

Trattamento per via endoscopica di un coledocoele contenente un calcolo.

Report di un caso



Ann. Ital. Chir., LXXII, 3, 2001

C. Sciumè, G. Geraci, F. Pisello, F. Li Volsi,
G. Mastrandrea*, G. Modica

Università degli Studi di Palermo
Dipartimento di Discipline Chirurgiche, Anatomiche ed
Oncologiche
Unità Operativa di Chirurgia Generale ad Indirizzo Toracico
Direttore: prof. G. Modica
*Unità Operativa di Chirurgia Generale
Direttore: prof. P. Leo

Introduzione

Il coledocoele è una dilatazione cistica e persistente (prolassata o erniata) del segmento intramurale del coledoco distale, che protrude nel lume duodenale^(1,7,14), classificata da Todani come cisti coledocica di III tipo; costituisce il 4 % circa delle lesioni cistiche delle vie biliari, con una maggiore prevalenza nelle popolazioni asiatiche (60 %). Riportiamo qui la nostra esperienza di un grosso coledocoele contenente un calcolo, trattato con successo per via endoscopica.

Caso clinico

C., di sesso maschile, 75 anni, in condizioni cliniche generali buone. All'anamnesi patologica remota, recente intervento chirurgico di chirurgia addominale vascolare maggiore.

All'anamnesi patologica prossima, reperto occasionale ecografico di formazione espansiva della colecisti con dilatazione del coledoco e del dotto di Wirsung.

Il paziente, asintomatico al ricovero, viene sottoposto a routine sieroematologica completa, che non mette in evidenza alcun dato patologico, a dosaggio radioimmunologico di marcatori tumorali (CEA e CA 19.9), anch'essi entro valori normali, e ad ecotomografia dell'addome, che mette in evidenza Wirsung dilatato (diametro mm 3.6), VBI lievemente dilatate in sede periilare, VBP dilata-

Abstract

ENDOSCOPIC TREATMENT OF CHOLEDOCHOCELE CONTAINING STONE. CASE REPORT

Objective: the authors report their experience about the treatment of choledochocoele.

Design: case report and 6-months follow up.

Setting: Operative Unit of General and Thoracic Surgery, Department of Surgical and Anatomical Disciplines, Policlinico, University of Palermo.

Interventions: ERCP + ES with complete resolution of pathology.

Result: complete resolution of symptoms; 6-months follow up negative.

Conclusions: ERCP is choice treatment of choledochocoele, only in well experienced teams.

Key words: Choledochocoele, ERCP, treatment.

tata (diametro mm 16) con sospetto di echi nel suo tratto distale, probabile leiomioma della colecisti.

Il paziente viene sottoposto anche ad esame TC dell'addome che mostra un sospetto quadro di dilatazione cistica (diametro 2.5 cm) a carico del coledoco medio e distale con riduzione di calibro della porzione ampollare, in assenza di immagini espansive cefalopancreeatiche (Fig. 2A).

Il paziente, davanti a questo quadro chimico-strumentale, viene sottoposto ad ERCP, che evidenzia una papilla di Vater tumefatta, ricoperta da mucosa soffice e liscia; all'incannulazione selettiva della VBP si assiste a "ballooning" della papilla durante l'iniezione di mezzo di contrasto iodato idrosolubile diluito al 30%, ed al suo ulteriore prolasso in duodeno ("bulging") (Fig. 2B). Alla colangiografia appare evidente la dilatazione cistica del coledoco distale precedentemente sospettata, e si reperta anche una modesta dilatazione della VBI e VBE, con al loro interno immagini di minus da riferire a calcoli (Fig. 2C). Si procede a papillosfinterotomia con coledocotomia, e si assiste all'espulsione spontanea di un calcolo ed alla fuoriuscita di sludge biliare (Fig. 2D). Si eseguono biopsie multiple in sede papillare e prepapillare che depongono per processo flogistico associato a segni di fibrosi.

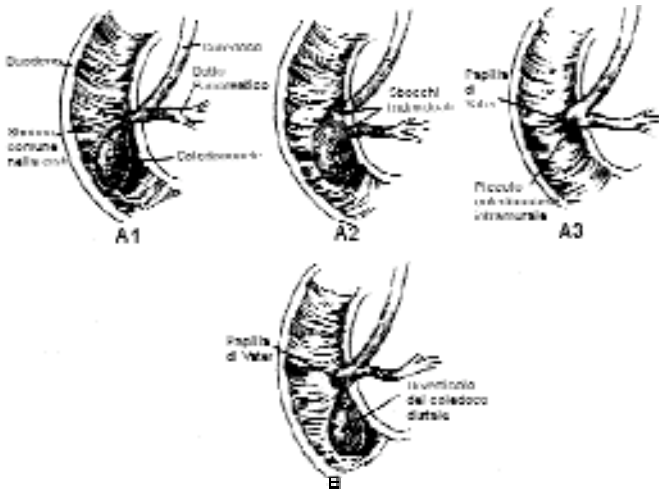


Fig. 1: Classificazione morfologica del coledocoele (cisti coledocica di tipo III).

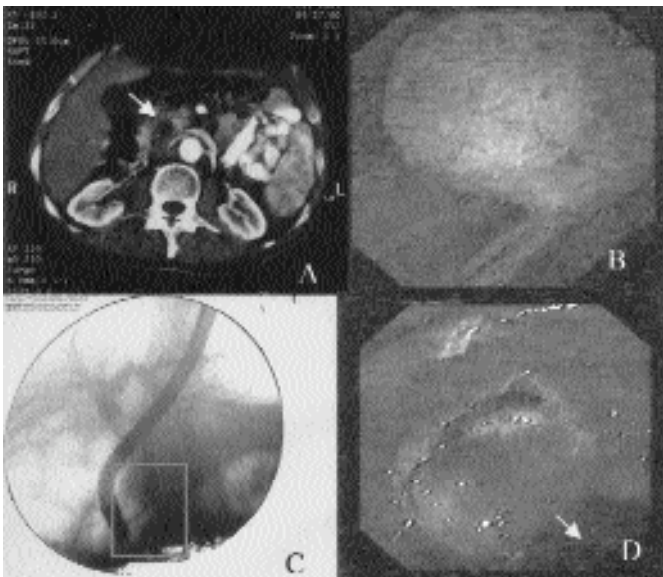


Fig. 2: A) aspetto TC del coledocoele (evidenziato dalla freccia); B) aspetto endoscopico del coledocoele; C) aspetto colangiografico del coledocoele; D) aspetto del coledocoele al termine della sfinterotomia (nella freccia il calcolo espulso).

Il paziente rientra in reparto, sotto terapia infusionale e viene monitorato; viene dimesso in seconda giornata dall'ERCP, asintomatico, con indici di funzionalità epatica normali e di colestasi negativi. Il follow-up condotto a 6 mesi risulta negativo.

Discussione

Le cisti coledociche sono estremamente frequenti nella popolazione giapponese (1/1000 ricoveri in ambiente ospedaliero) rispetto all'incidenza che hanno nella popolazione europea e statunitense (1/13000) (1). Il coledocoele, classificato da Alonso-Ley (1959) e da

Todani e Watanabe (1977) (2-4) come cisti coledocica di III tipo, è una forma rara che rappresenta il 4 % circa delle cisti congenite dei dotti biliari, si riscontra quasi esclusivamente in soggetti nella V-VI decade di vita, senza differenze di prevalenza tra i 2 sessi; risulta associato a calcolosi della VB nel 43 % dei casi e ad adenocarcinoma delle VB in una percentuale variabile dal 2 all'18 % dei casi, con aumento di incidenza all'aumentare dell'età (5).

Fino al 1998 casi vengono riportati circa 70 casi nella letteratura inglese (6).

Tra le varie classificazioni proposte, ci sembra molto valida quella morfologica, che suddivide il coledocoele in 2 grandi gruppi: nel tipo A1 c'è uno sbocco comune del dotto pancreatico e del coledoco nella cisti- nel tipo A2 gli sbocchi duttali sono separati, il tipo A3 è simile all'A2, ma il coledocoele è più piccolo e intramurale. Il tipo B, infine, è caratterizzato dal drenaggio della papilla direttamente in duodeno, con il coledocoele che comunica solo con il tratto distale del coledoco (7-8) (Fig. 1).

Alla luce dei quadro endoscopico e colangiografico, il caso da noi presentato è il tipo A1.

Le cause della formazione del coledocoele sono ancora oscure: tra le numerose teorie eziopatogenetiche proposte, quella che ancora oggi riscuote il maggior numero di consensi è quella che fa riferimento ad una anomala giunzione bilio-pancreatica, rappresentata da un canale comune di lunghezza patologica (variabile da 2 a 3.5 cm) che alla colangiografia appare inerte, poiché privo o della componente muscolare parietale o per bassa concentrazione di recettori colinergici e GABAergici nella porzione dilatata del coledoco (9-10).

Sulla base di questa classificazione, si riconoscono due tipi di "canale comune" (11) : il tipo I o P - C, in cui il dotto pancreatico sbocca nel coledoco e la dilatazione della VBP è poco pronunciata (manca lo sfintere proprio del dotto pancreatico e ciò facilita il reflusso di bile nel dotto pancreatico, con retroattivazione dei proenzimi pancreatici e conseguente pancreatite) ed il tipo II o C - P, in cui il coledoco sbocca ad angolo retto nel dotto pancreatico con la presenza di un segmento stenotico a livello del coledoco terminale, situato immediatamente a valle della dilatazione cistica ed in diretto rapporto col dotto pancreatico (long common channel). Nel passato, il coledocoele era considerato ad eziopatogenesi diversa dalle altre cisti coledociche: era stato ipotizzato che la dilatazione cistica della porzione intraduodenale del coledoco fosse una evaginazione acquisita del mucosa del coledoco terminale nel duodeno, causata da una ostruzione al deflusso biliare da un calcolo impattato, fibrosi o papillite (12).

Più recentemente è stato proposto invece un ruolo fondamentale dei disturbi di dismotilità dello sfintere di Oddi (DSO) (13-14) con la formazione di zone di iperpressione, successivo reflusso di succo pancreaticobiliare in coledoco ed episodi di colangiti ricorrenti, con con-

seguito assottigliamento della parete coledocica accompagnato da dilatazione cistica.

Nonostante i progressi compiuti dalla diagnostica per immagini (ecoendoscopia, TC ad alta risoluzione, colangio-RMN), la diagnosi di coledocoele rimane endoscopica e colangiografica, tanto che è possibile elencare dei segni specifici, non sempre tutti presenti, ma più che sufficienti, in mano ad endoscopisti esperti, per porre diagnosi di certezza: 1) papilla tumefatta (sferica o piriforme), 2) mucosa soffice e liscia al tocco dello strumento; 3) "ballooning" della papilla durante l'iniezione del mezzo di contrasto (aumento di volume durante l'iniezione); 4) "bulging" della papilla in duodeno (prolasso della papilla, secondo le sue iniziali dimensioni); immagine contrastografica rotondeggiante "cyst-like" in continuità con il coledoco con assenza di calcolo impattato in papilla. [15].

Calcoli e sludge biliare possono ritrovarsi all'interno di un coledocoele in percentuali anche elevate (fino al 40%).

Dal punto di vista clinico, il coledocoele rimane asintomatico (70 %) fino al momento della diagnosi, anche se spesso i segni ed i sintomi vengono associati ad una più comune colicosi del coledoco.

E' descritta una classica triade sintomatologica (di Seneque e Tailhefer) presente, in varie casistiche, in percentuale variabile dal 13 al 40% dei casi): ittero, dolore addominale, massa palpabile.

Segni più rari, comunque aspecifici, sono vomito, febbre e complicanze specifiche della cisti (pancreatite nel 19 % dei casi, colangite nel 20 % e, più raramente, peritonite ed ascessi epatici).

Cirrosi biliare e degenerazione neoplastica attraverso tappe di displasia epiteliale o metaplasia epidermoide o intestinale (flogosi cronica indotta da reflusso pancreatico, stasi biliare e presenza di calcoli, tutti fanno aumentare da 20 ad 80 volte l'incidenza di neoplasia e ne anticipano la comparsa di circa 20 anni rispetto alla popolazione sana) del coledocoele sono sequele documentate ma estremamente rare (1-3%).

Conclusioni

Noi crediamo che la diagnosi di coledocoele sia fondamentalmente colangiografica e duodenoscopica in corso di ERCP; benché la diagnostica per immagini non sempre è in grado di fornire diagnosi di certezza, risulta comunque utile un approccio integrato con un esame ecoendoscopico (studio delle pareti della verosimile cisti e del suo contenuto), una TC dell'addome cMDC e, nel caso in cui esistessero altri dubbi, una colangio-RMN^[16]. Il trattamento delle cisti coledociche è, generalmente, chirurgico, con l'eccezione del coledocoele che può essere soddisfacentemente trattato endoscopicamente: in tal modo, si unisce spesso al momento diagnostico il momento terapeutico, si riducono i rischi intrinseci ad

una laparotomia, si annulla l'incidenza di complicanze tardive dopo ricostruzione bilio-digestiva (stenosi, calcolosi residua, deiscenza) e si riducono sensibilmente i tempi di degenza ospedaliera.

Il trattamento elettivo, a nostro modo di vedere, consiste in una ampia papillosfinterotomia endoscopica con messa a piatto delle pareti della cisti e visualizzazione diretta del bassofondo coledocico; è consigliabile eseguire sempre una esplorazione della VB con cestello di Dormia e biopsie multiple in sede papillare e prepapillare, in considerazione del rischio di degenerazione neoplastica [5].

In letteratura sono stati riportati di recente risultati soddisfacenti ricorrendo prima allo svuotamento ed aspirazione della cisti per via endoscopica (aghi da scleroterapia) con successiva decapitazione della cisti con un'ansa da polipectomia [17].

È fuori di dubbio che tali manovre endoscopiche devono sempre essere eseguite da personale esperto e soltanto dopo una buona curva di apprendimento.

Riassunto

Obiettivo: gli autori riportano la loro esperienza nel trattamento di un coledocoele (cisti coledocica di III tipo). **Disegno sperimentale:** report di un caso con follow up a 6 mesi.

Ambiente: Unità Operativa di Chirurgia Generale ad Indirizzo Toracico. Dipartimento di Discipline Chirurgiche ed Anatomiche. Policlinico, Università di Palermo. **Intervento:** Il paziente è stato sottoposto ad ERCP + SE, con trattamento risolutivo della patologia.

Risultati: risoluzione completa della sintomatologia; follow up a 6 mesi negativo.

Conclusioni: il trattamento di scelta dei coledocoele è, a nostro avviso, di tipo endoscopico, ma solo se eseguito da endoscopisti esperti.

Parole chiave: coledocoele; ERCP; trattamento.

Bibliografia

- 1) Howard E.R.: *Choledocal cyst*. In: Schwartz SE, Ellis H., eds. *Maingot's abdominal operations*, 9th ed. East Norwalk, CN: Appleton & Lange, 2:1365-79, 1989.
- 2) Alonso-Lej F., Rever W. Jr, Pessagno D.: *Congenital choledochal cyst with a report of 2 and analysis of 94 cases*. *Int Abstr Surg*, 1081-30, 1959.
- 3) Todani T., Watanabe Y., Narusue M., et al.: *Congenital bile duct cysts*. *Am J Surg*, 134:263-9, 1977.
- 4) Lenriot J.P., Gigot J.F., Segol P., et al.: *Bile duct cysts in adults. A multi-institutional retrospective study*. *Ann Surg*, 228(2):159-167, 1998.
- 5) Donald J.J., Coral A., Lees W.R.: *Choledochocoele complicated by carcinoma*. *Clin Radiol*, 40:101-3, 1989.
- 6) Sarris G.E., Tsang D.: *Choledochocoele: Case report, literature*

review, and a proposed classification. *Surgery*, 105:408-14, 1989.

7) Chi-Loo Lu S., Kaplowitz N.: *Diseases of biliary tree*. In: Yamada T., editor. *Textbook of Gastroenterology*. Philadelphia, JB Lippincott; 1995.

8) *Gastrointest Endosc*, 47:471-8, 1998.

9) Babbit D.P.: *Congenital choledochal cysts: new etiological concept based on anomalous relationships of common bile duct and pancreatic bulb*. *Ann Radiol*, 12:231-240, 1969.

10) Babbit D.P., Starshak P., Clemett A.: *Choledochal cyst- a concept of etiology*. *Am J Roentgenol*, 119:57-62, 1973.

11) Kimura K., Olito M., Ono T., et al.: *Congenital cystic dilatation of the common bile duct: relationship to anomalous pancreaticobiliary ductal union*. *Am J Roentgenol*, 128:571-77, 1977.

12) Sterling J.A.: *Diverticula in the terminal portion of the common bile duct*. *Am J Pathol*, 25:325-35, 1949.

13) Venu R.P., Geenen J.E., Flogan W.J., et al.: *Role of ERCP in the diagnosis and treatment of choledochoceles*. *Gastroent*, 87:1144-9, 1984.

14) Kagiya S., Okazaki K., Yamamoto Y., et al.: *Anatomic variants of choledochoceles and manometric measurements of pressure in the celiac and the orifice zone*. *Am J Gastroent*, 82:641-9, 1987.

15) Kim NUI, Myung S.J., Lee S.K., et al.: *Ballooning of the papilla during contrast injection: the semaphore of a choledochocoele*. *Gastrointest Endosc*, 48(3):137-9, 1998.

16) Adamek IHE, Schilling D., Weitz M., Riemann J.F.: *Choledochocoele imaged with Magnetic Resonance Cholangiography*. *Am J Gastroent*, 95(4):1082-1083, 2000.

17) Chatila P., Andersen D.K., Topazian M.: *Endoscopic resection of choledochocoele*. *Gastrointest Endosc*, 50(4), 1999.

Commento

Commentary

Prof. Pietro LEO
Professore Ordinario di Chirurgia Generale
Università di PALERMO

Il case report di C. Sciumè e Coll. si inserisce nell'ampio capitolo delle cisti del coledoco. In considerazione della rarità della patologia in esame, risalta il dato che il paziente era del tutto asintomatico ed anziano, in contraddizione con quanto riporta la letteratura, e soltanto un controllo ecografico occasionale effettuato per altra patologia aveva fatto evidenziare la presenza di una calcolosi sincrona della colecisti e del coledoco con dilatazione della VBP e del dotto di Wirsung. Condivido il comportamento degli autori nel trattamento da loro eseguito e nell'aver praticato i campionamenti bioptici multipli, poiché come è noto, in una percentuale dal 4 al 10 % tale lesione può degenerare verso una neoplasia delle vie biliari.

La successiva TC ha confermato il reperto patologico, evidenziato da una dilatazione cistica a carico del coledoco medio-basso in assenza di immagini espansive cefalo-pancreeatiche.

Sono d'accordo inoltre che tale patologia deve essere trattata da personale esperto, poiché i rischi della tecnica sono più frequenti all'inizio della curva di apprendimento.

Il follow up a 6 mesi è risultato rassicurante, ma è auspicabile un follow up a lungo termine per la reale valutazione di questa patologia.

The case report of C. Sciumè and Coll. inserts in the ample chapter of the cysts of the choledochus. In consideration of the rarity of pathology. Vs important note that the patient was entirely asymptomatic and elderly, in contradiction with the literature, and only a casual echotomography visualized the presence of a synchronous lityasis of the gallbladder and choledochus with dilated CBD and Wirsung.

I'm agree with the authors in the treatment performed and in the bioptic sampling, since like it is known, in a percentage from 4 at 10 % such lesion can degenerate in a biliary neoplasm.

CT confirmed the finding, in absence of expansive mass of the head of the pancreas.

I'm agree besides that this pathology must be treated by well experienced endoscopic team, since the risks of the technique are more frequent to the beginning of the curve of learning.

The follow up to 6 months is reassuring result, but a follow up is desirable for a long time term for the real evaluation of this pathology.

Autore corrispondente:

Dott. Carmelo SCIUMÉ
Unità Operativa di Chirurgia Generale ad Indirizzo Toracico
dell'Università di Palermo
Via del Vespro, 5
90127 - PALERMO