

Karaciğer hidatiğine yönelik cerrahi sonrası gelişen bronkobilyer fistül: İki olgu sunumu

Bronchobiliary fistula following hepatic hydatidosis surgery: a report of two cases

Serkan Sarı,¹ Türkan Dübüş,² Hasan Bektaş,¹ Feyzullah Ersöz,¹ Soykan Arkan¹

İstanbul Eğitim ve Araştırma Hastanesi, ¹Genel Cerrahi Kliniği, ²Göğüs Cerrahisi Kliniği, İstanbul

Karaciğerin ekinokok hastalıklarında primer tedavi yöntemi halen cerrahidir. Cerrahi yaklaşım ve parazit dolayısıyla cerrahi tedavi sonrası önemli komplikasyonlar gelişebilmektedir. Karaciğerin diyaframatik yüzünde yerleşen ekinokok kistin toraks boşluğuna açılımı nadirdir, ancak bu durum bronşiyal ağaç, plevra ve akciğer parankiminde farklı komplikasyonlarla sonuçlanabilmektedir. Karaciğer ekinokok hastalığında oluşan bronkobilyer fistül nadir ancak tehlikeli bir komplikasyondur. Bu yazıda iki farklı türden ekinokok enfestasyonunun geliştirdiği iki bronkobilyer fistül olgusu sunuldu.

Anahtar sözcükler: Alveoler hidatidoz; bronkobilyer fistül; karaciğer hidatidoz; cerrahi.

Bronkobilyer fistül seyrek görülen bir durumdur ve genellikle karaciğerin hidatik veya amibik hastalığı, kolelitiazis, koledokolitiazis, malignite, doğuştan kusurluluk veya geçirilmiş cerrahiye sekonder bir komplikasyondur.^[1] Karaciğer kubbesindeki kist hidatiğin toraks içine rüptürü nadir bir komplikasyondur ve karaciğer kist hidatik olgularının %0.6 ila 16'sında görülmektedir.^[2] Karaciğer kist hidatiğin plevral boşluğa veya bronşa açılması yüksek mortalite (%9-43) ve morbidite nedenidir.^[3] Safra iritasyonuna bağlı kimyasal pnömoni ile sonuçlanır.^[1]

Karaciğer kist hidatiklerinde cerrahi tedavi genel bir yaklaşımdır. Kist hidatik cerrahisi önemli ölçüde morbidite ve mortalite oranına sahiptir. Tanısal, yaklaşım ve teknik hataların sonucunda oluşan ameliyat sırası komplikasyonların ve nükslerin görülme olasılığı yüksektir. Bu çalışma, kist hidatik nedeni ile ameliyat olan biliyer sistem hasarlı hastaları değerlendirmek amacı ile planlanmıştır.

Surgery is still the primary treatment modality for echinococcosis disease of the liver. Important complications may develop following the surgical treatment due to the surgical approach and a parasite. Cystic echinococcosis located at the diaphragmatic surface of the liver rarely open to the thorax cavity, but this condition can result in various complications in the lung parenchyma, pleura and bronchial tree. Bronchobiliary fistula occurring in hepatic echinococcosis disease is a rare but dangerous complication. In this report, we present two cases of bronchobiliary fistula which developed via two different types of echinococcosis infestation.

Key words: Alveolar hydatidosis; bronchobiliary fistula; hepatic hydatidosis; surgery.

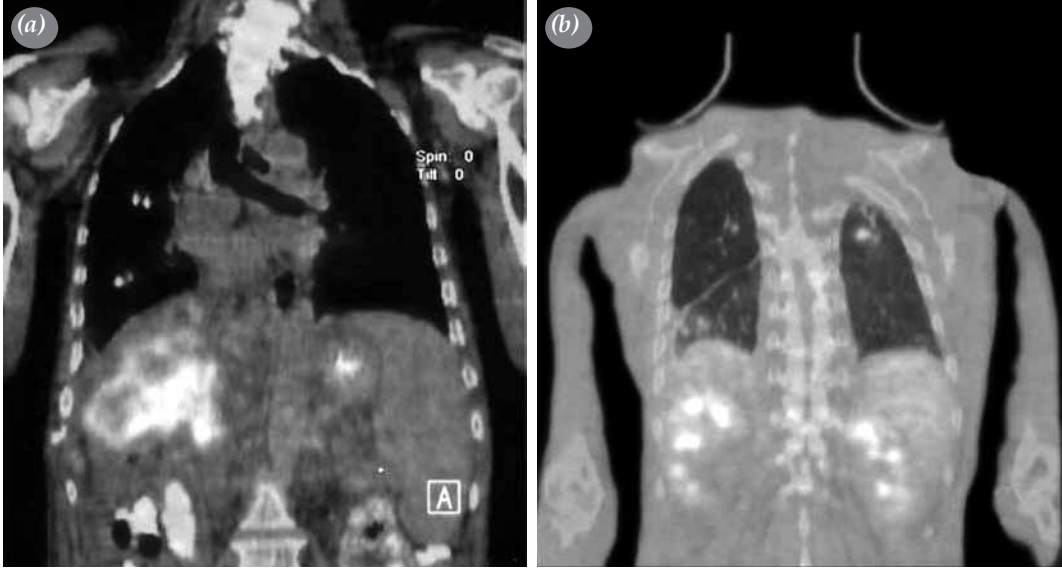
OLGU SUNUMU

Olgu 1- Altmış dört yaşında erkek hasta, son bir haftadır şiddetlenen karın ağrısı, bulantı, kusma yakınmaları nedeni ile acil kliniğimize başvurdu. On yıl önce geçirilmiş karaciğer kist hidatik ameliyatı öyküsü olan hastada palpasyonda sağ üst kadran hassasiyeti mevcut idi. TA: 120/80 mmHg, nabız: 110/dk ve ateş 38 °C idi. Kan biyokimyasal değerleri; lökosit: 37200/ml, INR: 1.57, aPTT: 42 saniye (sn), PT: 18.4 sn idi. Batın ultrasonografi (USG) ve kontrastlı bilgisayarlı tomografide (BT) karaciğer sağ lob posterior segmentte 6x3.5x9 cm boyutlarında ön planda apse ile uyumlu lezyon saptandı. Nüks karaciğer kist hidatiği veya apsesi ön tanısı ile yatırılan hastaya seftriakson 2x1 gr ve Ornidazol 2x500 mg tedavisi başlandı.

Uygulanan tedaviye yanıt vermeyen hasta, yatışının beşinci günü genel durumunun bozulması üzerine acil olarak ameliyata alındı. Hastanın sağ subkostal insizyon

Geliş tarihi: 09 Aralık 2008 Kabul tarihi: 14 Haziran 2009

Yazışma adresi: Dr. Türkan Dübüş, İstanbul Eğitim ve Araştırma Hastanesi Göğüs Cerrahisi Kliniği, 34098 Fatih, İstanbul.
Tel: 0212 - 534 54 96 e-posta: drturkandbs@yahoo.com



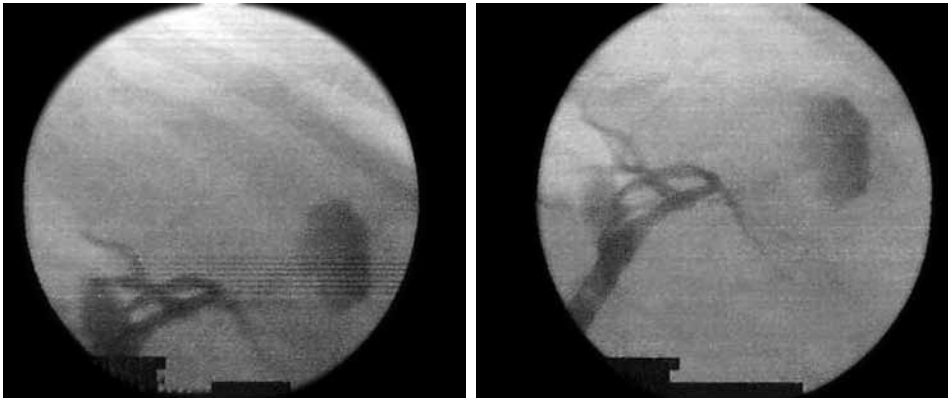
Şekil 1. Pozitron emisyon tomografi-bilgisayarlı tomografi: (a) Karaciğerde artmış FDG tutulumu, (b) akciğerlerde metastatik nodüllerle uyumlu artmış FDG tutulumu gösteren hipermetabolik lezyonlar görülmektedir. FDG: Floro-deoksi-glukoz.

skarının olması ve karaciğer apsesinin sağ lob posterior segmentte yerleşmesi nedeni ile sağ lateral torakotomi ile apse drenajı yapıldı. Histopatolojik inceleme sonucu alveoler hidatidosis (echinococcus multilokularis enfestasyonu), karaciğer dokusunda nekrozlaşan, apseleşen granümatöz iltihap olarak bildirildi. Komplikasyon gözlenmeyen hasta ameliyat sonrası 12. gün taburcu edildi.

Ameliyat sonrası 7. ayda ani gelişen karın ağrısı, ateş, genel durum bozukluğu nedeni ile hasta tekrar yatırıldı. Fizik muayenesinde iki taraflı solunum sesleri azalmış ve hasta taşipneik idi, batin muayenesi normal, bacaklarda ise pretibial ödem var idi. Yapılan incelemelerinde albumin 2.4 g/dl, total bilirubin 3.5 mg/dl, direkt bilirubin 1.5 mg/dl, INR 1.89, PT 22 sn olarak saptandı. Torakoabdominal BT'de karaciğerde lezyon ve akciğerlerde şüpheli metastatik nodüller ile uyumlu

lezyonlar görüldü. Bunun üzerine çekilen pozitron emisyon tomografi (PET)-BT'de akciğerlerde artmış FDG (Floro-deoksi-glukoz) tutulumu gösteren hipermetabolik nodüler lezyonlar saptandı (Şekil 1). Hastaya geniş spektrumlu antibiyoterapi (imipenem 3x1 gr) başlandı. Bir hafta sonra hasta öksürdüğünde ağızdan sarı renkte safra ile uyumlu sıvı gelmesi üzerine yapılan bronkoskopide bronşlarda safra görüldü.

Bronkobiliyer fistül tanısı ile endoskopik retrograd kolanjiyopankreatografi (ERCP) yapılan hastada karaciğer sağ hepatik kanal sisteminden kaçak gözleildi (Şekil 2). Sfinkterotomi yapılarak 10F nazobiliyer drenaj kateteri yerleştirildi. Mevcut biliptozişi ilk dört gün kesildi, sonra aralıklı olarak minimal devam etti. Akciğerlerdeki şüpheli nodüler lezyona yönelik tanısal amaçlı transtorasik iğne aspirasyonu yapıldı. Histopatolojik inceleme sonucu ekinokok enfestasyonu



Şekil 2. Endoskopik retrograd kolanjiyopankreatografide mevcut fistül kaçağı görülmektedir (Olgu 1).

olarak bildirildi. Hipoalbuminemi ve kan biyokimyasal değerleri düzensiz seyreden hastaya medikal ve destek tedavisi uygulandı. Düşük solunum kapasitesi, akciğerde iki taraflı yaygın alveoler hidatidoz varlığının tespiti, ciddi pnömoni, hipoalbuminemi, PT-INR yüksekliği, genel durum bozukluğu ve daha önce iki kez karaciğer ameliyatının olması göz önünde bulundurularak ilk etapta cerrahi girişim düşünülmedi. Hasta reanimasyona alındı. Tedavilere yanıt vermeyen hasta, yatışının 70. gününde sepsis-akut solunum yetmezliği sendromu (ARDS) nedeniyle kaybedildi.

Olgu 2- Otuz dokuz yaşında kadın hasta, yaklaşık bir yıldır var olan karın ağrısı, bulantı yakınmaları ile kliniğimize başvurdu. Yapılan klinik ve radyolojik incelemelerinde karaciğer sağ lob posterior segmentte kist hidatik ile uyumlu lezyon saptandı. Hastaya kistotomi-parsiyel kistektomi- (“unroofing”) ameliyatı yapıldı. Ameliyat sonrası yüksek debili (400 cc/gün) safra fistülü gelişmesi üzerine 4. gün ERCP yapıldı. Sağ hepatic kanal sisteminden safra kaçağı saptandı ve sfinkterotomi yapıldı. Ameliyat sonrası 7. gün solunum sıkıntısı gelişen hastanın 38.5 °C’ye ulaşan ateşi oldu. Yapılan incelemelerinde lökosit: 24.000/ml, oda havasında pO₂: 55 mmHg, pCO₂: 65-70 mmHg, sO₂: %89, sedimentasyon: 122 mm/saat, CRP: 64 mg/dL, total bilirubin: 3.41 mg/dl idi. Çekilen toraks BT’de sağ hemitoraksta yaygın plevral sıvı, anterior mediastende hava-sıvı seviyesi oluşturan koleksiyon alanı izlendi (Şekil 3).

Genel durumu bozulan hasta Göğüs Cerrahisi Kliniği’nce de konsülte edildi. Mediastinit tanısı konulan hastaya torakotomi kararı verildi. Eksplorasyonda sağ plevral ampiyem, ön mediastende apse, vena



Şekil 3. Toraks bilgisayarlı tomografide sağ hemitoraksta yaygın plevral mayi, anterior mediastende hava-sıvı seviyesi oluşturan koleksiyon alanı görülmektedir (Olgu 2).

kava'nın diyaframdan geçtiği yere yakın mesafedeki diyafragmatik yüzde yaklaşık 2x3 cm boyutunda batınla iştirakı olan defekt saptandı. Hastaya sağ total plevrektomi-dekortikasyon, diyafram tamiri - apse drenajı yapıldı. Ameliyat sonrası patoloji sonucu fibrinli apseleşen nonspesifik iltihap-akut iltihap tablosu olarak bildirildi. Hastaya geniş spektrumlu antibiyoterapi başlandı. Klinik takiplerinde ameliyat sonrası 21. gün kontrol amaçlı çekilen toraks BT’de sağ akciğer üst anterior bölgede mediastenle yakın komşulukta hava sıvı seviyesi gösteren apse ile uyumlu görüntü tespit edildi. Hastaya USG eşliğinde, sağ akciğer mediastinal yerleşimdeki poşa 16F tüp ile drenaj uygulandı. Drenden sarı renkte safra ile uyumlu mayi geldi. Biliptoze de başlayan hastaya ikinci ameliyatından bir ay sonra tekrar ERCP ve resfinkterotomi yapıldı. Sağ hepatic kanal sisteminden kaçağın devam ettiği görüldü. Klinik takiplerinde ve genel durumunda düzelme saptanan hastanın drenden ve bronştan gelen safıralı mayi 35. gün kesildi. Hasta ilk ameliyatından sonra 42. günde taburcu edildi. Sağ toraks dreni poliklinik kontrollerinde çekildi. Kontrol akciğer grafisinde mevcut lezyonun kaybolduğu ve akciğerlerin ekspanse olduğu görüldü. On ay sonra çekilen kontrastlı toraks ve batın BT’sinde ameliyat sonrası değişiklikler dışında patoloji saptanmadı.

TARTIŞMA

Bronkobilyer fistüllü hemen hemen tüm olgularda safıralı balgam mevcuttur. Safra tahrişine sekonder pnömoniler sıklıkla görülür. Bakteriyel süperenfeksiyonların da eklenmesi ile pulmoner komplikasyonlar fatal boyutlara erişebilir.^[1] İlk olgumuz sepsis-ARDS nedeniyle kaybedildi.

Konservatif yöntemlerle tedavinin daha başarılı bir yaklaşım olabileceği ve cerrahinin bu yöntemlerin başarısız kalması durumunda tercih edilebileceği öne sürülmüştür.^[4]

Her iki olgumuzda da bronkobilyer fistül geliştikten sonra tedavi yaklaşımı konservatif idi, kadın olguda iyileşme görülür iken, erkek olguda konservatif yaklaşım sonuç vermedi. İlk olguda hastanın genel durumunun bozukluğu, düşük solunum kapasitesi, akciğerlerde yaygın alveoler hidatidoz varlığı, ciddi pnömoni, INR yüksekliği, karaciğer fonksiyon bozukluğu ile alveoler ekinokok hastalığının evresi, cerrahi yaklaşımın hastaya fayda sağlamayacağı kararını vermemize neden oldu.

İlk olguda, sağ subkostal insizyon skarı ve apse yerleşim yerinin diyafragmatik kubbe komşuluğunda olması nedeni ile sağ torakotomi insizyonu tercih edildi. Bu olguda apse yerleşim yerinin diyafragmatik kubbe komşuluğunda ve posteriora olması ve ilk ameliyata

bağlı batın içi yapışıklıklarla karşılaşma olasılığı nedeni ile apse drenajı için torakal yol tercih edildi. Ancak hastalığın alveoler formda olduğunun bilinmemesi ve göğüs cerrahisi konsültasyonu yapılmamış olması torakotomi sonucunu doğurdu.

Bu tür olgularda gerek infeksiyonun bir başka boşluğu etkileyecek olması gerekse de *ekinokokkus multilokularis*'in metastatik özelliği nedeniyle abdominal yolun tercih edilmesi, bronkobilier fistül dahil komplikasyonu azaltacaktır.

Kadın olguda diyafragmatik perforasyonun nedeni anlaşılamadı. Perforasyon sütüre edilmesine rağmen bronkobilier fistül daha sonra gelişti. Spontan iyileşmede perkütan drenaj ve ERCP ile tekrar sfinkterotomi ile safra yollarındaki basınç azalması etkili oldu. Bu da literatürde bildirilen ve mümkün olduğunca daha noninvazif yöntemlerle tedavinin başarısı açısından bir göstergedir.

Safranin akciğer ve plevral alan üzerinde korozif etkisi vardır. Plevrobilier fistül (PBF) loküle biliöz ampiyeme yol açabilir ve plevral adezyonlara neden olarak akciğer fonksiyonlarını baskılayan tuzaklanmış akciğer ile sonuçlanabilir. Plevral sıvıda ve bilioptoziste bilirubin seviyesinin analiziyle safra varlığının gösterilmesi PBF için patognomoniktir.^[4] Her iki olguda da bilioptoziste bilirubin seviyeleri yüksekti. Bronkoskopik eksplorasyonda makroskopik olarak safra mayisi bariz olarak görülmekte idi.

İndirekt hemaglutinasyon (İHA), indirekt floresan antikor (İFA) ve enzim immün assay (EİA), kompleman fiksasyon (Weinberg) testleri tanı için kullanılan serolojik testler idi. Bu testlerin duyarlılığının %60-90 arasında pozitif olduğu bildirilmiştir.^[5] Her iki olguda da bronkobilier fistül gelişimi sonrasında İHA testi negatif idi.

Sonuç olarak, diyafram kubbesine yakın karaciğer kist hidatik olgularında bilier tıkanıklık ve apse oluşumu diyafram destrüksiyonu yaparak fistülizasyona neden olabilmektedir. Bu tür olgularda safra akımını kolaylaştırıcı endoskopik yaklaşımlar ve infeksiyon riskini azaltıcı önlemler morbidite ve mortaliteyi azaltabilmektedir. Zaten mortalitesi yüksek olan bronkobilier fistüllerde cerrahi tedavi, konservatif yaklaşımlara yanıt alınmadığı durumlarda düşünülmelidir. Ancak cerrahi yaklaşımın başarısı, hastaya ait faktörler ve kistin durumuna bağlı olabilmektedir.

Çıkar çakışması beyanı

Yazarlar bu yazının hazırlanması ve yayınlanması aşamasında herhangi bir çıkar çakışması olmadığını beyan etmişlerdir.

Finansman

Yazarlar bu yazının araştırma ve yazarlık sürecinde herhangi bir finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

KAYNAKLAR

1. Andalkar L, Trow TK, Motroni B, Katz DS. Bronchobiliary fistula as a complication of liver metastases: diagnosis by HIDA scan. Clin Nucl Med 2004;29:289-91.
2. Kabiri EH, El Maslout A, Benosman A. Thoracic rupture of hepatic hydatidosis (123 cases). Ann Thorac Surg 2001;72:1883-6.
3. Gerazounis M, Athanassiadi K, Metaxas E, Athanassiou M, Kalantzi N. Bronchobiliary fistulae due to echinococcosis. Eur J Cardiothorac Surg 2002;22:306-8.
4. Singh B, Moodley J, Sheik-Gafoor MH, Dhooma N, Reddi A. Conservative management of thoracobiliary fistula. Ann Thorac Surg 2002;73:1088-91.
5. Uzel N. Parazit enfeksiyonları. In: Neyzi O, Ertuğrul T, editörler. Pediatri. 3. Baskı. İstanbul: Nobel Tıp Kitabevleri; 2002. s. 583-98.