riguarda la diagnostica strumentale, l'ecotomografia, la colangio-RMN e la CPRE sono considerate indagini d'elezione (1).

La terapia deve essere mirata da un lato al trattamento della idatidosi epatica e, dall'altro, alla bonifica della VBP, in assenza della quale può svilupparsi una papillo-odditte: evenienza resa possibile dal continuo passaggio del liquido idatideo, fortemente irritante la mucosa biliare (4).

Caso clinico

W.B., uomo, 50 anni, riferisce la presenza da circa 6 mesi di dolori addominali crampiformi, localizzati in ipocondrio destro ed irradiati alla regione scapolare destra; a tali dolori, inquadrati come colica biliare, si associavano saltuariamente episodi di febbre, nausea e vomito.

Università degli Studi "La Sapienza" - Roma
Dipartimento di Chirurgia "Pietro Valdoni"
(Direttore: Prof. A. Cavallaro)
Divisione di I Patologia Chirurgia
(Direttore: Prof. A. Bolognese)

© Copyright 2003, CIC Edizioni Internazionali, Roma



Fig. 1- Cisti da echinococcosi localizzata a livello del VII segmento epatico. Sono distinguibili, all'interno, numerose cisti figlie.

Un'indagine ecografica mostrava la presenza di una formazione espansiva di tipo cistico, di 7 centimetri di diametro, a livello del VII segmento epatico; una TC addome confermava la presenza della cisti e distingueva, all'interno di questa, numerose cisti figlie (Fig. 1).

Su indicazione dell'infettivologo, il paziente assumeva antielmintici (Zentel) per 3 mesi; al controllo successivo, l'ecografia mostrava però un aumento volumetrico della cisti (11x13 cm), a carico del VII e VIII segmento.

Per ricomparsa del dolore, giunge alla nostra osservazione.

All'esame obiettivo sono apprezzabili: epatomegalia di grado discreto, addome dolente alla palpazione profonda, con notevole dolorabilità del punto cistico.

Il laboratorio documenta: bil. totale pari a 3,01 mg/dl; bil. diretta 2 mg/dl; ALT 116 U/l; AST 55 U/l; lipasi 110 U/l.

Alla RMN è evidente notevole dilatazione delle vie biliari intraepatiche e del coledoco, con idrope della colecisti.

Il paziente viene sottoposto a CPRE (Fig. 2) con sfinterotomia, estrazione di materiale idatideo e posizionamento di drenaggi biliari.

Dopo attenta valutazione degli elementi forniti dagli esami strumentali e di laboratorio, si esegue intervento chirurgico, per via toracofrenolaparotomica, di svuotamento della cisti, pericistectomia totale e sutura della fistola biliare.

Il decorso postoperatorio è caratterizzato dalla progressiva discesa dei valori di bilirubina sierica. Dimissione in XV giornata postoperatoria, clinicamente guarito.

Ad un anno dall'intervento il paziente viene sottoposto nuovamente a CPRE, nel corso della quale si estraggono i drenaggi biliari posizionati prima dell'intervento chirurgico; l'orifizio papillare appare lievemente stenotico per la presenza di tessuto di granulazione e sono evidenziati piccoli calcoli fluttuanti e materiale adeso alle pareti del coledoco. Si osserva inoltre un lieve restringimento del lume a livello del coledoco medio. Si amplia la sfinterotomia e si estraggono i calcoli con sonda a palloncino.

Discussione e conclusioni

La rottura intrabiliare di una cisti da echinococco è una complicanza molto grave della malattia idatidea; in genere risulta più frequente nel dotto biliare di destra (55-60%), meno in quello di sinistra (25-30%) (12) e del tutto occasionale nel coledoco (4-9%) (19).

La sintomatologia generalmente assume i caratteri



Fig. 2 - Posizionamento di drenaggio in corso di CPRE.

della colica biliare, con dolore all'ipocondrio destro, irradiato alla spalla omolaterale e, talvolta, all'epigastrio (20).

Per quanto concerne gli esami di laboratorio, è caratteristico l'innalzamento della bilirubinemia, delle transaminasi, della fosfatasi alcalina, delle GT ed una leucocitosi neutrofila con eosinofilia; quest'ultimo dato, anche se non sempre presente, è l'unico che può far sorgere il sospetto della natura parassitaria dell'ittero (4). La diagnosi differenziale, infatti, è in prima istanza con la calcolosi del coledoco e con le neoplasie primitive della via biliare, poi con gli ascessi epatici, le compressioni estrinseche della via biliare principale e le colangiti sclerosanti (3).

Nel campo della diagnostica strumentale, procedure come l'ultrasonografia, la tomografia computerizzata e la risonanza magnetica risultano essere molto utili. Grande importanza va comunque data alla CPRE (2), che riveste un ruolo determinante, consentendo una diagnosi rapida e precisa ed una accurata toilette dell'albero biliare, con posizionamento di tubi di drenaggio all'interno di esso, evitando la recidiva dell'ittero (12).

La CPRE consente, inoltre, il prelievo di materiale

TABELLA 1 - TRATTAMENTO DELLE CISTI DA ECHINOCOCCOSI EPATICA APERTE NELLE VIE BILIARI: UNO "SGUARDO" ALLA LETTERATURA.

<i>Autore</i>	<i>Anno</i>	<i>Numero pazienti</i>	<i>Tipo di trattamento</i>
Bouzidi A. et al.	1997	83	Pericistectomia totale + coledocoduodenostomia (59 pz); CPRE + ES (24 pz)
Atli M. et al.	2001	24	Pericistectomia parziale + coledocoduodenostomia (15 pz); CPRE + ES (9 pz)
Elbir O. et al.	2001	80	Pericistectomia totale + coledocoduodenostomia (53 pz); CPRE + ES (27 pz)
Beyruti M.I. et al.	2001	14	CPRE + ES
Tsitouridis J. et al.	2001	11	Pericistectomia totale + coledocoduodenostomia (8 pz); CPRE + ES (3 pz)

biliare per la coltura ed il posizionamento di un drenaggio naso-biliare sia a scopo decompressivo, sia per il trattamento antibiotico locale di un cavo residuo comunicante con la via biliare principale (7).

Anche dal punto di vista terapeutico la CPRE, associata a sfinterotomia endoscopica (ES), rappresenta un'utile metodica nel trattamento dell'echinococcosi epatica e delle sue complicanze biliari. Infatti, come è ampiamente riportato in letteratura, ci permette di risolvere l'ostruzione della VBP, di effettuare lo svuotamento completo della cisti e, attraverso l'introduzione

di soluzione salina ipertonica, di bonificare la cavità cistica che, nel giro di alcune settimane, potrà ridursi quasi completamente (12-14).

In altri casi il trattamento è esclusivamente di tipo chirurgico e consiste nella pericistectomia totale o parziale o, ancora, nella resezione epatica atipica; a queste metodiche debbono essere sempre associate una riparazione ed una bonifica della via biliare (rimozione delle cisti figlie e dei frammenti idatidei (1, 3, 5, 8).

Negli ultimi anni, la letteratura ha riportato molti studi sulla resezione chirurgica delle cisti da echinococcosi epatica aperte nella via biliare (Tab. 1).

Bibliografia

1. Agaev RM: Surgical treatment of hepatic echinococcosis and its complications. *Khirurgiia (Mosk)* 2001; 2: 32-36.
2. Akkiz H, Akinoglu A, Çolakoglu S, Demiryürek H, Yagmur Ö Endoscopic management of biliary hydatid disease. *Can J Surg* 1996; 39: 287-292.
3. Al-Akayleh A: Frank intrabiliary rupture of hydatid hepatic cyst: diagnosis and treatment. *Iran Health J* 2000; 6:522-5.
4. Atli M, Kama NA, Yuksek YN, Doganay M, Gozalan U, Kologlu M, Aglar G: Intrabiliary rupture of a hepatic hydatid cyst: associated clinical factors and proper management. *Arhc Surg* 200; 136:1249-55.
5. Berouti MI, Kharrat M, Elleuch S, Affes N, Gargouri F, Karoui A, Kchaou MS: Internal trans-Oddi's sphincter fistula drainage of hydatid cysts communicating with the bile ducts. *Presse Med* 2001; 30 (38): 1863-7.
6. Bouzidi A, Chehab F: Surgical treatment of biliary cystic fistula caused by hydatid cysts. A propos of 83 cases. *J Chir* 1997; 134 (3): 114-8.
7. Calvi O, Lupo V, Prete A: E.R.C.P. in Hydatidosis of common bile duct: a case report. *Chir Gastroenterol* 1989; 23: 199-202.
8. Cittadini G: Manuale di diagnostica per immagini e radioterapia. ECIG, III ed., 1995.
9. Daali M, fakir Y, Hssaida R, Haji A, Hda A: Hydatid cysts of the liver opening in the biliary tract. Report of 64 cases. *Ann Chir* 2001; 126 (3): 242-5.
10. Dionigi R, *Chirurgia Masson*, II ed. 1997 - rist. 2001.
11. Elbir O, Gunogdu H, Caglikulekci M, Kayaalp C, Atalay F, Savkilioglu M, Seven C: Surgical treatment of intrabiliary rupture of hydatid cysts of liver: comparison of choledochoduodenostomy with T-tube drainage. *Dig Surg* 2001; 18 (4): 289-93.
12. Giordano G, Ialongo P, Amoruso M, Rizzo MI, Di Venere B, Bonomo GM: Obstructive jaundice caused by hydatid cyst rupture in main bile duct. *Ann Ital Chir* 1999; 70 (5): 763-6.
13. Hilmioglu F, Karicaoglu M, Yilmaz S, Yildirim B, Kirimlioglu V, Aladag M, Onmus H: Complete treatment of ruptured hepatic cyst into biliary tree by ERCP. *Dig Dis Sci* 2001; 46 (3), 463-7.
14. Laghi A, Teggi A, Pavone P, Franchi C, de Rosa F, Passariello R: Intrabiliary rupture of hepatic hydatid cysts: diagnosis by use of magnetic resonance cholangiography. *Clin Infect Dis* 1998; 26 (6): 1465-7.
15. Lewall DB, McCorkell SJ: Rupture of echinococcal cyst: diagnosis, classification and clinical implications. *AJR Am J Roentgenol* 1986; 146: 391-4.

16. Mahendra Singh, Rathore SS, Ajit Singh.: Uncommon clinical presentation in a case of hydatid cyst of liver. *J Ind Acad Clin Med* 2001; 2 (1/2): 93-5.
 17. Paksoy M, Karahasanoglu T, Carkman S, Giray S, Senturk H, Ozelik F, Erguney S: Rupture of the hydatid disease of the liver into the biliary tracts. *Dig Surg* 1998; 15 (1): 25-9.
 18. Saez-Royuela F, Yuguero L, Lopez-Morante A, Perez-Alvarez JC, Martin-Lorente JL, Ojeda C: Acute pancreatitis caused by hydatid membranes in the biliary tract: treatment with endoscopic sphincterotomy. *Gastrointest Endosc* 1999; 49 (6): 793-6.
 19. Trizza C, Stomati G, Montinaro R, Trizza M: Hepatic hydatidosis rupturing into the bile ducts. *Minerva Chir* 1982; 37 (18): 1399-402.
 20. Tsitouridis J, Kouklakis G, Tsitouridis K, Melidis D, Krokos N, Emmanoyilidoy M: Intrabiliary obstruction due to ruptured hepatic hyatid cyst: evaluation with computed tomography and magnetic resonance imaging. *Dig Endosc* 2001; 13: 1-7.
 21. Tzias V, Psatha P, Stergiopoulos S, Lagoudakis M: Left hepatic duct cutaneous fistula after right hepatic lobe hydatid cyst operation treated with nasobiliary tube. *Gastrointest Endosc*, 1999; 50 (5): 710-1.
 22. Wong LS, Braghirolli-Neto O, Min Xu, Buckels JAC, Mirza DF: Hydatid liver disease as a cause of recurrent pancreatitis. *J R Coll Surg Edinb* 1999; 44: 407-9.
 23. Wu X, Xin W, Zhao SY :37 patients with hepatic hydatid cyst rupturing into choledochus. *Zhonghua Wai Ke Za Zhi* 1997; 35 (5): 279-80.
 24. Yahya AI, Issa MO, Ekheil MA, Thoboot AS, Shwereif HM, Ehemmed AO, Fakar FF, Algader KA, Dave NP, Hashem M. Cysto-cutaneous fistula, as a complication of after surgery of an infected hydatid cyst of liver cured by ERCP. *Hospital Zliten Libya* 2001.
-