

Przetoka pęcherzykowo-skórna w przebiegu nieleczzonego przewlekłego kamicy zapalenia pęcherzyka żółciowego – opis przypadku

Cholecystocutaneous fistula in the course of untreated chronic calculus cholecystitis – a case report

Jakub Żmudzki, Tomasz Orawczyk, Tomasz Bolkowski, Marek Kazibudzki

Katedra i Klinika Chirurgii Ogólnej, Naczyniowej i Angiologii Śląskiego Uniwersytetu Medycznego w Katowicach (Department of General, Vascular Surgery and Angiology, Medical University of Silesia in Katowice, Poland)

Streszczenie

Przetoka pęcherzykowo-skórna jest rzadkim powikłaniem przewlekłego kamicy zapalenia pęcherzyka żółciowego. W artykule zaprezentowano przypadek 73-letniego pacjenta z przetoką pęcherzykowo-skórna z ropniem okolicy łuku żebrowego prawego. Ropień zawierał złogi żółciowe. Autorzy przedstawiają przeprowadzoną diagnostykę oraz sposób leczenia chirurgicznego.

Słowa kluczowe: przetoka pęcherzykowo-skórna, złogi żółciowe, przewlekłe zapalenie pęcherzyka żółciowego, kamica pęcherzyka żółciowego

Chirurgia Polska 2009, 11, 75–78

Abstract

Cholecystocutaneous fistula is a rare complication of chronic calculus cholecystitis. The article presents a 73-year old patient with cholecystocutaneous fistula and abscess in the right costal arch. The abscess contained gallstones. We present a diagnostic and performed surgical treatment.

Key words: cholecystocutaneous fistula, gallstones, chronic calculus cholecystitis, cholecystolithiasis

Polish Surgery 2009, 11, 75–78

Wstęp

Przetoka pęcherzykowo-skórna jest niezwykle rzadkim powikłaniem kamicy zapalenia pęcherzyka żółciowego. Po raz pierwszy schorzenie zostało opisane w 1670 roku przez Thilesusa, a w ciągu ostatniego półwiecza w piśmiennictwie światowym opisano około 20 przypadków [za: 1]. Dynamiczny rozwój oraz duża dostępność nowoczesnych metod diagnostyki i leczenia schorzeń dróg żółciowych powodują ich wczesne wykrywanie i leczenie w początkowym stadium.

Background

Cholecystocutaneous fistula is a rare complication of calculus cholecystitis. The disease was first described by Thilesus in 1670 and over the last half century approximately 20 cases have been described in the worldwide literature [in 1]. Dynamic medical developments and wide access to modern diagnostics and treatment options of biliary tract diseases have contributed to its early detection and treatment in the initial stages.

W niniejszej pracy zaprezentowano opis przypadku 73-letniego pacjenta leczonego w Klinice Chirurgii Ogólnej, Naczyniowej i Angiologii Śląskiego Uniwersytetu Medycznego w Katowicach z powodu przetoki pęcherzykowo-skórnej. Pacjent był leczony dwuetapowo. Wykonano nacięcie ropnia okolicy łuku żebrowego prawego, a następnie cholecystektomię z rewizją dróg żółciowych oraz wycięto przetokę.

Opis przypadku

Pacjent w wieku 73 lat, obciążony chorobą niedokrwinną serca, z przebyłym zawałem serca, nadciśnieniem tętniczym, cukrzycą insulinozależną, otyły. Hospitalizowany w Klinice Elektrokardiologii SUM, gdzie został zakwalifikowany do wszczęcia stymulatora serca z powodu zmiennego bloku przedsionkowo-komorowego I/II stopnia. W wywiadzie około 4 miesiące przed przyjęciem pacjent przeżył atak kolki żółciowej. Około 5 tygodni po tym ataku pojawiło się zaczerwienienie i bolesność w okolicy prawego łuku żebrowego. Zastosowano u pacjenta antybiotykoterapię doustną i miejscowe leczenie przeciwzapalne, uzyskując poprawę stanu miejscowego.

W badaniu przedmiotowym stwierdzono przetokę skórną okolicy łuku żebrowego prawego, o średnicy około 5 mm ze śladowym wyciekaniem treści ropnej, z okrężnym zaczerwienieniem skóry średnio około 6 cm oraz tklivością tej okolicy. Przy badaniu bez objawów patologicznych ze strony jamy brzusznej. W badaniach dodatkowych: AspAT 103 j.m./l, AIAT 128 j.m./l, GGTP 208 j.m./l, FA 115 j.m./l, bilirubina całkowita 2,2 mg%. Pozostałe parametry krwi w normie.

Ropień nacięto, ewakuując z tkanki podskórnej dwa kamienie żółciowe (śr. 1 cm i 1,5 cm). Jamę ropnia sączkowano, wykonano posiew treści ropnej i antybiogram. Wyhodowano pałeczkę *Escherichia Coli*, zastosowano celowaną antybiotykoterapię — cefuroksym, gentamycyna. Wykonano tomografię komputerową jamy brzusznej, która ujawniła marski pęcherzyk żółciowy z przetoką pęcherzykowo-skórną (ryc. 1, 2).

Pacjenta zakwalifikowano do cholecystektomii. Po wszczęciu tymczasowej elektrody do stymulacji serca przyjęto chorego do Kliniki Chirurgii w celu leczenia operacyjnego. Wykonano laparotomię cięciem przezprostnym prawym. W badaniu jamy brzusznej: marski pęcherzyk żółciowy z przetoką pęcherzykowo-skórną. Główna droga żółciowa była nieposzerzona. Wykonano cholecystektomię z rewizją dróg żółciowych. Bez cech kamicy przewodowej. Założono dren Kehra, wycięto przetokę. Wysłano pęcherzyk żółciowy do badania histopatologicznego (wynik: przewlekłe zapalenie pęcherzyka żółciowego, bez ognisk nowotworzenia). Okołooperacyjnie kontynuowano antybiotyk o szerokim spektrum oraz zastosowano profilaktykę przeciwzakrzepową. Przebieg pooperacyjny bez powikłań. W 5. dobie po operacji pacjenta przekazano do Kliniki Elektrokardiologii w celu kontynuacji leczenia i wszczęcia stałego stymulatora serca. Po 7 tygodniach od operacji wykonano cholangiografię przez dren Kehra. Nie ujawniono patologicznych

The article presents a 73-year old patient treated for cholecystocutaneous fistula in the Department of General and Vascular Surgery and Angiology, Medical University of Silesia in Katowice. The patient underwent treatment in two stages — incision of the right costal arch abscess was performed followed by cholecystectomy with revision of the biliary ducts. The fistula was excised.

Case report

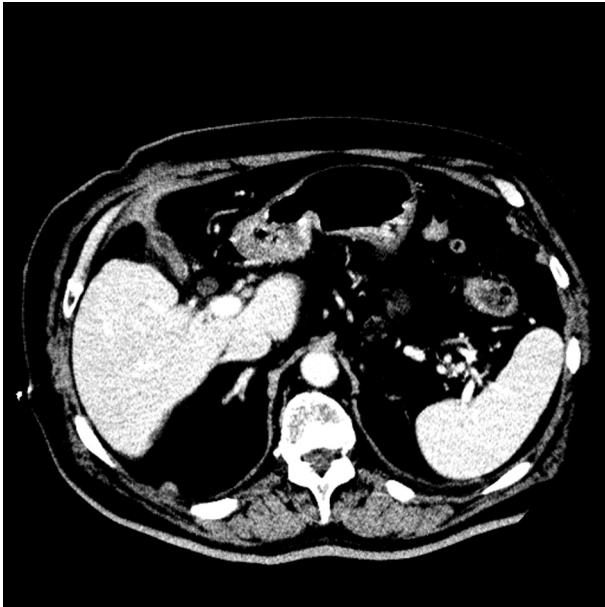
A 73-year old patient with a history of ischaemic heart disease (IHD), myocardial infarction, hypertension, insulin-dependent diabetes and obesity was hospitalized in the Department of Electrophysiology, Silesian Medical University. He had been qualified for cardiac pacemaker implantation due to varying atrioventricular blockages of the first and second degree. The patient had experienced an attack of biliary colic about 4 months prior to admission. About 5 weeks later he developed redness and soreness around the right costal arch. Oral antibiotic therapy and topical anti-inflammatory treatment were instituted which brought local improvement.

A physical examination revealed a cutaneous fistula in the right costal arch of 5 mm in diameter with traces of purulent spillage attended with an area of reddened skin of about 6 cm in diameter which was tender. No abdominal pathology was revealed on palpation. Additional tests included: AspAT 103 U/L, AIAT 128 U/L, GGTP 208 U/L, FA 115 U/L, total bilirubin 2.2 mg%. Other blood parameters were normal.

The abscess was incised evacuating two biliary stones from the subcutaneous tissue (1 and 1.5 cm in diameter). The abscess cavity was drained. A pus culture as well as an antibiogram were performed.

Escherichia coli was cultured and target antibiotic therapy with cefuroxime and gentamicin was instituted. Computed tomography of the abdominal cavity was carried out which revealed a cirrhotic gallbladder with a cholecystocutaneous fistula (Fig. 1, 2).

The patient was qualified for a cholecystectomy. Following the insertion of a temporary pacing electrode, the patient was admitted to the Department of Surgery for operative treatment. A laparotomy by a „muscle-splitting” right upper quadrant incision was performed. An investigation of the abdominal cavity revealed a cirrhotic gallbladder with a cholecystocutaneous fistula. The main bile duct was found to be undilated. A cholecystectomy with revision of the biliary ducts was performed and no signs of biliary lithiasis were observed. A Kehr’s drain was inserted and the fistula was excised. The gallbladder was sent for histopathological analysis which showed chronic cholecystitis but no neoplastic pathology. A broad-spectrum antibiotic, as well as antithrombotic therapy was continued perioperatively. Postoperative recovery was uneventful. On the fifth post-op day the patient was transferred to the Department of Electrophysiology for a follow-up and permanent cardiac pacemaker implantation. A cholangiography through the Kehr’s drain was performed 7 weeks later. No pathological



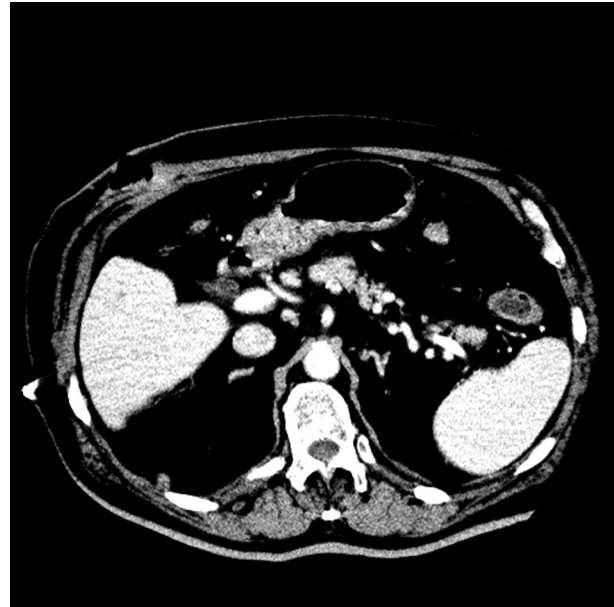
Rycina 1. Obraz TK jamy brzusznej
Figure 1. CT scan of the abdominal cavity

wycieków żółci do jamy otrzewnej, dren Kehra usunięto w planowym trybie.

Dyskusja

Samoistna przetoka pęcherzykowo-skórna jest niezwykle rzadkim powikłaniem kamicy pęcherzyka żółciowego. Courvosier oraz Henry i Orr do 1949 roku opisali 209 przypadków żółciowej przetoki zewnętrznej [2]. Przetoka żółciowa zewnętrzna jest naturalnym przebiegiem nieleczonej operacyjnie kamicy pęcherzyka żółciowego i można ją porównać do cholecystostomii [3]. W drugiej połowie XX wieku i do 2006 roku opisano już tylko około 20 przypadków [1, 4–5]. Przyczyny takiego stanu rzeczy należy upatrywać w dynamicznym rozwoju chirurgii dróg żółciowych i laparoskopowych metod operacji pęcherzyka żółciowego. Dostępność do diagnostyki obrazowej i do leczenia operacyjnego również wpłynęła na zmniejszenie liczby powikłań kamicy pęcherzyka żółciowego.

Przyczyną przetok żółciowych może być zarówno ostre, jak i przewlekłe kamicze zapalenie pęcherzyka żółciowego. Istotnym czynnikiem w powstaniu wymienionych patologii jest zamknięcie przewodu pęcherzykowego przez zaklinowany zółg czy też nowotwór. Przyczyną przetoki powłok brzusznych może również być pozostawiony w jamie otrzewnej, w czasie laparoskopowej cholecystektomii, kamień żółciowy [6]. W doniesieniach opisuje się wiele lokalizacji przetok pęcherzykowo-skrónych: w okolicy łuku żebrowego prawego, w okolicy pośladka prawego czy przetokę pęcherzykowo-pępkową [7, 8]. Należy również wspomnieć o przetokach wewnętrznych do sąsiadujących z pęcherzykiem żółciowym narządów: dwunastnicy, żołądka, okrężnicy czy do głównej drogi żółciowej (zespół Mirizzi) [9–12]. Przetoki wewnętrzne stanowią 1–2% schorzeń dróg żółciowych i występują



Rycina 2. Obraz TK jamy brzusznej
Figure 2. CT scan of the abdominal cavity

bile spillage into the peritoneal cavity was noted and the Kehr's drain was removed.

Discussion

Spontaneous cholecystocutaneous fistula is a very rare complication of gallstone disease. Courvosier and Henry C.L. and Orr T.G. Jr by 1949 described 209 cases of external biliary fistula [2]. External biliary fistula is the natural course of unoperated gallstone disease and can be compared to cholecystostomy [3]. In the second half of the 20th century (and by 2006) only approximately 20 cases had been reported [1, 4, 5]. This may have been caused by the dynamic development of biliary surgery and laparoscopic methods of gallbladder operations. The availability of imaging diagnostics and surgical treatment has also affected the decrease in the number of gallstone disease complications.

The cause of biliary fistulae can be both acute and chronic calculus cholecystitis. A significant factor in the formation of the above-mentioned pathology is an obstruction of the gallbladder duct caused by a wedged deposit or neoplasm. The cause of an abdominal fistula can also be a gall stone left in the peritoneal cavity during a laparoscopic cholecystectomy [6]. A number of locations of cholecystocutaneous fistulae have been reported: the right costal arch area, right gluteal region or cholecystoumbilical fistula [7, 8]. The following should also be mentioned: internal fistulae of the organs adjacent to the gallbladder: duodenum, stomach, colon, or to the main bile duct (Mirizzi syndrome) [9–12]. Internal fistulae are 1–2% of bile duct conditions and are much more common than external biliary fistulae. A biliary stone getting into the digestive tract is expelled naturally. Large deposits of 2–2.5 cm in diameter can get wedged in various areas of the small intestine and cause

znacznie częściej od przetok żółciowych zewnętrznych. Kamień żółciowy przedostający się do przewodu pokarmowego zostaje usunięty drogą naturalną. Duże złoże o średniej powierzchni 2–2,5 cm mogą ulec zaklinowaniu w różnych odcinkach jelita cienkiego i spowodować niedrożność przewodu pokarmowego (zespół Bernarda). Zamknięciu może również ulec światło dwunastnicy (zespół Bouvereta) czy esicy [12–13].

W diagnostyce zewnętrznych czy wewnętrznych przetok żółciowych niezbędne jest wykonanie badań obrazowych: ultrasonografia, RTG brzucha, tomografii komputerowej, fistulografii, endoskopowej cholangiopankreatografii wstecznej. W przypadku pacjenta leczonego w Klinice Chirurgii Ogólnej, Naczyniowej i Angiologii wykonano tomografię komputerową, którą dobrze zobrazowano przetokę i rozległość stanu ropnego powłok brzusznych. W sytuacji zdiagnozowania przetoki pęcherzykowo-skórnej leczeniem z wyboru jest drenaż ropnia powłok oraz cholecystektomia z wycięciem przetoki. Dopuszczalne jest wykonanie cholecystektomii laparoskopowej, jednak wiąże się ona z dużym odsetkiem konwersji [3, 14]. Pęcherzyk żółciowy należy poddać parafinowemu badaniu histopatologicznemu celem wykluczenia procesu nowotworowego.

Piśmiennictwo (References):

1. Cruz RJ Jr, Nahas J, de Figueiredo LF. Spontaneous cholecystocutaneous fistula: a rare complication of gallbladder disease. *Sao Paulo Med J.* 2006; 124: 234–236.
2. Henry CL, Orr TG. Spontaneous external biliary fistule. *Surgery* 1949; 26: 641–646.
3. Mathonnet M, Maisonnète F, Gainant A, Cubertafond P. Spontaneous cholecystocutaneous fistula: natural history of biliary cholecystitis. *Service de chirurgie digestive, endocrinienne et générale. Ann Chir.* 2002; 34: 99–100.
4. Yüceyar S, Ertürk S, Karabiçak I, Onur E, Aydoğan F. Spontaneous cholecystocutaneous fistula presenting with an abscess containing multiple gallstones: a case report. *Mt Sinai J Med.* 2005; 72: 402–404.
5. Vasanth A, Siddiqui A, O'Donnell K. Spontaneous cholecystocutaneous fistula. *South Med J.* 2004; 97: 183–185.
6. Weiler H, Grandel A. Postoperative fistula after laparoscopic cholecystectomy due to lost gallstones. *Eur J Ultrasound* 2002; 15: 61–63.
7. Nicholson T, Born MW, Garber E. Spontaneous cholecystocutaneous fistula presenting in the gluteal region. *J Clin Gastroenterol.* 1999; 28: 276–277.
8. Davies CJ, Fontaine CJ. Spontaneous cholecysto-umbilical fistula. *British Journal of Radiology* 1984; 57: 1034–1036.
9. Schoerters P, Fierens H, Colemont L, Van Moer E. A cholecystocolic fistula demonstrated by endoscopic retrograde cholangiopancreatography. *Endoscopy* 2002; 34: 595.
10. Yamashita H, Chijiwa K, Ogawa Y, Kuroki S, Tanaka M. The internal biliary fistula- Rreappraisal of incidence, type, diagnosis and management of 33 consecutive cases. *HPB Surg.* 1997; 10: 143–147.
11. Glenn F, Reed C, Grafe WR. Biliary enteric fistula. *Surg. Gynecol. Obstet.* 1981; 153: 527–531.
12. Bielecki K. Chirurgia dróg żółciowych. W: Szmidt J. (red.). *Podstawy Chirurgii. Medycyna Praktyczna, Kraków* 2003; 44: 920–922.
13. Crespo Pérez L, Angueira Lapeña T, Defarges Pons *et al.* A rare cause of gastric outlet obstruction: Bouveret's syndrome. *Gastroenterol Hepatol.* 2008; 31: 646–651.
14. Kumar SS. Laparoscopic management of a cholecystocutaneous abscess. *Am Surg.* 1998; 12: 1192–1194.

Adres do korespondencji (Address for correspondence):

lek. Jakub Żmudzki
Klinika i Katedra Chirurgii Ogólnej, Naczyniowej i Angiologii SUM
ul. Ziolowa 47, 40–635 Katowice
e-mail: j.zmudzki@poczta.fm

Praca wpłynęła do Redakcji: 15.11.2009 r.