

Bouveretov syndróm – najraritnejšia manifestácia cholecystolithiázy, kazuistika

MUDr. Miroslav Joštiak, MUDr. Ivan Kováč, PhD. doc. MUDr. Jozef Belák, PhD. MUDr. Marián Kudláč

II. chirurgická klinika UPJŠ LF a UN L.Pasteura, Košice, SR

Bouveretov syndróm je najraritnejšou komplikáciou cholecystolithiázy. Ide o obštrukciu dvanástnika konkrementom, ktorý tam vycestoval najčastejšie cestou cholecystoduodenálnej fistuly, s následným vysokým ileom. Typicky je to ochorenie staršej populácie, oveľa častejšie žien než mužov, s dlhodobou anamnézou cholecystolithiázy. Klinické príznaky bývajú často necharakteristické a vágne, ale často môže byť stav vážny v dôsledku dehydratácie, minerálového rozvratu a šoku. V diagnostike hrá najdôležitejšiu úlohu gastroscopické a CT vyšetrenie, prípadne magnetická rezonancia. Endoskopické riešenie je prvou voľbou liečby, pri neúspechu nasleduje chirurgická liečba. V našej kazuistike je popísaný prípad pacientky so známou cholecystolithiázou prezentujúcej sa obrazom gastric outlet syndrómu, neskôr diagnostikovaným ako Bouveretov syndróm. Po neúspechu endoskopického riešenia sa podrobila operácii s extrakciou konkrementu bez cholecystektómie a uzáveru fistuly. Až na infekciu rany bola prepustená v dobrom stave domov 9 dní po operácii.

Kľúčové slová: cholecystolithiáza, obštrukcia duodena, endoskopická liečba, duodenotómia, extrakcia konkrementu

Bouveret's syndrome – the most uncommon presentation of cholecystolithiasis, case report

Bouveret syndrome is the most rare complication of cholecystolithiasis. This is an obstruction of the duodenum by a gallstone, which was excreted there most often via the cholecystoduodenal fistula, followed by a high ileus. Typically, this is the disease of an older population, more often women than men, with a long-term history of cholecystolithiasis. Clinical symptoms are often uncharacteristic and vague, but can often be serious due to dehydration, mineral breakdown and shock. The most important role in diagnosing plays gastroscopy with CT or MRI. The endoscopic extraction is the first choice of treatment, followed by surgical treatment in case of failure. In our case report, a case of a patient with a known cholecystolithiasis presenting with the gastric outlet syndrome, later diagnosed as Bouveret syndrome, is described. After failure of the endoscopic extraction, she underwent an operative extraction of stone without a cholecystectomy and fistula closure, and was released to a home after 9 days after surgery.

Key words: cholecystolithiasis, duodenal obstruction, endoscopic treatment, duodenotomy, stone extraction

Slov. chir., 2020;17(3):83-85

Úvod

Biliárny ileus patrí medzi menej časté príčiny mechanického ileu, je jeho príčinou v 1-4 % prípadov, vo vyššom veku nad 65 rokov však toto percento stúpa až na 25 % (1). Kameň zo žlčníka najčastejšie vycestuje cestou cholecystoduodenálnej fistuly (60 %), menej časté sú cholecystokolická (17 %), cholecystogastrická (5 %) a choledochoduodenálna (5 %) fistula (2). Miesto obštrukcie je najčastejšie v terminálnom ileu (50-70 %), pretože tam je tenké črevo najužšie. Menej častými lokalizáciami sú jejunum (9 %), hrubé črevo (4 %), konečník (4 %) a duodenum (1-3 %). Na rozdiel od biliárneho ileu tenkého čreva, keď kameň putuje distálne, pri obštrukcii duodena putuje proximálne. Obštrukcia duodena kameňom bola popísaná v roku 1770 Beaussierom a následne pomenovaná podľa Bouvereta, francúzskeho lekára, ktorý opísal v roku 1986 dva prípady (3).

Diagnóza môže byť náročná vzhľadom na často subtílny a necharakteristický prejav. Typickým pacientom je staršia žena s viacerými komorbiditami a anamnézou cholecystolithiázy, prezentujúca sa pod obrazom vysokého ileózneho stavu. Až 85 % pacientov sa prezentuje nauzeou a zvracaním, 70 % bolesťami brucha. U 15 % prípadov môže byť prvým príznakom hemateméza (4,5).

V diagnostike je nápomocné USG vyšetrenie brucha a RTG snímka, kde môže byť prítomná Rieglerova triáda (ileus, aerobília, viditeľný kameň mimo žlčníka). CT brucha alebo MRCP nám zvyčajne definitívne potvrdí diagnózu (2).

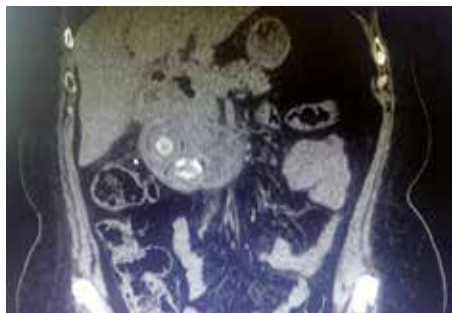
Endoskopická liečba s prípadnou litotrypsiou je metódou prvej voľby liečby, v prípade neúspechu je nutné operačné riešenie (6).

Kazuistika

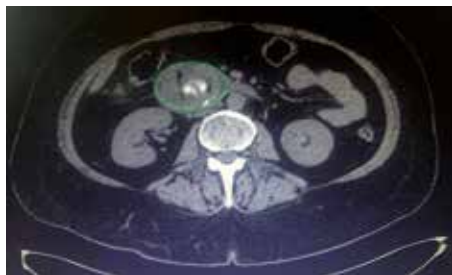
Do ambulancie II. chirurgickej kliniky UNLP a UPJŠ-LF bola zo spá-

dovej chirurgickej ambulancie odoslaná 58-ročná pacientka s anamnézou symptomatickej cholecystolithiázy. V predchorobí neudávala okrem cholecystolithiázy a autohavárie žiadne iné ťažkosti, prekonala jednu operáciu – incíziu kolekcie v stehne. Bola vyšetrená pre 3 týždne trvajúce bolesti brucha s nauzeou a vomitom po jedle, pričom posledné tri dni netolerovala už ani tekutiny. Pri vyšetrení bola stabilizovaná, kardiopulmonálne kompenzovaná, anikterická a eupnoická. Brucho bolo nad nivo hrudníka pri obezite, palpačne citlivé pod pravým rebrovým oblúkom a v epigastriu, bez známok peritoneálneho dráždenia. Ultrazvukové vyšetrenie brucha dokázalo cholecystolithiázu, chronickú cholecystitídu a pankreatopatiu, zhrubnutú stenu žalúdka. Vzhľadom na tento nález bolo doplnené gastrofibroskopické vyšetrenie s nálezom zmnoženého žalúdočného obsahu s prímiesou žlče. Pylorus bol trvalo otvorený a v D2

Obrázok 1: CT obraz dvoch objemných cholelitov v oblasti duodena



Obrázok 2: Objemný konkrement v oblasti D2 duodena



časti dvanástnika bol nájdený zakliesnený žľčníkový kameň.

Vzhľadom na uvedené bola pacientka hospitalizovaná na II. chirurgickej klinike UNLP a UPJŠ-LF. Pacientka bola naďalej v stabilnom stave, afebrilná, kardiopulmonálne stabilizovaná, bez známok ikteru alebo cyanózy. Brušný nález sa nemenil, brucho bolo naďalej voľne, priehmatné, citlivé v epigastriu a pod pravým rebrovým oblúkom, bez známok peritoneálneho dráždenia. Znamky dehydratácie neboli u pacientky prítomné aj napriek pomerne dlhej anamnéze ťažkostí. V laboratórnom obraze bola prítomná len minimálna elevácia GMT na 1,22 ukat/l, ostatné hepatálne testy boli v norme, taktiež bilirubín a pankreatické enzýmy, mineralogram bez odchýlok, renálne funkcie v norme. CRP menej než 5. V krvnom obraze bez prítomnosti leukocytózy, prítomná bola normálna hladina trombocytov aj zrážacích faktorov.

Pacientke bola nasadená komplexná infúzna liečba a PPI liečba. Opakovane bolo indikované a realizované gastroscopické vyšetrenie, kde bol prítomný opäť stagnačný obsah v žalúdku, verifikovaná fistula v oblasti duodena a konkrement prekrytý obsahom. Avšak vzhľadom na vysoké riziko perforácie duodena bolo endoskopické vyšetrenie ukončené. Predoperačne bolo doplnené

Obrázok 3: Konkrement rozmerov 7x4cm s dvomi CT kontrastnými jadrami



CT vyšetrenie brucha s kontrastom, kde boli popísané dva objemné cholelity v D2 časti duodena, známky cholecystitídy, bez známok cholecystolithiázy a patologická duodenobiliárna komunikácia (obrázok 1,2). Prítomná mierna dilatácia intrahepatálnych žľčovodov, známky aerobílie. Vzhľadom na nemožnosť endoskopickej terapie bola po nevyhnutnej predoperačnej príprave indikovaná operačná intervencia.

Dutina brušná bola otvorená subkostálnym rezom. Prítomná bola subakútne inflamovaná cholecysta v zrástoch s okolím. Palpačne v oblasti D2 bola hmatná veľká rezistencia. Následne bola vykonaná revízia dutiny brušnej palpačne a makroskopicky. Tenké črevo bolo bez dilatácie a bez hmatných konkrémentov. Ostatný nález bol bez patológie. Po kocherizácii duodena boli na prednú stenu naložené držiace stehy a vykonaná pozdĺžna duodenotómia nad miestom maximálneho vykľutia. Extrahovaný bol cholelit s veľkosťou 7x4 cm (obrázok 3) – vzhľadom na CT nález bola predpokladaná prítomnosť dvoch CT kontrastných jadier. Sliznica duodena bola bez patologického nálezu. Duodenum bolo uzatvorené priečne v dvoch vrstvách. Vzhľadom na výrazne nepriehľadnú a inflamovanú oblasť Calotovho trojuholníka a palpačne prázdny žľčník nebola vykonaná cholecystektómia ani resekcia fistuly. Subhepatálne bol uložený drén a dutina brušná bola uzavretá v anatomických vrstvách.

Po operačnom výkone bola pacientka preložená na JIS II. chirurgickej kliniky UNLP a UPJŠ-LF, kde bola v priebehu hospitalizácie stabilizovaná a po dvoch dňoch preložená bez komplikácií na oddelenie. Ďalší priebeh hospitalizácie bol komplikovaný purulentnou secernáciou z operačnej rany. Kožné stehy boli preto odstránené a rana denne preväzovaná. Ďalší priebeh bol už bez komplikácií, pacientka bola re-alimentovaná, bez ťažkostí. Deviaty deň od operácie bola pacientka prepustená v celkovo dobrom a stabilizovanom stave s odporúčením pokračovania prevázov rany.

Diskusia

Bouveretov syndróm je najraritnejšou manifestáciou komplikovanej cholecystolithiázy, pričom postihuje menej než 0,5 % pacientov s cholecystolithiázou a predstavuje 1-3 % biliárnych ileov (4). Medzi rizikové faktory patrí vysoký vek (nad 60 rokov), ženské pohlavie, dlhodobá symptomatická cholecystolithiáza a veľkosť kameňa nad 2 cm. Ženy sú postihnuté až šesťkrát viac než muži (3). Práve prítomnosť veľkých žľčníkových kameňov po dlhý čas umožňuje vytvorenie cholecystogastrickej alebo cholecystoduodenálnej fistuly, ktorá umožňuje pasáž kameňov (7).

Mortalita a morbidita tohto ochorenia je najmä pre často vysoký vek a komorbiditu vysoká (8). Mortalita operačnej liečby až 25 % viedla k začatiu

využívania endoskopickej terapie ako prvej možnosti voľby. Existuje viacero endoskopických techník extrakcie kameňov. Prvou možnosťou je jednoduchá extrakcia pomocou košíka alebo polypektomickej slučky. Táto technika je využiteľná najmä pre menšie kamene, pri väčších je nutné kameň mechanicky rozdrobiť na menšie časti. To je možné vykonať pomocou litotrypsie. Mechanická litotrypsia využíva kliešte, slučku alebo mechanický litotryptor. Elektrohydraulická litotrypsia využíva na rozdrvenie kameňa prúd vody a prináša so sebou vyššie riziko poškodenia okolitého tkaniva. Laserová litotrypsia využíva rôzne variácie YAG laseru, ktorý má výhodu presného cielenia energie len na kameň s obmedzením poranení okolitých štruktúr. Tieto popísané metódy patria medzi intrakorporálne, popísaná bola však aj metóda extrakorporálnej litotrypsie pomocou tlakovej vlny (ESWL – extracorporeal shock-wave litotripsy). Nie je však taká účinná, vyžaduje aj viacero sedení alebo kombináciu napríklad s laserovou litotrypsiou. Je nanajvýš potrebné po litotrypsii extrahovať všetky úlomky, aby následne nevyvolali sekundárny biliárny ileus tenkého čreva (4). Celkovo je úspešnosť endoskopickej liečby nízka, udáva sa asi 9 %, avšak vzhľadom na skladbu pacientov je to správna prvá voľba (8).

Chirurgická liečba je najčastejším spôsobom manažmentu pacienta s Bouveretovým syndrómom, či už z dôvodu neúspechu endoskopickej liečby alebo pre jej nedostupnosť. Základom výkonu je odstránenie obštrukcie. Pri možnosti vymasírovania kameňa do žalúdka sa vykonáva gastrotómia a extrakcia kameňa cez žalúdok. Je možné vykonať priamo duodenotómiu nad

kameňom, ak je veľký a fixovaný. Pri lokalizácii v distálnej časti duodena alebo proximálnom jejune je možná extrakcia cez jejunotómiu za ligamentum Treitz. Tieto výkony je možné vykonať aj laparoskopicky. Pri operácii je nutné vylúčiť iné kamene v tenkom čreve. Duodenum môže byť ošetrované primárne alebo môže byť vykonaná duodenojejunoanastomóza (3,4). Bola popísaná aj retroperitoneálna perforácia duodena s úspešnou primárnou sutúrou s omentoplastikou po extrakcii konkrementu (7). O nutnosti cholecystektómie a uzatvorení fistuly sa naďalej vedú diskusie. Hlavné faktory hovoriace v prospech tejto možnosti je možnosť rekurencie ileu ak sú ponechané reziduálne konkrementy, riziko cholangitídy a vyššie riziko karcinómu žľzníka. Intraoperačný nález gangrenózneho žľzníka alebo reziduálne konkrementy môžu vyžadovať cholecystektómiu s uzavretím fistuly. Za vykonanie jednoduchej operácie len s odstránením prekážky však hovorí kratší čas operácie s menším počtom komplikácií (včasná pooperačná morbidita 23 % pri jednoduchom výkone oproti 60 % v prípade pridania cholecystektómie s uzavretím fistuly). V literatúre teda panuje skôr konsenzus, že chirurgickou metódou voľby je jednoduchá extrakcia konkrementu a cholecystektómia s uzavretím fistuly by mala byť vykonaná len u stabilných pacientov s akútnou alebo gangrenóznou cholecystitídou a/alebo reziduálnymi kameňmi (9).

Záver

Hoci je Bouveretov syndróm raritou diagnózou, predstavuje pre chirurga výzvu už pri diagnostike ochorenia, keď je nutné na túto diagnózu myslieť, najmä u pacientov s typickou symptomatológiou. Ďalej je dôležité určiť individuálny

terapeutický postup šitý na mieru pre konkrétneho pacienta. Záleží najmä od celkového stavu pacienta pri prijatí a od komorbidít. Endoskopická liečba by mala byť prvou voľbou, ak je dostupný skúsený endoskopista a adekvátne prístrojové vybavenie. Inak je indikovaná chirurgická liečba, pri ktorej je prioritou odstránenie prekážky v duodene s vylúčením distálnej obštrukcie. Cholecystektómia s uzavretím fistuly by mala byť vykonaná individuálne s prihliadnutím na lokálny intraoperačný nález a celkový stav pacienta.

Literatúra

1. Dudášová V, Minčík I, Záh J, Honko M. Biliárny ileus – možná komplikácia cholestolitiázy. Gastroentero. prax. 2013;12(4):185-187.
2. Algin O, et al. Bouveret syndrome: evaluation with multidetector computed tomography and contrast-enhanced magnetic resonance cholangiopancreatography. Ulus Travma Acil Cerrahi Derg. 2013;19(4):375-379.
3. Mishra A, Jain A, Lal P, Hadke NS. Bouveret syndrome: A case report and review. J Gastroint Dig Syst. 2013;3(3):133.
4. Caldwell KM, et al. Bouveret syndrome: current management strategies. Clinical and Experimental Gastroenterology. 2018;11:69-75.
5. Radoňák J, et al. Opakované akútne krvácanie do duodena ako príznak začínajúceho Bouveretovho syndrómu. Rozh. Chir. 2000;79(6):228-230.
6. Buzová K, Radoňák J. Bouveretov syndróm ako príčina ileózneho stavu biliárneho pôvodu – kazuistika. Slov. chir. 2017;14(4):124-126.
7. Vieiro-Medina MV, et al. First case reported of Bouveret's syndrome associated to duodenal and biliary perforation to retroperitoneum. Rev Esp Enferm Dig. 2016;108(6):376-378.
8. Hasan S, et al. Successful endoscopic treatment of Bouveret syndrome in a patient with choledochoduodenal fistula complicating duodenal ulcer. Case Reports in Gastrointestinal Medicine. 2017.
9. Doko M, et al. Comparison of surgical treatments of gallstone ileus: Preliminary report. World J. Surg. 2003;27:400-404.

MUDr. Miroslav Joštiak

II. chirurgická klinika UPJŠ LF a UN L. Pasteura
Rastislavova 43, 041 90 Košice
miroslav.jostiak@gmail.com