

## CLINICAL CASES

## Bouveret's syndrome

\*R. Scerbina, Gh. Ghidirim, I. Vlad, I. Craciun, O. Constantinica, I. Onufrei, V. Lescov,  
M. Cupcea, A. Muravca

Nicolae Anestiade Department of Surgery No 1, Nicolae Testemitanu State University of Medicine and Pharmacy  
165, Stefan cel Mare Avenue, Chisinau, the Republic of Moldova

\*Corresponding author: romeo\_scerbina@yahoo.com. Article received May 03, 2013, accepted June 12, 2013

## Abstract

According to the literature Bouveret's syndrome is a rare disease with an unclear clinical picture and difficulties in diagnosis. The known diagnostic methods include X-ray examination, ultrasonography, computerized tomography, the endoscopic examination of the gastrointestinal tract. Researchers indicate that the most successful diagnosis can be made when combining ultrasound and contrast radiography. There isn't a clear opinion about Bouveret's syndrome surgical treatment. Preference is given to the simple methods - enterotomy with the extraction of the biliary concrement leaving the elimination of the fistula and cholecystectomy for the second phase of treatment. In this case there appear a risk of the recurrence of biliary obstruction and the occurrence of cholangitis. A clinic case of a 62-year-old woman, who had difficulties in the diagnosis of biliary ileus has been described. The clinical picture has not corresponded to the X-ray examination results. The increase of obstruction syndrome and lack of the effect of conservative therapy have required a classical surgical treatment. In this case the solution of the problem has been reached by one stage treatment: cholecystectomy, enterotomy with gall stone extraction and the liquidation of gastric defect. The postoperative period has been complicated with a bilateral pleurisy, which has been successfully cured by carrying out the pleural puncture and antibiotic therapy.

**Key words:** Bouveret's syndrome, diagnosis, one stage treatment.

## Синдром Буверета

\*Р. Щербина, Г. Гидирим, И. Влад, И. Крачун, О. Константирика, И. Онуфрей,  
В. Лесков, М. Купча, А. Муравка

## Реферат

В соответствии с данными литературы, синдром Буверета – это редкое заболевание с неясной клинической картиной и сложной диагностикой. Среди методов его диагностики наиболее известны рентгенологические методы, ультразвуковое исследование, компьютерная томография, эндоскопическое исследование желудочно-кишечного тракта. Исследователи отмечают наибольшую вероятность успешной диагностики при сочетании УЗИ с контрастным рентгенологическим исследованием. Нет единого мнения и относительно хирургического лечения синдрома Буверета. Предпочтение отдаётся простым методам – энтеротомии с удалением желчного камня, при том, что ликвидация свища и холецистэктомия остаются на второй этап лечения. Но, в этом случае остаётся опасность рецидива билиарной непроходимости и возникновения холангита. Приводится клинический случай женщины 62 лет, у которой были трудности диагностики кишечной непроходимости билиарного генеза. Клиническая картина не соответствовала данным рентгенологического исследования. Нарастание клиники кишечной непроходимости и отсутствие эффекта от консервативной терапии потребовало хирургического лечения классическим способом. В нашем случае решение проблемы достигнуто проведением одноэтапного лечения: холецистэктомия, энтеротомия с извлечением камня и закрытие дефекта желудка. Послеоперационный период осложнился двухсторонним плевритом, который успешно вылечили посредством проведения плевральной пункции и терапии антибиотиками.

**Ключевые слова:** синдром Буверета, диагностика, одноэтапное лечение.

Erasmus Bartholin, medic danez și matematician, a descris prima observație a unui ileus biliar la un pacient după autopsie în 1654. Courvoisier a descris această entitate în 1890 prezentând 131 de cazuri. Există părerea că prima descriere aparține lui Naunyn – 123 de cazuri, în 1892 [19]. Un alt autor, căruia i se atribuie descrierea acestui sindrom este Beaussier, în 1770 [5].

Pentru prima dată sindromul Bouveret în actuala interpretare a fost descris de medicul internist francez Leon Bouveret în 1896 în *Revue de Medecin*, care l-a definit ca o obstrucție intestinală înaltă cauzată de impactarea unui sau mai mulți calculi în duoden printr-o fistulă bilio-digestivă [5]. Termenii

folositi în studii sunt: ileusul biliar, obstrucția biliară intestinală. Acesta constituie aproximativ 1-3% din toate cazurile de impact al calculilor biliari în tractul digestiv, reprezentând 1-4% din cauzele obstrucțiilor intestinale, până în 2008 fiind descrise peste 300 de cazuri [5, 10, 12, 14]. În SUA și Europa de Est calculii biliari se întâlnesc în 10% cazuri [14], iar Borman și Rigler [cit. J.L. Dwse, 6] descriu 60 de fistule biliare la 30000 de necropsii (0,2%).

Una dintre complicațiile litiazei biliare este formarea fistulei bilio-digestive întâlnite în aproximativ 1-3% de purtători de calculi manifestați clinic [3, 11, 13, 17]. Calculii mici pot fi eliminați spontan „*per vias naturales*” [7]. Factorii, care

favorizează formarea fistulelor sunt calculii cu dimensiuni între 2 și 8 cm [1, 19], istoric biliar de durată, episoade acute și repetate de litiază biliară acută, ulcerul perforat în căile biliare, specifică a regiunii hipocondrului drept cu implicarea organelor adiacente în cazul litiazei biliare acute sau cronice [1, 6, 7, 9, 18], sexul feminin, raportul femei: bărbați este de 2,64/1 [6] și vârsta înaintată – peste 60 de ani [10, 12, 16]. Unii calculi mici migrează în intestin cu depunerea ulterioară a elementelor conținutului intestinal și creșterea în volum a calculului, urmată de obstrucția completă a lumenului – ileusul biliar [1, 3, 4, 7, 15, 16].

Letalitatea este înaltă și oscilează între 12% și 18% [4]. Fistulele pot fi: colecisto-duodenale în 60% cazuri, colecistico-colică în 17%, colecisto-gastrice în 5% [8, 10, 16, 10]. Mai rar întâlnite sunt fistulele colecisto-duodeno-colice. Manifestările clinice încep cu 4-8 zile anterior obstrucției intestinale, nu sunt specifice [1, 6] și vor depinde de localizarea obstrucției, segmentul intestinal implicat în formarea fistulei și prezența unei arii de stenoză preexistente și va include greață, vomă (87%), dureri epigastrale și distensie abdominală (44%), icter mecanic, cu dificultăți și dileme diagnostice. Calculii migrați pot fi asimptomatici și pot fi eliminați prin masele fecale sau prin vomă (15%), cauzând obstrucție intestinală în 1-4% [12, 15]. Frecvența obstrucțiilor în ordine descrescândă pot fi localizate în ileonul terminal (50-75%), ileonul proximal și jejun (20-40%), în colon și, mai rar, în stomac sau duoden – 10% [4, 5, 6, 10, 11, 12].

Este cunoscut și ileusul biliar după STE [12]. Un număr mic de pacienți pot dezvolta o hematemeză secundară prin erozie de duoden sau eroziune a arterei celiace [11, 13, 16]. În plan diagnostic am menționat importanța radiografiei abdominale, care rar depistează cauza sindromului ocluziv [4, 9, 11, 12]. Pilonul de bază în stabilirea diagnosticului este prezența triadei Rigler: obstrucția intestinală, pneumobilia, calcul biliar ectopic [1, 6, 11, 13]. Radiografia abdominală dinamică poate stabili migrarea calculului [16]. Mc. Laughlin et al., în 1939 a constatat: „Diagnosticul corect poate fi stabilit în timpul operației sau prin examen postmortem” [15, 16]. Acești pacienți de obicei sunt în vârstă, suferă de diabet zaharat, afecțiuni cardiace cu schimbări electrolitice profunde [15]. USG permite de a suspecta un sindrom Bouveret, dar în multe cazuri tabloul USG este confuz [11, 13, 14]. În același timp Chin-Yung Yu. et al [20] concludă că USG concretizează diagnosticul în mai mult de 74% cazuri. CT, mai ales prin administrarea orală a substanței opace, în peste 60% cazuri stabilește diagnosticul [13, 14], și chiar în 93-100% [20].

Examenul radiologic și CT ridică posibilitatea stabilirii diagnosticului la 96% cazuri [1]. Recent s-a propus examenul prin RM cu CPG mai ales la pacienții intolerabili la substanța de contrast [5, 11]. Diagnosticul diferențial trebuie efectuat cu: diverticuli, corpi străini, ulcere fibrotice și neoplasme [3]. Strategia terapeutică va lua în considerație mai multe aspecte: vârsta pacientului, comorbiditățile, efectul obstrucției, mărimea calculului și a fistulei, schimbările inflamatorii locale, localizarea obstrucției. A fost demonstrat, că durata operației nu influențează semnificativ evoluția, ea depinde de timpul

în care se stabilesc schimbările loco-regionale cât și reținerea nejustificată a actului operator. Tratamentul ideal este extragerea calculului, închiderea fistulei și prevenirea recurenței, rezultate obținute prin chirurgia deschisă [1, 13, 14, 15, 16, 17, 18]. Unii autori stabilesc că pacienții sunt operați tardiv după trei și mai multe zile în 87,5% [20], iar diagnosticul exact este stabilit doar la jumătate din pacienți [15]. Extragerea calculului este asigurată printr-o duodenotomie clasică sau laparoscopică, iar lichidarea fistulei va fi preconizată pentru un alt timp, obținute determinată intraoperator [18]. Volumul operației va fi condiționat de starea pacientului, gradul de pregătire a chirurgului [10, 13, 16]. Preferința majorității chirurgilor este duodenotomia cu extragerea calculului [1, 4]. Această atitudine va fi argumentată la pacienții în stare gravă sau în cazurile de schimbări inflamatorii locale accentuate, ce ar crea dificultăți operatorii majore și va predispuce la complicații postoperatorii grave. Astfel, la o rezolvare completă a cazului mortalitatea va constitui 20-30%, comparativ cu 12% în cazul unei simple duodenotomii în eventualitatea unei bune funcționări a fistulei bilio-digestive [4, 11, 12]. Tratamentul endoscopic sau prin LASER – fragmentare al SB este o opțiune terapeutică preferabilă [11, 13]. Persistența fistulei bilio-digestive cu stază biliară în coledocul terminal poate să declanșeze o colangită severă. Închiderea fistulei va duce la schimbări scleroatofice, ce va favoriza recurența litiazei, dezvoltarea unei colecistite acute sau a unui carcinom vezicular [18]. Astfel Bossart et al (1961) cit. C.Iancu [10] susține apariția cancerului vezicular în 15% cazuri la pacienții cu fistule bilio-digestive comparativ cu 0,8% la pacienții, care nu au dezvoltat fistule biliodigestive.

Persistența semnelor la majoritatea pacienților tratați prin duodenotomie cu extragerea calculului (calculilor) este un alt argument pentru efectuarea colecistectomiei la pacienții cu un teren clinic relativ satisfăcător. Prima intervenție cu abordarea celor trei obiective intraoperatorii aparține lui Holz (1929), care în timpul evacuării calculului s-a prăbușit în colecist, efectuând lichidarea defectului duodenal și colecistectomie într-o etapă. În peisajul tehnicilor operatorii se poate regăsi și *by-passul* gastric [2]. Sica et al, cit C.Iancu [10] a raportat prima rezolvare pe cale laparoscopică a sindromului Bouveret, extragerea endoscopică ar fi o opțiune în cazuri selectate cu 42% insuccese [5]. Prima extragere de calcul pe cale endoscopică a efectuat-o Bedony în 1985 [5]. Dumonceau [cit. C.Iancu, 10] a efectuat reușit prima litotripsie extracorporală, iar Maiss prima litotripsie cu LASER. Inconveniența constă în necesitatea repetării sesiunilor, ele fiind de lungă durată și provoacă hemoragii și perforații [5]. Reducerea mortalității (12-27%), după părerea lui Raiford [15, 16] ar fi posibilă prin respectarea următoarelor principii de tratament: diagnosticul și tratamentul chirurgical precoce; evaluarea și reechilibrarea volemică preoperatorie; antibioterapia; anestezia adecvată; decompresia intestinală; minimalizarea actului operator în lichidarea obstrucției; tehnică chirurgicală impecabilă; tratamentul pre- și postoperator de calitate; stabilizarea maximal posibilă a patologiilor concomitente. Contrar istoricului de peste 350 de ani al problemei abordate, riscul letal și morbiditatea rămân încă înalte [16].

**Caz clinic.** Pacienta E., 63 de ani, f/o 4099 s-a aflat la tratament în CNŞPMU de la 05.03.2013 până la 19.03.2013 cu diagnosticul la internare: „Pancreatită acută. Litiază biliară cronică. Colică renală”, prezentând dureri în regiunea hipocondrului drept și stâng, grețuri, vome, inapetență. Durerile au apărut după o masă copioasă pe 01.03.2013. Se adresează pe 02.03.2013 la serviciul de urgență, fiind spitalizată. Anamneza a evidențiat litiaza biliară timp de 5 ani cu accese repetate, ignorate de pacientă, tratându-se de sine stătător cu antispastice. Obiectiv: tegumentele roze, respirație aspră bilateral cu frecvența de 18/min, Ps 80/min. Limba saburală, uscată. Dureri în hipocondrul drept, semnele Ortner, Murphy, Mussy pozitive. Scaun prezent. Ampula rectală liberă, elastică, indoloră cu mase fecale de culoare obișnuită. Semnul Jordano slab pozitiv pe dreapta. Se începe tratament infuzional cu spasmolitice. Starea pacientei nu se ameliorează, apare o balonare a abdomenului, durerea devine difuză. Suspectându-se o posibilă ocluzie intestinală se indică radiografia panoramică a abdomenului, care evidențiază multiple niveluri hidroaerice. Urmează proba Swartz. La un examen minuțios se evidențiază „aerobilie” (fig. 1).

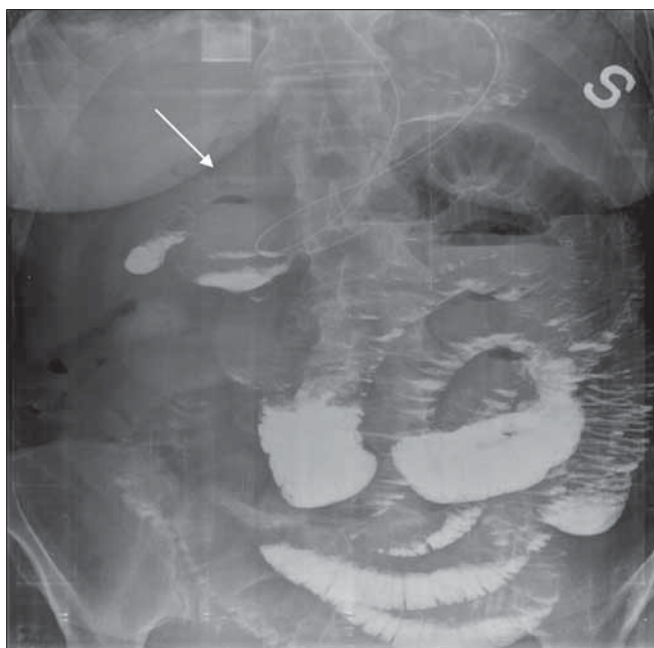


Fig. 1. Aerobilie, niveluri hidroaerice multiple.

Prin sonda naso-gastrică decompresivă se elimină conținut de stază, în dimineața zilei a avut scaun de sine stătător. Luând în considerație decalajul între semnele clinice și cele radiologice, progresarea clinicii de ocluzie intestinală se stabilesc indicații pentru tratament chirurgical de urgență: 04.03.2013 orele 12.45-14.45 – laparotomie medio – mediană. La inventarierea cavității abdominale s-a determinat lichid seros – 300-400 ml, fistulă colecisto-gastrică (sindromul Bouveret).

A urmat excizia marginilor fistulei cu gastrorafie, colecistectomie. La 20 cm de la unghiul ileo – cecal în lumenul intestinului se determină un calcul (60 x 46 mm) cu blocarea totală a pasajului conținutului intestinal. Enterotomie longitu-

dinală cu evacuarea calculului biliar și enterorafie transversală în două planuri (fig. 2). Drenarea subhepatică și a spațiului Douglas, laparorafie. Piesa operatorie: colecist sclerosat de 4 cm cu defect în partea fundică a veziculei, calcul extras de 60 x 46 mm (fig. 3) format dintr-un calcul biliar de aproximativ 35 mm cu sedimentare de pigmenți, mucus și alte incluziuni.

**Examen histologic** 4099 pe 11.03.2013: 1) Vezicula biliară cu defect (fistulă). În regiunea colului îngustarea lumenului. Peretele îngroșat, mucoasa hipertrofiată. 2) Fragmente din perețele stomacal cu infiltrație sectorală inflamatorie a mucoasei.

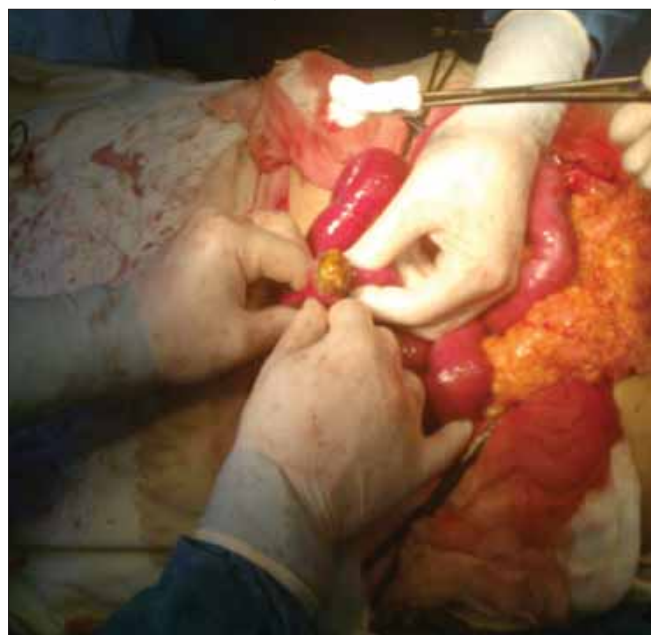


Fig. 2. Secvență intraoperatorie: enterotomie, extragerea calculului.



Fig. 3. Calculul extras.

**Diagnosticul postoperator:** Fistulă colecisto-gastrică (Sindromul Bouveret), ocluzie intestinală mecanică. Peritonită seroasă difuză.

Evoluție postoperatorie cu febră până la 38°. La USG (12.03.2013) – fără colecții și formațiuni intraabdominale. Radiografia toracelui (14.03.2013): pleurezie pe stânga. Puncție cu evacuarea a 200 ml lichid seros. După evacuarea lichidului – normalizarea temperaturii. Cicatrizarea plăgii *per primam*. În stare satisfăcătoare externată pe 19.03.2013.

### Discuții

Cazul prezentat este unul, care confirmă dificultățile de diagnostic și tratament. Având un debut de colecistită acută litiazică cu pancreatită acută reactivă cu trei zile până la spitalizare, cu dureri moderate abdominale, vome unice cu conținut gastric cu păstrarea tranzitului intestinal. Distensia abdominală a impus examenul radiologic, care a stabilit ileusul (sindromul Bouveret?). Intraoperator – ileus biliar (sindromul Bouveret) la nivelul ileonului terminal, fistulă colecisto-gastrică. Reieșind din starea de gravitate medie a pacientei, la prezența unei peritonite seroase s-a efectuat lichidarea defectului gastric, colecistectomie, enterotomie cu evacuarea calculului, enterorafie transversală, drenarea cavității abdominale. Perioada postoperatorie cu febră 38,0-38,5°. USG fără colecții intraabdominale. Radiografia toracelui – pleurezie pe stânga. Puncție cu evacuare a 150 ml lichid seros și dispariția febrei. Externată la 2 săptămâni după spitalizare în stare satisfăcătoare. În cazul descris tactica operatorie triplă a lichidat complicația sindromului Bouveret – ileusul biliar, lichidarea fistulei colecisto-gastrice, colecistectomia. Astfel au fost lichidați factorii, care au dus la complicații, asigurând profilaxia posibilelor complicații ulterioare.

### Concluzii

- 1) Sindromul Bouveret reprezintă o entitate nozologică rară cu un tablou clinic incert.
- 2) Examenul radiologic permite suspectarea sindromului Bouveret, iar persistența clinicii de ileus biliar impune tratamentul chirurgical.
- 3) Alegerea volumului intervenției depinde de starea pacientului, vârsta, prezența sau lipsa patologiilor concomitente, timpul scurs de la debutul bolii.
- 4) În cazul stării satisfăcătoare sau medii, e posibilă efectuarea triplei operații cu lichidarea cauzei recidivei ileusului sau declanșarea colangitei.

### References

1. Bajrachraya A, Pathania OP, Adhikary S, et al. A case of colonic gallstone ileus with a spontaneous evacuation. *Health Renaissance*. 2011;9(1):47-49.
2. Brooks Brennan G, Rosenberg Robert D, Sanjeev Arora. Bouveret Syndrome. *RSNA*. 2004.
3. Ah-Chong K, Leong YP. Gastric outlet obstruction due to gall stones (Bouveret syndrome). *Postgraduate Medical Journal*. 1987;63:909-910.
4. Doko Marko, Zovac Mario, Kopljar Mario, et al. Comparison of Surgical Treatments of Gallstone Ileus: Preliminary Report. *World J. Surg*. 2003;27:400-404.
5. Doyceva Iliana, Limaye Alpina, Suman Amitabh, et al. Bouveret's Syndrome: Case Report and Review of the Literature. Hindawi Publishing Corporation. *Gastroenterology Research and Practice*. 2009. Article ID 914961, 4 pages. doi:10.1155/2009/914951.
6. Dowse JLA. Spontaneous internal biliary fistulae. *Gut*. 1964;5:429.
7. Feges R, Kuruksai G, Szekely A, et al. Gallstone Ileus, Bouveret's Syndrome and Cholelithiasis in a Patient with Billroth II Gastrectomy - A Case Report of Combined Endoscopic and Surgical Therapy. *Case Reports in Gastroenterology*. 2010;4:71-78. Doi:10.1159/000208993.
8. Gibbons CP, Ross B. Cholecystoduodenocolic fistula and gallstone ileus. *Postgraduate Medical Journal*. 1984;60:698-699.
9. Iancu Cornel, Bodea Raluca, Al Hajjar Nadim, et al. Bouveret Syndrome Associated with Acute Gangrenous Cholecystitis. *J Gastrointest Liver Dis*. 2008;17(1):87-90.
10. Giese Arnd, Zieren Jurgen, Winnekendonk Guido, et al. Development of a duodenal gallstone ileus with gastric outlet obstruction (Bouveret syndrome) four months after successful treatment of symptomatic gallstone disease with cholecystitis and cholangitis: a case report. *Journal of Medical Case Reports*. 2010;4:376-381.
11. Kavuturu S, Parithivel V, Cosgrove J. Bouveret's syndrome: A rare presentation of gallstone disease. *OPUS 12 Scientist*. 2008;2(2):25-26.
12. Koulaouzidis Anastasios, Moscos John. Bouveret's syndrome. Narrative review. *Annals of Hepatology*. 2007;6(2):89-91.
13. Moschos John, Pilpilidis Ioannis, Antonopoulos Zissis, et al. Complicated Endoscopic Management of Bouveret's syndrome. A Case Report and Review. *Romanian Journal of Gastroenterology*. 2005;14(1):75-77.
14. Raiford Theodore S. Intestinal Obstruction Due Gallstones (Gallstone Ileus). *Annals of Surgery*. 1961;830-838.
15. Ravikumar Reena, Williams J. Graham. The operative management of gallstone ileus. *Ann R Coll Surg Engl*. 2010;92:279-281.
16. Rehman Abdul, Hasan Zubair, Saeed Aisha, et al. Bouveret's syndrome. *Journal of the College of Physicians and Surgeons Pakistan*. 2008;18(7):435-437.
17. Schweiger Franzjosef, Shinder Rowen. Duodenal obstruction by gallstone (Bouveret's syndrome) managed by endoscopic stone extraction: A case report and review. *Can J Gastroenterol*. 1997;11(6):493-496.
18. Szajnbock Israel, Lorenzi Fernando, Rodrigues Jr. Aldo Junqueira, et al. Gallstone ileus as a cause of upper intestinal obstruction. *Sao Paulo Medical Journal/RPM*. 1996;114(4):1239-1243.
19. Tănăsescu C, Orga-Dimitriu D, Teodoru Minodora, ș. a. Ileusul biliar – atitudine terapeutică în urgență [Biliary ileus. The emergency therapeutic attitude]. *AMT*. 2012;2(2):35-36.
20. Yu Chin-Yung, Chang-Chyi, Shyu Rong-yaun, et al. Value of CT in the diagnosis and management of gallstone ileus. *World J Gastroenterol*. 2005;11(14):2142-2147.

