

Presentación de caso

Tratamiento quirúrgico de un coledococelo tipo B grande en un adulto

Surgical Management of a Large Type B Choledochocelo in an Adult

Orlando Zamora Santana^{1*} [http:// orcid.org/0000-0001-6069-070X](http://orcid.org/0000-0001-6069-070X)

Miguel Licea Videaux¹ [http:// orcid.org/0000-0002-7964-2967](http://orcid.org/0000-0002-7964-2967)

Ilionis Escobar Rojas¹ <http://orcid.org/0000-0003-3669-2507>

Iván Ulises Palacios Morejón¹ [http:// orcid.org/0000-0001-9306-6209](http://orcid.org/0000-0001-9306-6209)

Miguel Ángel Rodríguez Allende¹ <http://orcid.org/0000-0003-2015-9812>

¹Hospital Clínico Quirúrgico "Hermanos Ameijeiras". La Habana, Cuba.

*Autor para la correspondencia: orsantana@infomed.sld.cu

RESUMEN

Introducción: El coledococelo es una variedad de quiste coledociano muy poco frecuente. Es la dilatación congénita de la porción distal, intramural, de la vía biliar. Raro en el adulto, afecta cuatro veces más a mujeres que a hombres. La teoría más aceptada en su génesis lo relaciona con una unión anómala entre los conductos biliares y pancreáticos que provoca reflujo de jugo pancreático hacia la vía biliar. Su tratamiento es en la actualidad endoscópico en la mayoría de los pacientes.

Objetivo: Presentar la solución quirúrgica dada a un adulto con diagnóstico de coledococelo tipo B grande, imposible de tratar por vía endoscópica.

Presentación del caso: Fémica de 41 años, previamente colecistectomizada por litiasis vesicular, con dolor abdominal en epigastrio e hipocondrio derecho de meses de evolución. Los estudios de imagen demostraron una dilatación sacular grande y con litos, protruyente en la segunda-tercera porción del duodeno, con sospecha de coledococelo. Se realizó resección quirúrgica a través de duodenotomía anterior, apertura de la mucosa de cara posterior duodenal y resección del coledococelo. Se canuló la vía biliar extra hepática a través de coledocotomía para proteger la integridad de la vía biliar distal. La paciente evolucionó sin complicaciones.

Conclusiones: En los coledococelos que no pueden ser tratados por vía endoscópica, especialmente los grandes y con litos, la opción de tratamiento quirúrgico es efectiva y segura, a la vez que la integridad de la vía biliar distal es reservada.

Palabras clave: quiste de colédoco; coledococele; duodenotomía; resección quirúrgica de coledococele.

ABSTRACT

Introduction: Choledococele is a very rare variety of choledochal cyst. It is the congenital dilation of the distal, intramural section of the bile duct. Being rare in adults, it affects four times more women than men. Regarding its genesis, the most widely accepted theory relates it to an anomalous union between the bile and pancreatic ducts that causes pancreatic juice reflux into the bile duct. Its management is currently endoscopic in most patients.

Objective: To present the surgical solution given to an adult diagnosed with a large type B choledococele impossible to be treated endoscopically.

Case presentation: 41-year-old female, previously cholecystectomized for vesicular lithiasis, with abdominal pain in the epigastrium and right hypochondrium of months of evolution. Imaging studies showed a large saccular dilatation with stones, appearing in the second-third duodenal section, with suspicion of choledococele. Surgical resection was performed by means of anterior duodenotomy, opening the mucosa of the posterior duodenal wall and through choledococele resection. The extrahepatic bile duct was cannulated through Choledochotomy, in order to protect the integrity of the distal bile duct. The patient evolved without complications.

Conclusions: In choledococele that cannot be treated endoscopically, especially large and with stones, the surgical management option is effective and safe, while the integrity of the distal bile duct is preserved.

Keywords: choledocus cyst; choledococele; duodenotomy; surgical resection of choledococele.

Entregado: 26/12/2019

Aprobado: 06/02/2020

Introducción

El quiste del colédoco es una entidad rara que afecta cualquier parte del árbol biliar intra y extrahepático. Descrita por *Váter y Ezler* en 1793, se le atribuye el primer caso operado a *Douglas* en 1852.⁽¹⁾ Aproximadamente, el 80 % son diagnosticados en la infancia y la adolescencia, y el 38 % corresponden a menores de dos años. Tienen una incidencia de cerca de 1 en 100 000 individuos.⁽²⁾ Es mayor en países asiáticos y más frecuentes en mujeres que en hombres en una relación de 3,5:1.⁽¹⁾

De etiología desconocida, en la actualidad ha cobrado seguidores la teoría que plantea una unión anómala de los conductos biliares y pancreáticos que forma un conducto único y largo. Este último, provoca reflujo de jugo pancreático hacia la vía biliar con activación de las enzimas pancreáticas, inflamación, denudación epitelial, adelgazamiento de la pared del conducto y evolución hacia la formación de quistes.⁽³⁾

Otras teorías que intentan explicar la génesis de esta enfermedad son una disfunción del esfínter de Oddi,⁽⁴⁾ escasez congénita de células ganglionares en el segmento distal del conducto biliar,⁽¹⁾ y en el caso del coledococelo, la obstrucción de la ampolla de Vater.⁽⁵⁾ Por ser infrecuente en adultos, y por la solución quirúrgica que necesitó, se presenta el caso clínico de una paciente con diagnóstico de coledococelo tipo B grande, donde fue imposible la solución endoscópica, la más utilizada hoy en este tipo de lesiones.

Presentación del caso

Paciente femenina de 41 años.

Antecedentes patológicos: I

Litiasis vesicular sintomática (2017)

Hábitos tóxicos: no refiere.

Operaciones: Colectomía laparoscópica dos años atrás (2017).

Historia de enfermedad actual: Episodios de dolor localizado hacia flanco e hipocondrio derecho en los últimos 7 meses, los cuales empeoraron con la ingestión de alimentos. Niega episodios de íctero.

Al examen físico: Cicatrices quirúrgicas de colectomía laparoscópica. No íctero, ni masa abdominal palpable.

Complementarios:

- Hemograma y hemoquímica normales.

- Tomografía abdominal (TC) contrastada: asa intestinal dilatada en flanco derecho con estructura heterogénea de 8x5 cms.

Impresión diagnóstica: divertículo gigante.

- Estudio contrastado del tracto digestivo superior (Fig. 1A). Defecto de llenado de forma ovoide y contornos bien definidos de 9x6cms en 2da-3ra porción de duodeno: ¿Lesión de pared duodenal? ¿Duplicidad intestinal? ¿Coledococelo?

-Colangiografía por resonancia magnética: Conducto pancreático y vía biliar principal finalizan de forma independiente en duodeno. Dilatación sacular de colédoco terminal de 8x5 cms con cálculos en su interior que pudiera estar en relación con un coledococelo (Fig. 1B).

-Colangiografía endoscópica (CPRE): La luz de la segunda y parte de tercera porciones de duodeno se encuentran ocupadas y muy deformadas por una

lesión extrínseca grande que impide, tras varios intentos, canular la vía biliar. No se considera factible ninguna maniobra endoscópica.

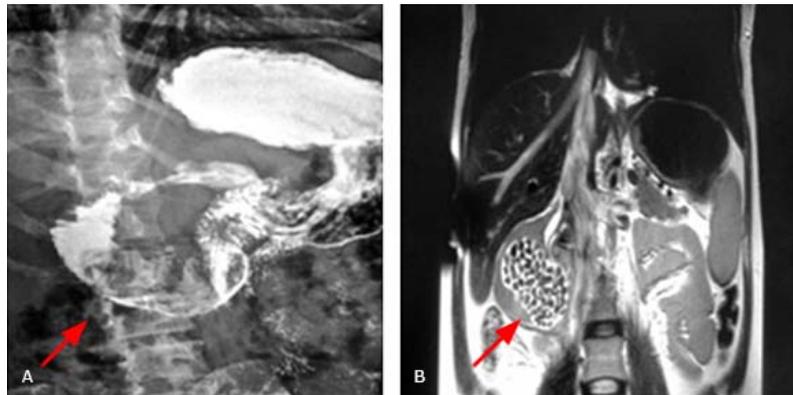


Fig. 1A. Serie contrastada gastroduodenal: defecto de lleno en segunda-tercera porción duodenal. B. Colangiografía por resonancia magnética, corte coronal T2: dilatación sacular de colédoco terminal con cálculos en su interior

Se procedió a laparotomía subcostal derecha, con hallazgo de tumor que abombaba hacia la luz de 2da y 3ra porciones del duodeno de unos 10 x 6 cms y de consistencia quística con múltiples y pequeños cálculos en su interior (Fig. 2A). Se realizó maniobra de Kocher amplia seguida de coledocotomía para identificar trayecto y desembocadura de la vía biliar principal estrechamente relacionada con la masa quística. En la exploración instrumental de la vía biliar no se comprobaron litos ni obstáculo distal, con paso del explorador al duodeno sin dificultad. Se realizó duodenotomía anterior en la segunda porción del duodeno haciéndose con ello evidente el coledococoele como una lesión intramural y submucosa que protruía hacia cara posterior de la luz duodenal.

El área papilar, por donde se exteriorizó el explorador progresado a través de coledocotomía, se mostraba adyacente al quiste con apariencia abombada y deformada. Se realizó la apertura de la mucosa sobre el quiste, que se disecó del plano mucoso en toda su circunferencia hasta identificar un cuello estrecho que desembocaba en la vía biliar principal a un centímetro del orificio papilar (Fig. 2B). Se resecó el quiste con el cierre de su cuello y se suturó la apertura de mucosa de la cara posterior y la duodenotomía anterior. Se procedió a la coledocostomía con sonda en T y cierre del abdomen. La biopsia por congelación de la pared quística fue negativa de células neoplásicas. Se aplicó en postoperatorio el protocolo institucional de recuperación acelerada (ERAS), y fue egresada al 4to día sin complicaciones. Se realizó colangiografía por sonda en T al séptimo día de posoperatorio que resultó normal. El resultado de la anatomía patológica fue colodococoele con coledocolitiasis.

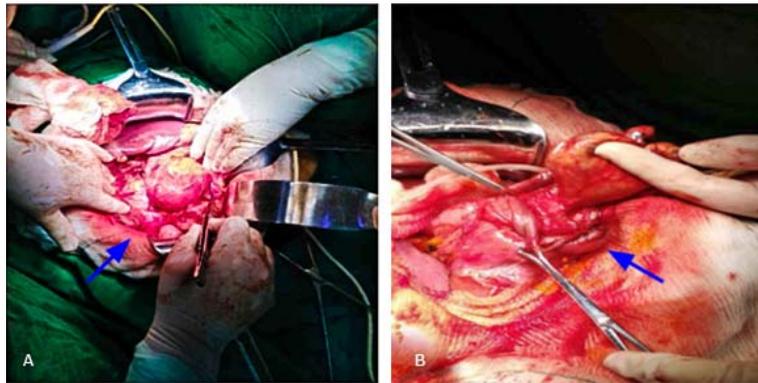


Fig. 2A. Masa que ocupa luz duodenal. B. Coledococoele expuesto hasta su cuello, una vez realizada la duodenotomía anterior y la disección de la mucosa de la pared posterior que lo cubre. La sonda canula la vía biliar para identificar su desembocadura.

La presentación de este caso clínico se llevó a cabo con el consentimiento pleno de la paciente estudiada.

Discusión

La clasificación de los quistes de colédoco enunciada por *Alonso Lej* en 1959, fue modificada en 1977 por *Todani*, y es esta última es la más aceptada en la actualidad.⁽⁶⁾

Tipo I: Dilatación del árbol biliar extrahepático; quiste coledociano verdadero, 85 % de los casos. Se subdivide en: Ia, dilatación completa quística, Ib, dilatación segmentaria y Ic, dilatación completa fusiforme.

Tipo II: Divertículo sacular del colédoco extra-hepático.

Tipo III: Dilatación quística de la porción intramural (en duodeno). Coledococoele.

Tipo IV A: dilatación del árbol biliar intra y extra-hepático. B, múltiples quistes extra-hepáticos.

Tipo V: Dilatación limitada a los conductos intra-hepáticos: Enfermedad de Caroli.

Al tipo III, (coledococoele), *Sarris y Tsang* los subclasifican en tipo A, cuando el conducto biliar común se abre en un segmento quístico dilatado que se comunica con la luz duodenal por un orificio independiente. Tipo B, cuando el conducto biliar se abre normalmente a la luz duodenal y el colédococoele surge como un divertículo del canal común intraampular⁽¹⁾(Fig. 3). Los quistes tipo II y III son poco frecuentes, representan de 3 a 4 % de los casos, el tipo IV el 1 % y el tipo V menos del 1 % de los pacientes.

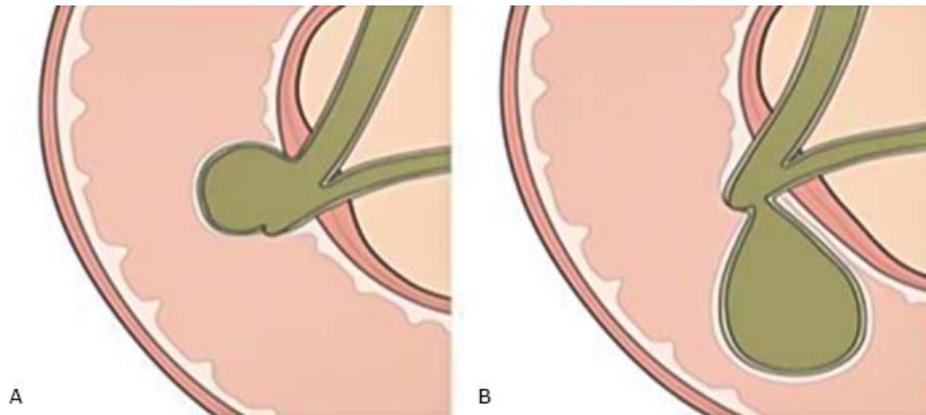


Fig. 3. Clasificación del coledococelo según *Sarris y Tsang*

La ´´tríada clásica´´ de síntomas para quistes de colédoco consiste en: dolor abdominal, tumoración abdominal en el cuadrante superior derecho e ictericia. En la práctica, ocurre en el 10 % de la población pediátrica y casi nunca en adultos.⁽⁷⁾ Los síntomas predominantes suelen ser: dolor abdominal, ictericia y episodios de colangitis. El riesgo de degeneración neoplásica cambia de acuerdo al tipo. Según clasificación de *Todani*, el tipo I tiene un riesgo de 68-70 %, el tipo IV 20 % y el tipo III menos del 2 %.^(7,8)

El cáncer más frecuente es el colangiocarcinoma, seguido del carcinoma de vesícula biliar. El riesgo de malignización es muy bajo antes de los treinta años y a partir de este punto aumenta con cada década de vida.⁽⁹⁾ El ultrasonido abdominal con una sensibilidad del 71 % al 97 % es un medio diagnóstico muy utilizado.⁽¹⁾

La ultrasonografía prenatal ha permitido realizar el diagnóstico en esta etapa y ha posibilitado el tratamiento quirúrgico precoz con mejor pronóstico para este grupo de pacientes.⁽⁷⁾ La tomografía computarizada (TC), define la extensión de los quistes y puede detectar lesiones sugestivas de malignidad.⁽¹⁰⁾ La colangiografía por resonancia magnética (CRM), es el método de elección para la valoración de los quistes de colédoco y tiene una sensibilidad de casi el 100 %. Permite delimitar la vía biliar y la unión biliopancreática. La colangiopancreatografía retrógrada endoscópica (CPRE), por su naturaleza invasiva, queda reservada para diagnosticar y eventualmente tratar casos específicos, como coledococelos, así como para cuando existan dudas con la CRM.⁽¹¹⁾

El tratamiento de elección para los quistes biliares de tipo I y IV, dado el riesgo de malignización, es la resección quirúrgica completa con restablecimiento del flujo bilioentérico. Al menos un metaanálisis⁽¹²⁾ ha demostrado que la hepatocoyeyunostomía en Y de Roux es la mejor opción para ello. El acceso laparoscópico es factible,⁽¹³⁾ pero técnicamente exigente.

En el quiste de tipo II solamente se efectúa la resección del mismo y para los quistes de tipo V, el trasplante hepático es una opción en casos con grave afectación del hígado y reserva funcional insuficiente. Sin importar el tipo de quiste, los pacientes con colangitis requieren drenaje por vía endoscópica o transhepática percutánea.

El tratamiento del coledococelo es significativamente diferente y merece comentario aparte. Aunque se ha reportado malignidad en este tipo de quiste, la tasa de incidencia parece ser mucho más baja (3 %), que, en el resto de los quistes biliares, y por ello la técnica más utilizada actualmente es la endoscópica. Esto es particularmente aplicable a quistes tipo A pequeños y que no presentan signos de obstrucción duodenal, que pueden ser tratados solo con esfinterotomía endoscópica.^(1,7,14)

En el tipo B, puede intentarse la resección endoscópica parcial o total del quiste, previa reducción del mismo, mediante incisión o aspiración del contenido. La cirugía está indicada en aquellos casos como el que presentamos, en los que fracasa la terapia endoscópica. El procedimiento más común es la escisión transduodenal, con o sin esfinterotomía.⁽¹⁵⁾

Conclusiones

En el coledococelo que no puede ser tratado por vía endoscópica, especialmente grande y con litos, la opción de tratamiento quirúrgico puede ser considerada. Muy importante es respetar la integridad de la vía biliar distal y por ello el paciente ha de ser intervenido en servicios y por cirujanos con experiencia en cirugía bilio-pancreática.

Referencias bibliográficas

1. Mayorga Garcés A, Mayorga Garcés H. Actualización en el diagnóstico y tratamiento de los quistes de colédoco. Revisión temática. Rapd Online. Nov-Dic. 2018[acceso: 2 febrero 2020];41(6):280-4. Disponible en: <http://www.sapd.es/revista/2018/41/6/02>
2. Giha S, Redondo Y, Quintero G. Quiste de colédoco: diagnóstico y manejo intraoperatorio. *Pediatr.* 2016[acceso: 2 febrero 2020];49(2):64-7. Disponible en: <https://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0120491216300064>

3. Sánchez JA, Gómez S, Morales C, Hoyos SI. Quistes del colédoco. Artículo de revisión. Rev Colomb Cir. 2015[acceso: 2 febrero 2020];30:296-305. Disponible en: <http://www.scielo.org.co/pdf/rcci/v30n4/v30n4a7.pdf>
4. Makin E, Davenport M. Understanding choledochal malformation. Arch Dis Child. 2012;97(1):69-72. Doi: <https://doi.org/10.1136/adc.2010.195974>
5. Piriz Momblant A, Figueras Torres B, Gómez Claro M. Quiste del colédoco. Revisión del tema. A propósito de un paciente. Revisión bibliográfica. Rev Inf Cient. 2016[acceso: 2 febrero 2020];95(3):508-23. Disponible en: <http://www.revinfcientifica.sld.cu/index.php/ric/article/view/129/1479>
6. Todani T, Watanabe Y, Narusue M. Congenital bile duct cysts: classification, operative procedure and review of thirty seven cases including cancer arising from choledochal cyst. Am J Surg 1977;134(2):263-9. Doi: [https://doi.org/10.1016/0002-9610\(77\)90359-2](https://doi.org/10.1016/0002-9610(77)90359-2)
7. Chaurand Lara M, Canto Cervera A. Quistes de colédoco. Caso clínico. Evid Med Invest Salud. 2015[acceso: 2 febrero 2020];8(1):37-40. Disponible en: <https://www.medigraphic.com/pdfs/evidencia/eo-2015/eo151g.pdf>
8. Acevedo Polakovich D, Rivas Rivera IA, Rodríguez López A. Quiste de colédoco: cuadro clínico, diagnóstico y tratamiento. Artículo de revisión. Acta Médica Grupo Angeles. Jul-Sept. 2015[acceso: 2 febrero 2020];13(3):171-6. Disponible en: <https://www.medigraphic.com/pdfs/actmed/am-2015/am153e.pdf>
9. Sastry A, Abbadessa B, Wayne G, Steele J, Cooperman A. What is the incidence of biliary carcinoma in choledochal cysts, when do they develop, and how should it affect management? World J Surg 2015;39(2):487-92. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00268-014-2831-5>
10. Lewis V, Adam S, Nikolaidis P, Wood C, Wu JG, Yaghmai V, et al. Imaging of choledochal cysts. Abdom Imaging 2015;40(6):1567-80. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00261-015-0381-4>
11. Oh S, Chang S, Kim H, Cho J, Hwang J, Namgoong J. Cholangiographic characteristics of common bile duct dilatation in children. World J Gastroenterol 2015;21(20):6229-35. Doi: <https://doi.org/10.3748/wjg.v21.i20.6229>
12. Narayanan S, Chen Y, Narasimhan K, Cohen R. Hepaticoduodenostomy versus hepaticojejunostomy after resection of choledochal cyst: a systematic

review and meta-analysis. J Pediatr Surg 2013;48(11):2336-42. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2013.07.020>

13. Aly M, Mori Y, Miyasaka Y, Ohtsuka T, Sadakari Y, Nakata K. Laparoscopic surgery for congenital biliary dilatation: a single-institution experience. Surg Today 2018;48(1):44-50. Doi: <https://doi.org/10.1007/s00595-017-1545-3>

14. Delgado Maroto A, Barrientos Delgado A, Gálvez Miras A. Coledococoele: causa inusual de ictericia obstructiva resuelta por papilotomía endoscópica. Casos clínicos. Rapd Online. Mar-Abr. 2018[acceso: 2 febrero 2020];41(2):92-4. Disponible en: <https://www.sapd.es/revista/2018/41/2/05>

15. Law R, Topazian M. Diagnosis and treatment of choledochocoeles. Clin Gastroenterol Hepatol 2014 12(2):196-203. Doi: <https://doi.org/10.1016/j.cgh.2013.04.037>

Conflictos de Intereses

Los autores declaran que no existen conflictos de intereses.

Contribución de los autores

Orlando Zamora Santana: Concepción, redacción y revisión final del trabajo.

Miguel Licea Videaux: Revisión bibliográfica.

Ilionis Escobar Rojas: Redacción.

Iván Ulises Palacios Morejón: Revisión bibliográfica

Miguel Ángel Rodríguez Allende: Obtención e interpretación de imágenes. Revisión final.