

Librăria de cazuri clinice ale absolvenților Seminarelor Medicale de la Salzburg. Secțiune sub egida Fundației Americano-Austriece (AAF) și a Institutului Medical Deschis (OMI).



OPEN MEDICAL INSTITUTE
Medical Education Beyond Borders

PREZENTARE DE CAZ

Echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice: prezentare de caz

Angel Uchikov^{1†}, Ekaterina Uchikova^{2†},
Velizar Hadzhiminev^{3†*}

¹Universitatea de Medicină din Plovdiv, Departamentul de chirurgie, Plovdiv, Bulgaria;

²Universitatea de Medicină din Plovdiv, Departamentul de obstetrică și ginecologie, Plovdiv, Bulgaria;

³Spitalul Universitar „Sveti Georgi”, Clinica de chirurgie toracică și abdominală, Plovdiv, Bulgaria.

Autor corespondent:

Dr. Velizar Hadzhiminev, MD

Clinica de chirurgie toracică și abdominală

Spitalul Universitar „Sveti Georgi”

66, Peshtersko Road ave., Plovdiv, Bulgaria

e-mail: v.hadjiminev@abv.bg

Ce nu este cunoscut, deocamdată, la subiectul abordat

Echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice este foarte rar descrisă în literatură.

Ipoteza de cercetare

Prezentarea unui caz clinic de echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice.

Noutatea adusă literaturii științifice din domeniu

Este al doilea caz de echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice, descris în Bulgaria (primul fiind raportat în anul 1953).

Rezumat

Introducere. Echinococoză continuă să fie endemică în Bulgaria. Cea mai frecventă formă este cea hepatică.

Prezentare de caz. Noi raportăm un caz rar de echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice la o pacientă de 70 de ani, cu anamnezic de febră înaltă, icter, greață, vomă și durere în etajul superior al abdomenului, pe parcursul a 10 zile. A fost descoperit un chist hidatic complicat, de dimensiuni mari, în lobul stâng al ficatului, fără comunicare cu arborele biliar. S-a efectuat explorarea căilor biliare, capitonarea chistului hepatic, colecistectomie și coledoco-duodenostomie. Nu a fost înregistrată nicio complicație.

Library of clinical cases of Salzburg Medical Seminars Alumni. Section under the auspices of the American-Austrian Foundation (AAF) and Open Medical Institute (OMI).



OPEN MEDICAL INSTITUTE
Medical Education Beyond Borders

CASE REPORT

A primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts: case report

Angel Uchikov^{1†}, Ekaterina Uchikova^{2†},
Velizar Hadzhiminev^{3†*}

¹Medical University of Plovdiv, Surgery Department, Plovdiv, Bulgaria;

²Medical University of Plovdiv, Obstetrics and Gynecology Department, Plovdiv, Bulgaria;

³University Hospital “Sveti Georgi”, Clinic of abdominal and thoracic surgery, Plovdiv, Bulgaria.

Corresponding author:

Dr. Velizar Hadzhiminev, MD

Clinic of abdominal and thoracic surgery

University hospital „Sveti Georgi”

66, Peshtersko Road ave., Plovdiv, Bulgaria

e-mail: v.hadjiminev@abv.bg

What is not known yet, about the topic

Primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts is rarely described in literature.

Research hypothesis

Case report of a primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts.

Article's added novelty on this scientific topic

It is the second case of primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts described in Bulgaria (the first case was reported in 1953).

Abstract

Introduction. Echinococcosis is still endemic in Bulgaria. The most common site of the hydatid cysts is the liver.

Case presentation. We report on a rare case of a primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts in a 70 years old female patient with history of high fever, jaundice, nausea, vomiting and pain in the upper abdomen lasting for 10 days. We found a big complicated hydatid cyst in the left liver lobe without communication with the bile tree. Exploration of the bile ducts, capitonnage of the liver cyst, cholecystectomy and choledoco-duodenostomy were performed. We didn't have any complications.

Discuții. Echinococoză primară a căilor extrahepatice este foarte rară. Cazul nostru este al doilea, descris în Bulgaria. Tratamentul patologiei depinde de stadiu, localizare, dimensiune și de complicațiile chistului.

Concluzii. Tratamentul chirurgical și terapia postoperatorie cu albendazol rămân a fi cele mai bune opțiuni terapeutice.

Cuvinte cheie: echinococoză primară, ducturi biliare extrahepatice.

Introducere

Chistul hidatic este o zoonoză, produsă de parazitul intestinal din familia teniidelor, *Echinococcus granulosus* [1]. Pe mapamond, acest parazit este cel mai des întâlnit în regiunea mediteraneană, în Orient, estul mijlociu și sud-estul Europei, America de Sud, Australia și Noua Zeelandă [2]. Review-urile arată că, cel mai frecvent afectate sunt ficatul (60-70%) și plămâni (15%), dar această patologie poate fi întâlnită în oricare altă parte a corpului [1, 2].

Un diagnostic definitiv impune o combinație de investigații imagistice, serologice și imunologice. Tratamentul chirurgical este de elecție, însă managementul echinococozei hepatice devine tot mai mult conservativ [3]. Chistul hidatic continuă să fie o patologie endemică în Bulgaria, care, în 2011, a înregistrat cea mai mare incidență dintre țările Uniunii Europene [4].

În continuare, vom raporta un caz clinic de echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice.

Prezentare de caz

Pacienta în vârstă de 70 de ani, a fost internată în Departamentul de chirurgie a Spitalului Universitar „Sveti Georgi”, cu următoarele acuze: febră înaltă, icter, greață, vomă și durere în etajul superior al abdomenului în ultimele 10 zile. Examinarea clinică a dezvăluit o formațiune palpabilă, dureroasă, cu pereți îngroșați în regiunea epigastrică.

Testele de laborator relevante la momentul internării au fost următoarele: leucocite – 14.000 /mm³, hemoglobina – 109 g/L, bilirubina totală – 55,8 U/L, bilirubina directă – 37,3 U/L, amilaza serică – 2572 U/L, proteina C reactivă – 40 mg/dL. Testul ELISA a fost pozitiv pentru echinococ.

Ultrasonografia și radiografia abdominală au demonstrat un chist hidatic uriaș, calcificat, cu diametrul de 12 cm în lobul hepatic stâng (Figura 1). La fel, au fost constatate hidropsul vezicii biliare și calculi în interior.

S-a efectuat laparotomie superioară mediană. Explorarea abdomene-

Discussion. A primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts is very rare. Our case was the second of the kind described in Bulgaria. The treatment of the disease depends on the stage, the localization, the size and the complications of the cysts.

Conclusions. Surgical treatment and postoperative therapy with albendazole remain the best treatment options.

Key words: primary echinococcosis, extrahepatic bile ducts.

Introduction

Cyst echinococcosis is a zoonosis produced by the parasitic tapeworm, *Echinococcus granulosus* [1]. Worldwide, the disease is commonly met in the Mediterranean region, the Orient, Middle East, Southeast of Europe, South America, Australia and New Zealand [2]. Reviews show that the most frequently involved organs are liver (60-75%) and lungs (15%), but it can be located in any part of the body [1, 2].

A definitive diagnosis requires a combination of imaging, serologic and immunologic studies. Surgery remains the treatment of choice but the management of liver echinococcosis becomes increasingly more conservative [3]. Hepatic hydatid disease is still endemic in Bulgaria. In 2011, our country had the highest incidence in the European Union [4].

Herein, we report on a rare case of a primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts.

Case presentation

A 70 years old female was admitted to the department of surgery of the University Hospital “Sveti Georgi”, presenting with high fever, jaundice, nausea, vomiting and pain in the upper abdomen lasting for 10 days. The clinical examination revealed a palpable, thick walled, painful formation in the epigastric area. Relevant laboratory findings at the time of admission were following: WBC – 14,000 /mm³, hemoglobin – 109 g/L, total bilirubin – 55.8 U/L, direct bilirubin – 37.3 U/L, serum amylase – 2572 U/L, C-reactive protein – 40 mg/dL. ELISA test was positive for echinococcosis.

Abdominal ultrasonography and X-ray demonstrated a giant calcified hydatid cyst measuring 12 cm in diameter in the left liver lobe (Figure 1). Hydrops of the gallbladder with concretions inside was also detected.

Superior median laparotomy was performed. The exploration of the abdomen revealed a huge suppurated hydatid cyst of the liver (engaged



Fig. 1 Radiografia abdominală (chist hidatic gigant în lobul hepatic stâng).

Fig. 1 Abdominal X-ray which shows a giant hidatic cyst in the left hepatic lobe.

nului a dezvoltat un chist hidatic supurat, gigant, ce implica segmentele 2 și 3 hepatice, ferm aderent la stomac. Chistul a fost plin de puroi și de chisturi-fiice devitalizate. Conținutul chistului a fost evacuat, iar în interior a fost introdus albastru de metilen. Nu au fost detectate fistule între chist și sistemul hepatobiliar.

Au fost explorate vezica biliară, care era tensionată, duodenumul și ductul biliar comun, care toate au fost pline de chisturi-fiice vii (2-15 mm în diametru). S-a efectuat colecistectomia și coledoco-duodenostomia (Figura 2). Chistul hidatic a fost tratat cu lavaj cu agent scoloid, capitonaj și omentoplastie. Pacienta a fost externată după 8 zile, afebrilă, cu icter redus. Postoperatoriu, a fost prescris un tratament cu albendazol (Zentel) pentru o durată de 3 luni.

Discuții

Echinococoză este o patologie deocamdată prezentă la noi în țară (*Bulgaria – nota red.*), iar ficatul este organul cel mai frecvent afectat [1, 2]. Formarea unei comunicări dintre chistul hidatic și arborele biliar este una din complicațiile acestei patologii, care a fost raportată, anterior, prin intermediul a câteva cazuri clinice [3, 5, 6]. Echinococoză primară a ducturilor biliare extrahepatice este foarte rară. Primul caz de acest tip a fost publicat în Bulgaria, în anul 1953 [7].

Noi am prezentat un caz de chist hidatic complicat, de dimensiuni mari, localizat în lobul stâng al ficatului (segmentele 2 și 3), fără comunicare cu arborele biliar extrahepatice. Dar, chistul în cauză nu explică formațiunile din vezica biliară și duodenum – multiple chisturi vii, ce produceau icter mecanic (obstrucțiv). Noi considerăm că acest tip de echinococoză primară a căilor biliare extrahepatice este unul foarte rar. Cazul nostru a fost al doilea caz, descris în Bulgaria. Din acest motiv, nu am dispus de alte date, pentru a compara rezultatele intra și postoperatorii. În schimb, Correa S. *et al.* (2001), au descris un caz de echinococoză a căilor biliare extrahepatice în Peru. Ei au efectuat lobectomie, explorarea căilor biliare, sfincteroplastie transduodenală și colecistectomie, cu rezultate postoperatorii foarte bune [8].

Tratamentul echinococozei hepatice depinde de stadiul, localizarea, dimensiunea și complicațiile chistului. Tratamentul implică metode chirurgicale și nechirurgicale. Metodele chirurgicale includ chist-perichist-ectomia totală sau subtotală, hepatectomia parțială, capitonajul, omentoplastia, utilizarea tubului T pentru drenaj și/sau pentru diferite anastomoze biliodigestive [9, 10].

În cazul nostru, luând în considerație

2nd and 3rd segments), firmly adhered to the stomach. The cyst was full of pus and devitalized “daughter cysts”. Its content was evacuated and methylene-blue was applied inside the cavity. No fistulas between the cyst and the hepatobiliary system were detected.

The tense gallbladder and the dilated common bile duct were explored. Each of them was full of many vital “daughter cysts” (2-15 mm in diameter), including the duodenum. Cholecystectomy and choledocho-duodenostomy were performed (Figure 2). The hydatid cyst was treated by scoloidal lavage, capitonnage and omentoplasty. The patient was discharged from the hospital after 8 days, afebrile and with reduction of the jaundice. Postoperative treatment with albendazole (Zentel) was prescribed for 3 months.

Discussion

Echinococcal disease is still presented in our country and the liver is the most common site of the hydatid cyst formations [1, 2]. Communication between hydatid cyst and biliary tree is one of the possible complications of the disease, reported in several case reports [3, 5, 6]. A primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts is very rare. The first such a case is published in Bulgaria in 1953 [7].

We presented a case of a big, complicated hydatid cyst of the left lobe of the liver (2nd and 3rd segments), without established communication with the extrahepatic bile tree. The cyst could not explain the findings in the gallbladder, the common bile duct and the duodenum – many vital echinococcal cysts causing obstructive jaundice. We considered that it was a very rare type of a primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts. Our case was the second of the kind described in Bulgaria. Because of that we did not have data-base to compare our operative and postoperative results with. Correa S. *et al.* (2011) described a case of echinococcosis of the extrahepatic bile ducts in Peru. They performed left lobectomy, exploration of the biliary ducts, transduodenal sphincteroplasty and cholecystectomy with very good postoperative results [8].

The treatment of the hepatic echinococcosis depends on the stage, the localization, the size and the complications of the cysts. It consists of nonoperative and operative methods. The operative methods include total or subtotal cyst-pericystectomy, partial hepatectomy, capitonnage, omentoplasty, usage of T-tube drainage and/or different biliodigestive anastomosis [9, 10].

In our case, considering the age of the patient (70 years), the comorbidities and

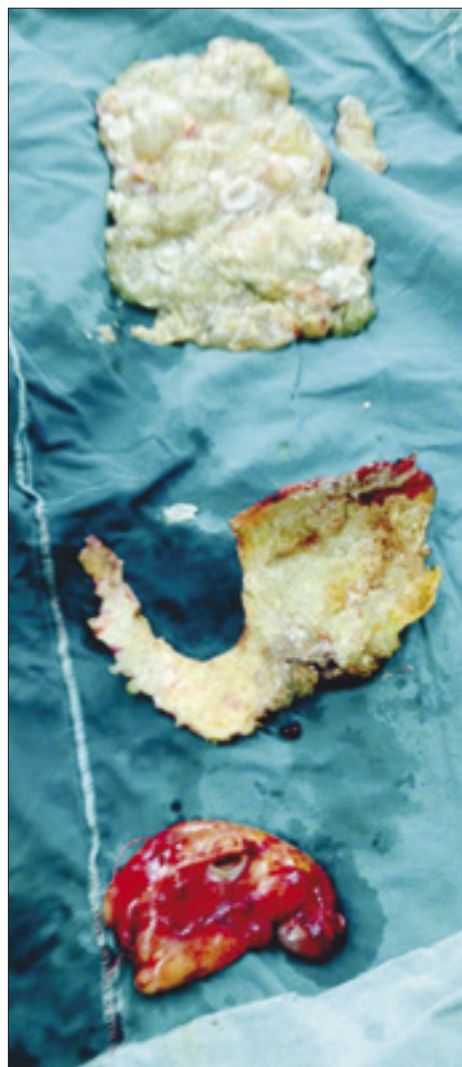


Fig. 2 Piese operatorii ale cazului prezentat.

Fig. 2 Surgical pieces from the presented case.

vârsta pacientei (70 de ani), comorbiditățile și coledocul dilatat, a fost efectuată doar colecistectomia și coledoco-duodenostomia. Nu au fost atestate complicații. Albendazolul rămâne un remediu medicamentos foarte important pentru terapia postoperatorie.

Concluzii

A fost prezentat un caz rar de echinococoză primară a ducturilor biliare extrahepatice. Tratamentul chirurgical și terapia postoperatorie cu albendazol rămân opțiunile terapeutice cele mai bune.

Declarația de conflict de interese

Autorii declară lipsa conflictelor de interese.

Contribuția autorilor

Toți autorii au participat în mod egal la gestionarea și prezentarea cazului clinic dat.

the dilated ductus choledochus, cholecystectomy and choledochoduodenostomy were performed.

We didn't have any complications. Albendazole should be considered as an important drug to the postoperative therapy.

Conclusions

We report a rare case of a primary echinococcosis of the extrahepatic bile ducts. Surgical treatment and postoperative therapy with albendazole remain the best treatment options.

Declaration of conflicting interests

Authors declare no conflict of interests.

Authors' contribution

All the authors participated equally in the management and presenting the clinical case.

Referințe / references

- Marti-Bonmati L., Menor F., Ballesta A. Hydatid cyst of the liver: rupture into the biliary tree. *AJR*, 1988; 150: 1051-1053.
- Sparchez Z., Osian G., Onica A., Barbanta C., Tantau M., Pascu O. Ruptured hydatid cyst of the liver with biliary obstruction: presentation of a case and review of the literature. *Romanian Journal of Gastroenterology*, 2004; 13 (3): 245-250.
- Baraket O., Feki M., Chaari M., Saidani A. et al. Hydatid cyst open in biliary tract: therapeutic approaches. Report of 22 cases. *Journal of Visceral Surgery*, 2011; 148: xxx.e211-xxx.e216;
- European Center for Disease Prevention and Control. Annual Epidemiological report. Available from: <http://ecdc.europa.eu/en/healthtopics/echinococcosis/pages/index.aspx>.
- Prousalidis J., Kosmidis Ch., Kapoutzis K., Fachantidis E., Harlaftis N., Aletras H. Intrabiliary rupture of hydatid cyst of the liver. *The American Journal of Surgery*, 2009; 197: 193-198;
- Baev B., Vasilev I. Echinococcosis of the extrahepatic bile ducts. *Khirurgiia (Sofia)*, 1953; 6(5): 272-8;
- Busic Z., Amic E., Servis D., Predrijevac M., Stipancic I., Busic D. Common bile duct obstruction caused by the hydatid daughter cysts. *Coll Antropol*, 2004; 28 (1): 325-329.
- Correa Tineo S., Marroquin Vals H., Pinto Paz M., Culqui Levano C., Salinas Alva E. Echinococcosis of intra- and extrahepatic bile ducts. Report of a case at Central Military Hospital. *Rev Gastroenterol Peru*, 2001; 21 (1): 67-72.
- Ettore G., Vennarecci G., Santoro R. et al. Giant hydatid cyst of the liver with a retroperitoneal growth: a case report. *Journal of Medical Case Reports*, 2012; 6: 298.
- Elbir O., Gundogan H., Caglikulekci M. et al. Surgical treatment of intrabiliary rupture of hydatid cyst of liver: comparison of choledochoduodenostomy with T-tube drainage. *Dig Surg*, 2001; 18: 289-293.