

Prikaz primera/Case report

VISOKI ILEUS, POVZROČEN Z ŽOLČNIM KAMNOM (BOUVERETOV SINDROM) – PRIKAZ PRIMERA

HIGH GALLSTONE ILEUS (BOUVERET'S SYNDROME) – A CASE REPORT

Rajko Golobinek

Oddelek za splošno in abdominalno kirurgijo, Splošna bolnišnica Slovenj Gradec, Gosposvetska ul. 3, 2380 Slovenj Gradec

Prispelo 2006-07-18, sprejeto 2006-11-13; ZDRAV VESTN 2006; 75: 843–6

Ključne besede *pozni zapleti žolčnih kamnov; holecistoduodenalna fistula; mehanični ileus; operativna terapija; holecistektomija*

Izvleček

Izhodišča *Mehanični ileus, povzročen z žolčnimi kamni (Bouveretov sindrom), je kasen zaplet holecistolitiaz. Kronično draženje in konzervativno zdravljenje akutnih zagonov holecistitisa privedeta ob dekubitusu stene postopno do razvoja notranje biliarne fistule v prebavni trakt (najpogosteje v dvanaajstniku). Prehajanje žolčnih kamnov skozi fistulo v črevo lahko povzroči obstrukcijo, ki zahteva operativno zdravljenje.*

Bolniki in metode *Prikazan je primer 78-letne bolnice z visokim ileusom, pri kateri so predoperativne preiskave (endoskopija, gastroduodenografija, ultrazvok, CT in histologija) govorile za obstrukcijo v dvanaajstniku zaradi preseljenega in vkleščenega žolčnega kamna – Bouveretov sindrom. Medoperativno smo diagnozo potrdili, odstranili kamen, napravili holecistektomijo ter sanirali tudi holecistoduodenalno fistulo.*

Zaključki *Bouveretov sindrom je redek vzrok za mehanični ileus. Pojavlja se v visoki starosti kot pozni zaplet žolčnih kamnov in praviloma zahteva operativno zdravljenje. Po razrešitvi obstrukcije je ob ugodnem splošnem stanju bolnika potrebno napraviti še holecistektomijo in odstraniti fistulo.*

Key words *late gallstones complications; cholecystoduodenal fistula; mechanical ileus; operative therapy; cholecystectomy*

Abstract

Background *Mechanical ileus caused by gallstones (Bouveret syndrome) is late complication of cholelithiasis. Chronical irritation and recurrent conservatively treated episodes of acute cholecystitis lead to weakening of gallbladder wall and formation of internal biliar fistula (predominantly into duodenum). Gallstones migration through the fistula can cause intestinal obstruction, which requires surgical treatment.*

Patients and methods *A case of a 78-years old female patient with high ileus is presented. Preoperative examinations (endoscopy, gastroduodenography, abdominal ultrasound, CT scan and histology) suggested duodenal obstruction due to translocated and impacted gallstone – Bouveret syndrome. Intraoperatively this diagnosis was confirmed, gallstone removed and cholecystectomy and the cholecystoduodenal fistula repair was made.*

Conclusions *The Bouveret syndrome is a rare cause of mechanical ileus. It is presented in aged patients as late complication of gallstones and demands operative treatment. Desobstruction is mandatory, according to patient's general condition cholecystectomy and fistula repair are strongly recommended.*

Uvod

Med številnimi zapleti žolčnih kamnov je razvoj notranjih (internih) biliarnih fistul, ki so patofiziološka podlaga za nastanek mehničnega ileusa – Bouveretov sindrom (BS), poleg raka žolčnika eno od najkrajših in redkejših zapletov po holelitiazi. Če kot vzrok za nastanek biliarne fistule odštejemo poškodbe (tudi jatrogene), ki so najpogostejši vzrok za zunanje (eksterne) fistulacije, so poleg peptičnega ulkusa in preraščajočega malignoma v tem področju v 90 % vzrok za nastanek notranje, interne biliarne fistule prav žolčni kamni (1, 2).

Ker gre za patološko komunikacijo med biliarnim (največkrat žolčnik, redkeje biliarno vejevje) in gastrointestinalnim traktom (največkrat dvanajstnik, redkeje debelo črevo in zelo redko želodec), je ob tem zaradi vdora mikroorganizmov in sokov zgornje prebavne cevi pogosto pričakovati vnetja v biliarnem traktu (»ascendentni holangitis«), možna pa je tudi migracija patološke vsebine žolčnika ali žolčnih vodov v obratni smeri (1, 2). Slednje lahko vodi do nastanka mehničnega ileusa. Tri četrtine fistul, ki se izrazijo z Bouveretovim sindromom, so fistule med žolčnikom in dvanajstnikom. Večino kamnov, ki zaidejo po tej poti, bolniki izbruhajo, ali pa se ti brez večjih težav spontano izločijo po naravni poti. Ileus povzročijo ti kamni le v 10–15 % (1, 6). V celoti so žolčni kamni le 1 % vzrokov za mehnično obstrukcijo tankega črevesa, po 70. letu starosti pa so vzrok kar za 25 % nemalignih (enostavnih) mehničnih obstrukcij. Kar pri 2/3 se zgodijo v terminalnem ileumu (1, 6).

Zdravljenje je v tem primeru vedno operativna. Z duodenotomijo ali enterotomijo je potrebno sprostiti obstrukcijo (1, 3, 4, 6, 9, 10). Če je tehnično možno in če ni medoperativnih zapletov ali večje izgube krvi, če je bolnikovo splošno stanje dobro in ob fistuli ni hudih vnetnih sprememb, je zelo priporočljiva tudi odstranitev žolčnika in korekcija fistule. Spontano se fistula namreč izjemno redko zapre, verjetnost ponovitve ileusa je 10-odstotna, vztrajajoča fistula pa znatno povečuje incidenco ponavljajočih se holecistitisev, holangitisev in karcinoma žolčnika (1, 2). Če oskrba fistule primarno ni mogoča, jo je iz naštetih razlogov smiselno opraviti, ko se bolnikovo splošno stanje izboljša.

Klinično se Bouveretov sindrom pojavi kot »običajni« bolj ali manj visoki ileus tankega črevesa ali kot zapora dvanajstnika. Na biliarno etiologijo pomislimo pri anamnezi dolgoletne, v glavnem simptomatske holelitiaze. Predoperativna diagnoza ileusa je možna tudi takrat, ko je na nativnem rentgenogramu na mestu obstrukcije jasno vidna ena ali več amorfnih sprememb, kar pri radiopacnih kamnih ne predstavlja večjega problema. Če vključene kamne obdaja zrak, ki ima v tem primeru vlogo kontrasta, je možno lepo videti tudi neradiopacne kamne. Če se na rentgenogramu vidi še zrak v žolčnih vodih (aerobilijo) kot posledica fistule, je diagnoza Bouveretovega sindroma toliko bolj gotova (8). Če dopuščata čas in bolnikovo stanje in operacija ni nujna, lahko številne koristne informacije omogočajo tudi ostale morfološke preiskave (UZ, CT, endoskopija ...).

Prikaz primera

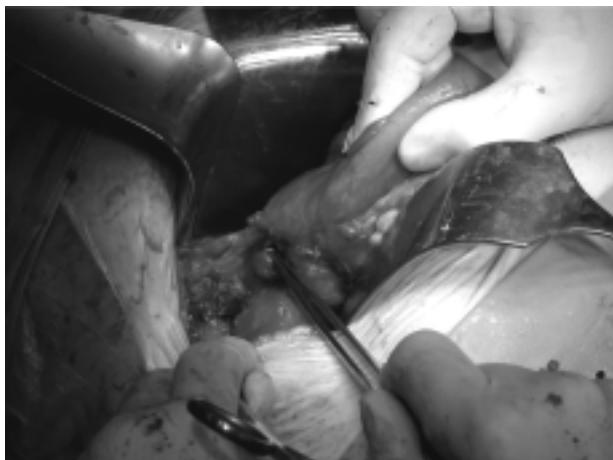
78-letno bolnico smo na kirurški oddelek premestili s tukajšnjega internega oddelka. Dva tedna je imela pogoste napade bolečin v zgornjem abdomnu, nekaj dni pred sprejemom se je pojavilo stopnjujoče bruhanje po vsaki hrani. Ob sprejemu je bila dehidrirana, oslabiljena in v hudem elektrolitskem neravnovesju. Zmerno so bili povišani dušični retenti in parametri vnetja (CRP pod 100), parametri biliarne staze in jetrne transaminaze so bili brez večjih odstopanj, tumorski označevalci CEA in CA 19-9 so bili v mejah normale. Na rentgenogramu abdomna stoji na prazno je bilo videti dilatiran želodec z velikim depojem zraka v fundusu brez znakov pnevmoperitoneja. Patološke dilatacije črevesja, zračno-tekočinskih ravni ali radiopacnih senc ni bilo videti. Akutni kirurški abdomen je bil izključen. Takoj smo uvedli simptomatsko, predvsem rehidracijsko zdravljenje, korekcijo elektrolitov in stimulirali diurezo. Gastroskopija je pokazala močno razširjen želodec z obilo zaostale tekočine, postbulbarno pa veliko črnikasto, trdo maso, ki je v celoti zapirala pot v dvanajstnik. Odvzet je bil material za nujno histološko preiskavo. Patolog je našel le črnikaste amorfne mase anorganskega izvora brez celičnih elementov. Opravljeni UZ abdomna je opisoval 35x35 mm velik kamen in kronično vnetno spremenjen žolčnik brez dilatacije žolčnih vodov ob zelo slabi preglednosti, CT izvid zgornjega abdomna pa je bil bolj jasn. Zaključek se je glasil: »V začetnem delu dvanajstnika je vidna ovalna kalcinirana laminirana formacija velikosti do 35 x 31 mm. Po pitju gastrografina se je slednja oblila s kontrastom, pred njo pa je viden zadebeljen predel pilorusa oz. bližnjega dvanajstnika. Samega žolčnika na običajnem mestu sicer ne ločim, pankreas je lobuliran, očitnejših večjih mas v tem predelu ne vidim. V prvi vrsti prihaja diferencialnodiagnostično v poštev možnost prodora konkrementa iz žolčnika ob perforaciji neposredno v dvanajstnik. Zadebeljeno steno dvanajstnika lahko predstavljajo zgolj vnetne spremembe?«

Zdravljenje

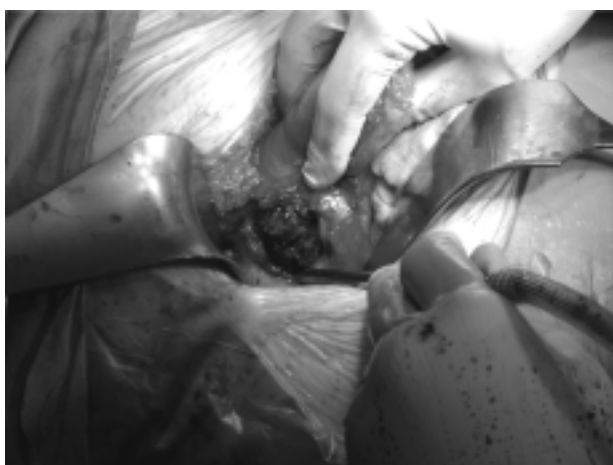
Po kratkem čiščenju črevesja in oboperativni antibiotični in antitrombotični zaščiti smo bolnico operirali. Našli smo izrazito raztegnjen želodec, ki se je nadaljeval v večji tumor pod visceralno površino jeter, kamor je bil vpotegnjen tudi jetrni zavoj debelega črevesa in velika pečica. Vse skupaj je bilo dobro premakljivo proti zadnji trebušni steni in makroskopsko ni dajalo vtisa maligne infiltracije. Po preparaciji pečice in širokega črevesa se je pokazal fundus manjšega, trdega in sfrknjenega žolčnika, ki je bil čvrsto zračen na proksimalni dvanajstnik pod pilorusom. Med ločevanjem obeh struktur se je v dvanajstniku odprla pribl. 15 mm velika vrzel, skozi katero je bila videti trda, črnikasta masa, ki je dvanajstnik popolnoma zapirala (Sl. 1).

Izkazalo se je, da gre ob hudih vnetnih spremembah za holecistoduodenalno fistulo, ki se je napravila zelo visoko na telesu žolčnika. Odprtino smo vzdolžno povečali, robove ekscidirali in iztisnili večji kamen (Sl. 2 in 3).

Žolčnik, poln kamnov, smo antegradno izluščili iz jeter, pod fistulo pa smo ugotovili le slepo zaprt žep brez jasnega cističnega voda, ki je očitno obliteriral. Razen iz odprtine v dvanajstniku nikjer ni bilo sledov



Sl. 1. Pinceta kaže široko odprto vrzel v dvanajstniku.
Figure 1. The pincet shows wide opening in duodenum.



Sl. 2. Ekstrakcija kamna skozi razširjeno odprtino.
Fig. 2. Extraction of the gallstone through enlarged hole.



Sl. 3. Velik odstranjen kamen v kirurgovi roki.
Fig. 3. Large extracted gallstone in the surgeons hand.

žolčne sekrecije. Ker je imela bolnica hude težave le zaradi obstrukcije prebavne poti, klinično, ultrazvočno in laboratorijsko pa ni bilo znakov žolčne obstrukcije, smo od nadaljnjega prepariranja struktur hepatoduodenalnega ligamenta in holangiografije odstopili. Skozi odprtino v dvanajstniku smo poskušali prepoznati papilo, ki je nismo našli, od nadaljnjne mobilizacije dvanajstnika in dodatne duodenotomije v fibrozno in vnetno spremenjenem tkivu pa smo odstopili. Vzdržno duodenotomijo smo enoslojno zašili prečno (Heinecke-Mikulicz). Zaradi ozkega dvanajstnika s hudimi vnetnimi spremembami in dekubitusom na sluznici (možnost kasnejše stenoze) in dilatiranega atoničnega želodca pa smo se odločili še za antekolično, izoperistaltično gastroenteroanastomozo (GEA) in Braunovo enteroenteroanastomozo (EEA). Distalno od slednje smo nastavili še katetrsko hranilno jejunostomo, želodec pa razbremenili z nazogastrično sondom.

Na tem mestu je potrebno poudariti, da večina opisanih postopkov (piloroplastika, GEA, EEA in hranilna jejunostoma) pri zdravljenju »običajnega« Bouveretovega sindroma ni potrebnih in niso standardni načini zdravljenja (1, 3, 4, 6, 9, 10). Zanje smo se pri nas odločili zaradi hude dilatacije želodca, širine fistule s hudimi vnetnimi spremembami v okolici in stenoze dvanajstnika zaradi vraslega žolčnega kamna.

Pooperativni potek je bil povsem gladek, bolnica afebrilna, žolčne sekrecije po drenu nismo opazali, peristaltika pa se je ob stimulaciji hitro vzpostavila (že prvi pooperativni dan smo začeli enteralno hranjenje po jejunostomi). Osmi postoperativni dan smo napravili gastrografijo z vodotopnim kontrastom, ki je pokazala dobro prehodnost GEA in dvanajstnika brez puščanja, nato smo pričeli s hranjenjem skozi usta. V prvih dneh je bolnica po hrani še nekajkrat obilno bruhala, zato smo napravili še gastroskopijo. Tudi tu je bilo videti dobro prehodni obe vijugi GEA. Bruhanje se je po antiemetikih počasi umirilo, bolnico pa smo po skoraj treh tednih hospitalizacije odpustili domov praktično brez težav.

Razpravljanje

Mehanični ileus tankega črevesa je ne glede na višino obstrukcije patologija, s katero se sorazmerno pogosto sreča vsak kirurg. Pogosto v dežurstvu, saj je čas, v katerem ukrepamo, za dober izid ključnega pomena. Takrat so v primerjavi z rednim delovnim časom okrnjene operativne ekipe, nekoliko manjše so diagnostične možnosti, predvsem pa nujno stanje zahteva takojšnje ukrepanje. Tako je bolnik velikokrat operiran zgolj z diagnozo mehanični ileus, natančnejši vzrok zanj pa med operacijo ugotavlja šele kirurg. Ta je pred posegom največkrat prepuščen le svojemu znanju in izkušnjam, včasih tudi intuiciji in domišljiji, ki odločajo o načinu in mestu pristopa v abdomen.

Če so med vzroki za mehanični ileus debelega črevesa danes na prvem mestu maligni tumorji, med vzroki za ileus tankega še vedno prevladuje benigna patologija (12). Karcinoid, preraščajoča maligna sprememba sosednjih organov, gastrointestinalni stromalni tumor (GIST) so v primerjavi s peritonealnimi adhezija-

mi, stenozami in strangulacijami po operacijah ali vnetnih procesih v abdomnu še vedno med bolj sporadičnimi vzroki za ileus tankega črevesa (12). Pri malih otrocih zaradi prirojenih, pri starejših ljudeh pa zaradi »zanemarjenih« velikih ingvinalnih ali pooperativnih kil je pogost razlog ileusa tankega črevesa tudi vkleščena kila (13). Glistavosti, ki je bila včasih pogost vzrok ileusa, danes skorajda ni več, tudi zamašitev črevesja z bezoarjem (ostanki agrumov, zelja in koruze, peške koščičastega sadja...) je bila v zadnjem desetletju na našem oddelku indikacija za operativno zdravljenje le nekajkrat in je tudi v literaturi opisana kot redka. Redke, predvsem pri odraslih, so tudi invaginacije, pogostejše, predvsem pri starostnikih, so prekrvitvene motnje (14). V luči vsega naštetega se zdi podatek iz literature (1), ki incidenco ileusa, povzročena z žolčnimi kamni, med celotno populacijo ocenjuje na 1 %, vsaj v naših razmerah visok. Prav tako se zdi (pre?) visok podatek istega učbenika, ki kot vzrok za »navadno« obstrukcijo tankega črevesa po sedemdesetem letu kar v 25 odstotkih navaja žolčne kamne (1). Predstavljena bolnica z Bouveretovim sindromom kot primer visokega biliarnega ileusa, operiranega na našem oddelku, je bil namreč v zadnjih petih letih edini, biliarnega ileusa z bolj distalno obstrukcijo tankega črevesa ali ileocekalne valvule pa sploh nismo opazali.

Zaključki

Bouveretov sindrom je redka entiteta mehničnega ileusa zgornjih prebavil ali tankega črevesa, s katerim se bo kirurg srečal izjemno redko. Čeprav se vsak biliarni ileus v bistvu začne kot Bouveretov sindrom, ostaja tudi zato, ker nanj ne pomislimo in ker se velikokrat z migracijo kamnov distalno spontano razreši, pogosto spregledan. Le redko se dogaja, da se kamen zaradi dolgotrajnega vnetnega procesa vklešči ali vraste v dvanajstnik, kot je bilo tudi v našem primeru. Kljub temu je pri simptomatiki akutnega abdomna v smislu visoke zapore prebavil potrebno pomisliti tudi na to možnost. Zanimiv je zaradi nenavadnega mehanizma in vzroka za nastanek, zdravljenje pa je tako kot pri vseh stanjih mehničnega ileusa operativno (1, 3, 4, 6, 12).

Ugotovljamo, da je Bouveretov sindrom v našem okolju izjemno redek, redkejši kot to navaja literatura. Vzroke temu lahko najdemo v dejstvu, da se za operacijo večino simptomatske (včasih pa tudi asimptomatske) holelitiaze pri nas odločamo sorazmerno hitro in s tem onemogočimo razvoj poznih zapletov, kamor sodi tudi razvoj fistule in Bouveretovega sindroma. Množična uporaba laparoskopske tehnike operacije žolčnika, ki je tudi na našem oddelku že več kot desetletje utečen, za bolnika varen in minimalno invaziven poseg s kratko ležalno dobo, z minimalno oboperativno in pooperativno obolevnostjo in umrljivostjo, bo verjetnost za nastanek poznih zapletov holelitiaze še zmanjšala.

Literatura

1. Sabiston DC. Textbook of surgery. 15th edition. Philadelphia: W. Saunders Company; 1997.
2. Petersdorf RG, Adams RD, Braunwald E, Isselbacher KJ, Martin JB, et al. *Harrisons Principles of internal medicine* 2. 11th edition. Auckland Bogota: McGraw-Hill Book Company 1987.
3. Košorok P. Bouveret's syndrome (Gallstone ileus). *A Minefield B J C P* 1996; 50(1): 59-60.
4. Košorok P. Bouveretov sindrom-visoki biliarni ileus. *Med Razgl* 1996; 35: 421-8.
5. Reisner RM, Cohen JR. Gallstone ileus: a review of 1001 reported cases. *Am Surg* 1994; 60: 441-6.
6. Štulhofer M. Kirurgija probavnog sustava. Samobor, Zagreb: Poduzeće za graf. Djelat; 1992: 430-4.
7. Deitz DM, Standage BA, Pinson CW, McConnell DB, Krippaehne WW. Improving the outcome in gallstone ileus. *Am J Surg* 1986; 151: 572-6.
8. Brennan GB, Rosenberg RD, Arora S. Bouveret syndrome. *Radiographics* 2004; 24: 1171-5.
9. Sanchez-Sanchez MR. Bouveret syndrome. A case report. *Rev Clin Esp* 2003; 203: 399-400.
10. Hurliman R, Enzler M, Binswanger RO, Meyenberger C. Bouveret syndrome - a rare gallstone complication. *Z Gastroenterol* 1995; 33: 445-8.
11. Sonak R, Tusek D, Rusche HH. Bouveret syndrome - a rare form of pyloric obstruct. *Zentralbl Chir* 1995; 120: 75-8.
12. Akcakaya A, Sahin M, Coskun A, Demiray S. Comparison of mechanical bowel obstruction cases of intraabdominal tumor and non-tumoral origin. *World J Surg* 2006; 12: 231-6.
13. Ihedioha U, Alani A, Modak P, Chong P. Hernias are the most common cause of strangulation in patients presenting with small bowel obstruction. *Hernia* 2006; 19: 122-5.
14. Lock G. Acute mesenteric ischaemia-frequently overlooked an often fatal. *Med Klin* 2002; 15: 402-9.