

Fístula biliopleural postraumática: serie de casos de una complicación muy poco frecuente

Post-traumatic pleurobiliary fistula: a case series of a rare complication

Ignacio Sastre  , Luis E. Moulin  , Camila Battu  , Gustavo Theiler  , Bruno Moroni  , Héctor Francia 

Servicio de Cirugía
General y Mixta,
Hospital Provincial José
María Cullen, Santa Fe.
Argentina

Los autores declaran no
tener conflictos
de interés.
Conflicts of interest
None declared.

Correspondencia
Correspondence:
Ignacio Sastre,
E-mail:
ignaciosastrecirugia@gmail.com

RESUMEN

Antecedentes: la fistula biliopleural (FBP) es una complicación poco común del traumatismo torácico-abdominal que se confirma demostrando la presencia de bilis en el líquido pleural.

Objetivo: analizar el manejo y tratamiento realizado de las fistulas biliopleurales producto del traumatismo torácico-abdominal abierto y los resultados, comparar con la literatura y proponer algoritmo de tratamiento.

Material y métodos: trabajo retrospectivo y descriptivo mediante la revisión de 5688 historias clínicas de pacientes, de los cuales 614 tenían compromiso de la región torácica abdominal, en el Hospital José María Cullen, Santa Fe, Argentina, Centro de Trauma Nivel 1, en el período comprendido entre enero de 2010 y enero de 2016. Se analizaron los datos demográficos, cinemática del traumatismo, diagnóstico, tratamiento y evolución.

Resultados: se encontraron 7 casos de FBP. Todos fueron varones jóvenes con traumatismo abierto. Se realizó drenaje pleural como tratamiento inicial en 4 casos; en 2, drenaje pleural y laparotomía exploradora y en 1 toracotomía de urgencia. Dos casos resolvieron solo con el drenaje pleural. En 5 casos se efectuó drenaje de la vía biliar mediante colangiopancreatografía retrógrada endoscópica con esfinterotomía. En 2 de ellos, además, se colocó un stent biliar. Dos de los 5 necesitaron drenaje percutáneo. Por último, 2 casos requirieron toracotomía y 1 de estos, pleurostomía abierta. Todos resolvieron la afección con morbilidad aceptable, sin mortalidad.

Conclusión: en la práctica quirúrgica actual, la amplia disponibilidad de endoscopia intervencionista ha mejorado el enfoque invasivo mínimo para el manejo de las fistulas biliopleurales. Se reserva el manejo quirúrgico para aquellas que no responden al tratamiento invasivo mínimo o para las fistulas complicadas, o para ambas.

■ **Palabras clave:** *fistula, fistula biliar, trauma, drenaje, pleura.*

ABSTRACT

Background: Pleurobiliary fistula is a rare complication of thoraco-abdominal trauma that is confirmed by the presence of bilirubin in pleural fluid.

Objective: The aim of this study is to analyze the management and treatment performed to patients with pleurobiliary fistula due to penetrating thoracoabdominal injury and their results, compare them with the published literature, and propose a treatment algorithm.

Material and methods: For this descriptive and retrospective study, we reviewed 5688 medical records of patients admitted to Hospital José María Cullen, Santa Fe, Argentina, Centro de Trauma Nivel 1 between January 2010 and January 2016; 614 had involvement of the thoracic and abdominal region. The demographic data, kinematics of trauma, diagnosis, treatment and patient progress were analyzed.

Results: Seven cases of pleurobiliary fistula were found. All the patients were men with penetrating trauma. Pleural drainage was the initial treatment in 4 cases, 2 patients underwent pleural drainage and exploratory laparotomy and 1 patient underwent urgent thoracotomy. Two cases resolved with pleural drainage alone. Five patients require biliary drainage through endoscopic retrograde cholangiopancreatography with sphincterotomy. Two of these patients also required biliary stenting and 2 also underwent percutaneous drainage. Finally, 2 patients required thoracotomy, 1 of them with open pleurostomy. The fistulae resolved in all the cases with acceptable morbidity. None of them died.

Conclusion: In current surgical practice, the wide availability of interventional endoscopy has improved the minimally invasive approach for the management of PBF. Surgical management should be limited to fistulae not responding to less invasive treatments or to complicated fistulae.

■ **Keywords:** *fistula, biliary fistula, trauma, drainage, pleura.*

Introducción

La fístula biliopleural (FBP) es una enfermedad poco común, descripta como una complicación que se origina por diversas causas que podemos agrupar de la siguiente manera: fistulas congénitas, secundarias a enfermedad hepática hidatídica o absceso hepático, obstrucción del tracto biliar, postraumáticas, iatrogénicas (resección hepática, ablación por radiofrecuencia, estenosis biliar, irradiación, drenaje biliar, etc.)^{1,2}. Fue descripta por primera vez por Graham en 1897³. Representa un muy bajo porcentaje (0-2%) de las complicaciones del trauma penetrante con lesión hepática asociada¹¹. Los informes sobre esta condición han sido en gran parte con forma de “reporte” de casos. Por lo tanto, no es sorprendente que falten pautas claras para el tratamiento óptimo de las FBP. Rothberg y col.¹ comunicaron en 1994 que, hasta ese momento, se encontraban descriptos solo 34 casos. Andrade-Alegre y Ruiz-Valdés² agregaron 33 casos más, contando los de su serie de casos. El signo cardinal consiste en el derrame pleural postraumático que contiene líquido biliar. El dosaje de bilirrubina en el líquido permite la confirmación objetiva de la FBP². La tomografía computarizada (TC) y la ecografía son los métodos de elección para descartar complicaciones asociadas, como abscesos y colecciones pleurales, biliares intrahepáticos o subfrénicos, y sirven de guía para realizar el drenaje por vía percutánea si fuere necesario^{2,3,5}. Ambos métodos no son de utilidad para delimitar la localización anatómica exacta de la fístula, que es necesaria para determinar la conducta terapéutica por seguir. El método de elección para valorar el árbol biliar es la colangiopancreatografía retrógrada endoscópica (CPRE)⁴. El tratamiento de la FBP tradicionalmente implica una conducta quirúrgica agresiva, con laparotomía exploradora, derivación o drenaje de la vía biliar, lavado de cavidad abdominal y toracotomía con reparación del diafragma. Sin embargo, con el advenimiento de la endoscopia, la radiología intervencionista y las técnicas minimivvasivas, el tratamiento ha variado y se ha convertido en un reto para el cirujano de trauma^{6,8}. Se presenta aquí una serie de casos, con el objetivo de analizar el tratamiento realizado de las FBP producto del traumatismo torácico-abdominal abierto y los resultados, comparar con la literatura y proponer un algoritmo de tratamiento.

Material y métodos

Se diseñó un trabajo descriptivo y retrospectivo mediante la revisión de las historias clínicas de pacientes ingresados con traumatismo penetrante por herida de arma blanca (HAB) y herida de arma de fuego (HAF), al Hospital José María Cullen, Santa Fe, Argentina, Centro de Trauma Nivel 1, en el período comprendido entre enero de 2010 y enero de 2016. Se analizaron los datos demográficos, cinemática del trauma,

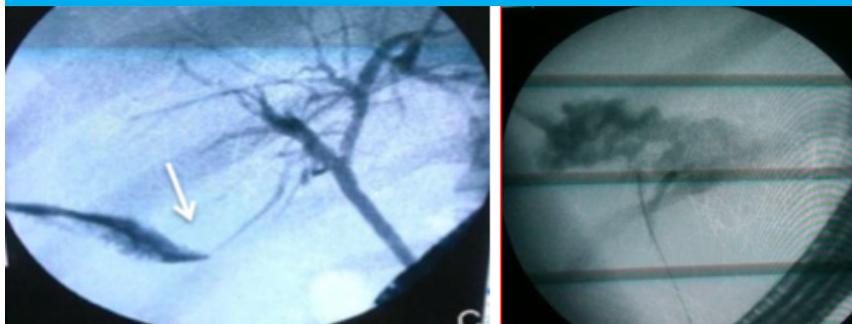
diagnóstico, tratamiento y evolución. Todas las lesiones hepáticas fueron clasificadas de acuerdo con los grados de lesión definidos por la Asociación Americana de Cirugía del Trauma, mediante tomografía computarizada o por laparotomía. Todos los pacientes fueron evaluados y reanimados en el “shock room” siguiendo las pautas de soporte vital avanzado para trauma (ATLS). La decisión de la conducta inicial fue tomada por el cirujano de trauma de guardia, en conjunto con los residentes de Cirugía General. Las conductas posteriores fueron evaluadas por todo el Servicio de Cirugía General. Rutinariamente se realiza TC sistemática de cuerpo entero o toracoabdominal a los paciente traumatizados estables hemodinámicamente. Al no contar con médico especialista en imágenes de guardia activa, las lesiones fueron clasificadas por el cirujano de trauma de guardia. El diagnóstico de FBP se realizó con la observación de líquido bilioso por el drenaje pleural y se confirmó con el dosaje de bilirrubina. Los tratamientos propuestos fueron: drenaje pleural (DP), DP y drenaje de la vía biliar (endoscópico o percutáneo), y toracotomía y/o laparotomía. Se evaluaron también la estadía hospitalaria, la morbilidad y mortalidad.

Resultados

Se revisaron 5688 historias clínicas, de las cuales 614 tenían compromiso de la región torácica abdominal. Fueron encontrados 7 casos de FBP, lo que corresponde a una incidencia de 1,1%. Todos se diagnosticaron con dosaje de bilirrubina en líquido pleural. El sexo, la causa y mecanismo de lesión se resumen en la tabla 1; la media de edad fue 26 años (rango 18-32). En 4 casos, el tratamiento inicial posterior al trauma fue la colocación de tubo de DP. En 2 casos se realizó DP + laparotomía, por sospecha de lesiones asociadas, y en 1 caso fue necesaria una toracotomía de urgencia con sutura diafragmática y posterior DP. En la totalidad de los pacientes se constató bilirragia por el DP entre el 2º y 6º (media 4,2) día de la intervención. La CPRE se efectuó en 5 casos entre el 3º y 5º día posteriores al diagnóstico y se llevó a cabo en los pacientes en los cuales el débito bilioso por el DP se prolongó por más de 72 horas (Fig. 1). A todos estos se les practicó, durante el procedimiento, esfinterotomía amplia, y en 2 de ellos se dejó ofrecida una prótesis biliar plástica. Un paciente presentó elevación de amilasa sérica posterior al procedimiento, pero se mantuvo asintomático y evolucionó favorablemente, con normalización de la amilasa al 4º día posprocedimiento. Las prótesis fueron removidas luego 8 semanas de resuelta la fístula, sin complicaciones. En otros 2 casos de los 5 sometidos a CPRE fue necesario realizar drenaje percutáneo guiado por ecografía durante la internación, por colecciones intraabdominales subfrénicas derechas.

De la totalidad de los pacientes de la serie, 2 requirieron toracotomía por persistencia de la bilirra-

■ FIGURA 1



Imágenes de colangiopancreatografía endoscópica retrógrada donde se observan fugas biliares.

gia y sepsis, a pesar de los tratamientos instaurados, en los cuales se realizó decorticación, lavado de cavidad pleural y sutura de la brecha diafragmática. De estos, 1 requirió luego una pleurostomía abierta, por empiema crónico asociado a sepsis.

No se observó mortalidad en la serie y el tiempo promedio de resolución fue de 7 a 45 días, pero 2 casos requirieron tratamiento antibiótico prolongado. Los datos se resumen en las tablas 2 y 3.

Discusión

La FBP se ha mostrado en nuestro Servicio como una complicación de los traumatismos torácico-abdominales abiertos. Son considerablemente poco frecuentes después del traumatismo en general y resultan de la combinación de un conducto intrahepático lesionado, una lesión diafragmática no vista o tratada inapropiadamente y la fuga de bilis en el espacio pleural o en el sistema bronquial, potenciada por el gradiente de presión entre el abdomen y la cavidad pleural¹³. Anderson encontró solo 3 casos de fistula toracobiliar en una revisión de 1767 casos de heridas torácico-abdominales de la Primera Guerra Mundial y el conflicto coreano. Carroll y col. informaron solo 5 casos de 254 pacientes con lesión hepática traumática en Vietnam, y Trunkey y col. describieron solo 1 caso de 811 pacientes consecutivos tratados en un centro de trauma mayor^{1,4,7}. En la literatura hemos encontrado descriptos 71 casos de FBP postraumáticas. Nuestra incidencia fue de 7 casos en 614 pacientes con HAF y HAB, que equivale a un 1,1%. Ivatury y col. señalaron una incidencia de 0-2%¹⁰ (Tabla 4). Las complicaciones relacionadas con el traumatismo hepático, como las fistulas biliares, hematomas hepáticos, bilio y hemoperitoneo, ocurren entre el 3 y el 5% y se consideran un factor predisponente para el desarrollo de las FBP¹³. Sumada a esto, en ocasiones, puede pasar inadvertida en el traumatismo una lesión diafragmática^{4,9,10,13}. La FBP postraumática se genera más frecuentemente en el sexo masculino, en pa-

■ TABLA 1

Datos demográficos de los casos

Paciente	Edad	Sexo	Mecanismo	Grado de lesión hepática*
A	18	Varón	HAF	III
B	25	Varón	HAF	III
C	27	Varón	HAB	II
D	31	Varón	HAB	II
E	19	Varón	HAF	III
F	30	Varón	HAF	IV
G	32	Varón	HAF	III

*Clasificación de la Asociación Norteamericana de Cirugía del Trauma.
HAF, herida por arma de fuego; HAB, herida por arma blanca.

■ TABLA 2

Tratamiento recibido por los pacientes

Paciente	DP	CPRE + Esfínter	CPRE + Esfínter + Stent	Drenaje Percutáneo	Toracotomía
A	+				
B	+				
C	+	+			
D	+	+			
E	+	+		+	
F	+		+	+	+
G	+		+		+

DP, Drenaje pleural

■ TABLA 3

Morbimortalidad asociada a FBP

Morbilidad	Tratamiento	Mortalidad
Empiema + Peel (n =2)	Toracotomía (n =2) Toracostomía (n =1)	0
Colección intraabdominal (n =2)	Drenaje percutáneo	0
Sepsis (n =2) SAMR <i>Acinetobacter sp.</i>	Antibioticoterapia IV prolongada	0

SAMR, *Staphylococcus aureus* resistente a la meticilina; IV, intravenosa.

cientes jóvenes y en el traumatismo penetrante, lo que coincide con nuestra serie de casos^{1, 2, 10}. El espectro de FBP postraumáticas varía desde pequeños derrames pleurales teñidos de bilis que se resuelven después del DP, como describe Avraham⁶ y ocurre en 2 pacientes de nuestra serie, hasta grandes fistulas sintomáticas, infectadas y persistentes, que implican un tratamiento más complejo. El ascenso de la bilis a la cavidad pleural puede darse en distinto tiempo según el grado de las lesiones y se observa más frecuentemente asociado a lesiones GIII, según nuestra serie. Se manifiestan normalmente dentro de la semana de ocurrida la lesión, con lo cual concordamos, pero diversos autores han descripto aparición más tardía, con un rango entre 2 y 73 días¹⁰. El diagnóstico se realiza con la observación macroscópi-

ca de bilis a través del DP. La confirmación mediante el dosaje de bilirrubina en el líquido del derrame, si bien lo hemos realizado a todos los pacientes de la serie, y es un dato objetivo, creemos no es estrictamente necesario, como lo muestra la mayoría de los informes.

Existen dos tipos de tratamiento para la FBP que, en general, las publicaciones los llaman "quirúrgico" y "conservador", pero nos parece más preciso denominarlos: quirúrgico agresivo y quirúrgico menos invasivo o invasivo mínimo. La mayoría de las publicaciones iniciales con respecto a las FBP adherían a realizar un tratamiento quirúrgico agresivo desde el comienzo. De hecho, en 1967, Ferguson y Burford¹² publicaron los pasos necesarios para un tratamiento exitoso de la FBP: tratamiento agresivo con toracotomía temprana, sutura diafragmática con hilo no absorbible, decorticación, de ser necesario lobectomía en caso de fistula bilio-bronquial y descompresión profiláctica del árbol biliar. Pero en la última década del siglo XX, comenzaron a aparecer informes que apoyan y avalan el tratamiento menos invasivo. Entonces empiezan a tomar gran valor el drenaje y la descompresión de la vía biliar a través de procedimientos percutáneos y endoscópicos, como primera línea de tratamiento en los pacientes con diagnóstico de FBP. Tres conceptos son importantes en el manejo de las FBP: localización de la fuga, drenaje adecuado, tanto pleural como de las colecciones subfrénicas, y descompresión del árbol biliar^{7, 9}. El mejor estudio por imagen para definir el traumatismo de los conductos biliares es la colangiografía y se puede realizar de manera intraoperatoria, endoscópica (CPRE) o por abordaje percutáneo transhepático⁹. Han demostrado también utilidad la conlangiorresonancia y la centellografía hepatobiliar para identificar fugas biliares con alta sensibilidad, tal como describen en su artículo Singh y col.³. La ecografía y la TC son métodos que se utilizan de forma complementaria para la visualización de la cavidad pleural, el seguimiento de la lesión hepática y de posibles colecciones intraabdominales, y para guiar aquellas que requieran ser drenadas. Es obligado evacuar todo tipo de colecciones pleurales en la FBP. El índice de falla utilizando solo el DP es del 38%^{1, 4}. Se debe acompañar del drenaje de colecciones subfrénicas si existen, y en conjunto pueden ser suficientes para la curación de una FBP. La descompresión de la vía biliar cumple también un papel importante como parte del tratamiento y existen tres formas de realizarla: por cirugía convencional, por vía percutánea y por vía endoscópica. Las últimas dos son parte del tratamiento menos invasivo pero la vía endoscópica es la mejor opción ya que permite delimitar la localización de la fuga y la anatomía biliar, permite evaluar hasta conductos de tercer orden y posibilita intervenciones terapéuticas, tales como la esfinterotomía y la colocación de un stent biliar o una sonda nasobiliar. Esta última, si bien no se usa comúnmente en la práctica endoscópica, se ha descripto para evitar una segunda endoscopia y permitir fácilmente la colangiografía de

■ TABLA 4

Casuística internacional

Autor	Año	Casos	Mecanismo del traumatismo
Graham	1897	1	Cerrado
Tyrman	1909	1	Penetrante
Elliot	1916	1	Penetrante
Loe	1930	1	Penetrante
Guy	1947	2	Penetrante
Sparkman	1954	2	Penetrante
Anderson	1961	2	Penetrante/Cerrado
Merendino	1963	1	Penetrante
Ferguson	1967	4	Cerrado
Mc Clelland	1965	2	S/D
Williams	1971	1	Cerrado
Carroll	1973	5	Penetrante
Trunkey	1974	1	Penetrante
Oparah	1978	4	Penetrante
Oluwole	1980	1	Penetrante
Franklin	1980	1	Penetrante
Cropper	1980	1	Penetrante
Ivatury	1983	3	Penetrante
Coselli	1983	1	Penetrante
Rothberg	1994	1	Penetrante
Sheik-Gafoor	1998	1	Penetrante
Navsaria	2002	1	Penetrante
Singh	2002	3	Penetrante
Bustos ¹⁹	2008	1	Penetrante
Burmeister	2009	22	Penetrante
Ball	2009	1	S/D
Andrade-Ruiz	2013	5	Penetrante
Krithiga ²⁰	2015	1	Cerrado

¹⁹⁻²⁰Véanse referencias bibliográficas, S/D, sin dato disponible.

seguimiento¹³. No existe un momento definido para efectuar la CPRE. Singh y col.³ la hicieron a las 72-96 horas. Burmeister y col.¹³, en su serie de 22 pacientes (11 tratados sin cirugía y 11 con exploración quirúrgica urgente), informaron que la CPRE se realizó a una media de 13,2 días después de la lesión hepática. Nuestro tiempo fue de entre 3 y 5 días posterior al diagnóstico. La esfinterotomía se justifica como procedimiento terapéutico, entendiendo la fisiología del esfínter de Oddi. Geenen y col.¹⁶ observaron que la presión normal del conducto biliar común es de 10 ± 2 mm Hg y la presión basal del esfínter de Oddi es promedio 18 ± 3 mm Hg y notaron que el gradiente común del conducto biliar al duodeno antes de la esfinterotomía era de 10 ± 1 mm Hg, y, dado este gradiente de presión, en un sistema ductal intacto, la bilis fluye a lo largo de la fistula abierta siguiendo el camino de menor resistencia. Después de la esfinterotomía, la presión media del esfínter basal de Oddi disminuye a 1 ± 1 mm Hg, lo que favorece el flujo de bilis hacia el duodeno en lugar de hacia el tracto de la fistula^{4,16}. Nosotros hemos realizado esfinterotomía a todos los pacientes sometidos a CPRE, con buen resultado. Pueden ocurrir algunas complicaciones, como pancreatitis, colangitis, sangrado, perforación duodenal y bloqueo o migración del stent, pero con poca frecuencia; de hecho solo se registró un ascenso del nivel sérico de amilasa en un paciente, pero permaneció asintomático. La colocación de stent biliar temporal ha demostrado que disminuye significativamente la morbilidad y la mortalidad en comparación con la intervención quirúrgica¹⁷. Los stents se retiran después de la curación de la fistula, generalmente dentro de las 6 semanas, lo que corresponde al período de permeabilidad de los stents de pequeño calibre⁹. En este trabajo, los pacientes que recibieron stent resolvieron la fistula con manejo conservador, pero la extracción de los stents se extendió a 8 semanas. Varios informes recientes de algunas series indican éxito en el tratamiento de la FBP en un 97%, combinando la CPRE y la colocación de stent, pero subrayamos la poca casuística de dichas series¹⁰. Como ejemplo, Krige y col.¹⁴ comunicaron la resolución de 20 casos de FBP postraumáticas tratadas con CPRE y esfinterotomía con colocación de stent en 18 enfermos y solo con esfinterotomía en 2 pacientes. Otro tratamiento invasivo mínimo descripto por Giménez y col.¹⁸ y también por Burmester y col.¹³, para el tratamiento de una fistula biliobronquial el primero y para una FBP el segundo, es la embolización por vía percutánea del canalículo biliar periférico que origina la fistula, guiado por radioscopy. Esta técnica podría ser segura y factible, pero requiere habilidades avanzadas de intervención y debería considerarse solo cuando los métodos antes nombrados hayan fracasado y esté disponible la experiencia endoscópica o radiológica adecuada.

El tratamiento quirúrgico agresivo se reserva para los casos complejos, donde la FBP se complica con

empiema pleural crónico, débito fistuloso persistente y/o sepsis. Algunos, de todas formas, prefieren el abordaje quirúrgico temprano por toracotomía, describiendo una tasa de éxito del 97%¹⁴. La toracotomía es el abordaje mayormente utilizado, ya que facilita la combinación de decorticación pleuropulmonar, drenaje extraperitoneal del hígado, resección de la fistula y cierre del diafragma^{2,10}. Hemos utilizado este abordaje en 1 caso como tratamiento inicial y en 2 casos para tratar complicaciones posteriores al diagnóstico. La laparotomía se deja para los casos en donde se evidencian lesiones mayores del árbol biliar extrahepático, así como también para los pacientes que presentan inestabilidad hemodinámica durante el tratamiento no operatorio del traumatismo hepático. Un aspecto quirúrgico descripto para tener en cuenta es el cierre de la fistula con gran cantidad de epiplón¹¹.

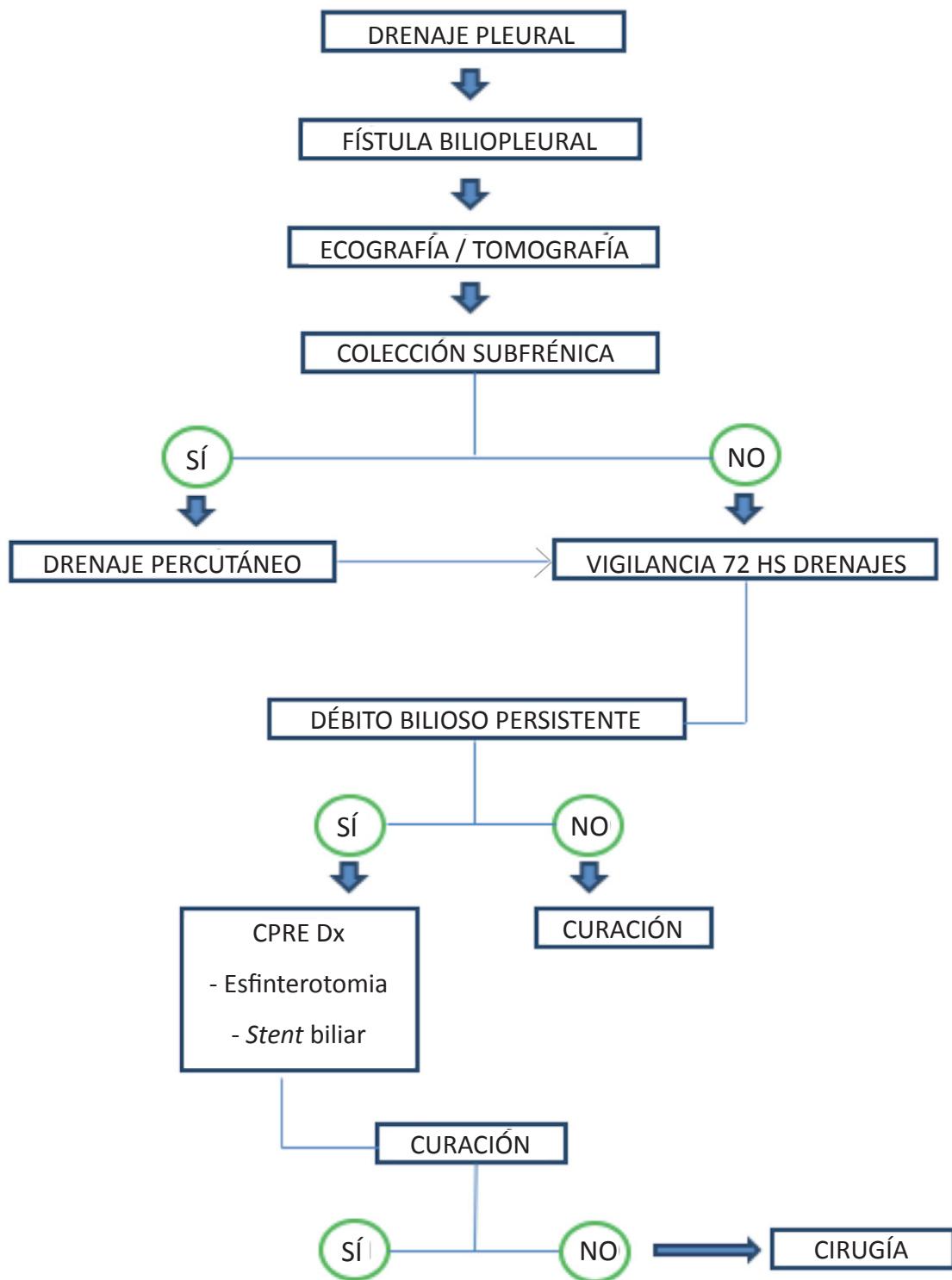
En cuanto a la morbilidad varía dependiendo de la causa y las lesiones asociadas. La sospecha clínica, los estudios por imágenes y la detección temprana de la bilirragia son claves para el pronóstico de los pacientes. En nuestra serie de casos presentada no se registró ningún óbito, llegándose a la curación en el 100%. Si comparamos con las series revisadas, en general, se obtiene la curación de la FBP ya sea con el tratamiento menos invasivo o el quirúrgico agresivo, o con ambos.

Los autores proponemos un algoritmo de manejo (Fig. 2) en el cual sugerimos realizar ecografía o TC de tórax y abdomen según disponibilidad y acceso, luego de diagnosticada la FBP. En el caso de visualizar una colección subfrénica, indicamos su drenaje percutáneo para disminuir la presión y la corrosión generadas por la bilis sobre el diafragma. Controlar el débito de los drenajes durante 72 horas y, en caso de ser persistentes, es oportuno llevar a cabo la descompresión de la vía biliar con CPRE y esfinterotomía y/o colocación de stent. Y posteriormente, en caso de no lograr la curación o de empeoramiento del estado clínico, se indica la cirugía, preferentemente por abordaje torácico.

Conclusión

No existe un consenso acerca del manejo terapéutico de estas fistulas. En la práctica quirúrgica actual, la amplia disponibilidad de endoscopia intervencionista ha mejorado el enfoque invasivo mínimo para el manejo de las FBP. Nuestros datos demuestran que la CPRE es un método preciso para identificar las FBP postraumáticas y que el tratamiento endoscópico puede ser seguro y eficaz y que mejora la morbilidad y el pronóstico de los pacientes. El DP asociado a drenaje biliar endoscópico fue la combinación más empleada en este trabajo. Se debe reservar el manejo quirúrgico para las fistulas que no responden al tratamiento menos invasivo y/o para fistulas complicadas.

■ FIGURA 2



■ ENGLISH VERSION

Introduction

Pleurobiliary fistula (PBF) is a rare condition that can be congenital or occur as a complication of liver hydatid cyst, liver abscess, biliary tract obstruction, traumatic wounds, or iatrogenesis (liver resection, radiofrequency catheter ablation, biliary stenosis, radiation, biliary drainage, etc.)^{1,2}. The first report of PBF was described by Graham in 18973. It represents a rare complication (0-2%) of penetrating trauma with associated liver injury¹¹. As most publications correspond to case reports there are no clear recommendations for its treatment. In 1994, Rothberg et al.¹ reported that only 34 cases had been published so far. Andrade-Alegre and Ruiz-Valdés² added 33 more cases considering those of their case series. The hallmark is the presence of postraumatic pleural effusion with bilious fluid. Determination of bilirubin in pleural fluid confirms the diagnosis of PBF². Computed tomography (CT) scan and ultrasound are the methods of choice to rule out associated complications, such as pleural, biliary or subphrenic abscesses and collections, and serve to guide percutaneous drainage, if necessary^{2,3,5}. However, both methods are not useful for defining the exact anatomical location of the fistula, which is necessary to determine the therapeutic approach. Endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) is the method of choice to evaluate the biliary tree⁴. The traditional treatment of PBF involves an aggressive surgical approach, with exploratory laparotomy, biliary drainage, lavage of the abdominal cavity and thoracotomy with repair of the diaphragm. However, with the advent of endoscopy, interventional radiology and minimally invasive techniques, treatment has evolved and has turned out to be a challenge for trauma surgeons^{6,8}. We present a case series to analyze the treatments performed to patients with PBF due to penetrating thoracoabdominal injury and their results, compare them with the published literature, and propose a treatment algorithm.

Material and methods

For this descriptive and retrospective study, we reviewed the medical records of patients admitted with penetrating trauma due to stab wound or gunshot to Hospital José María Cullen, Santa Fe, Argentina, Centro de Trauma Nivel 1 between January 2010 and January 2016. The demographic data, kinematics of trauma, diagnosis, treatment and patient progress were analyzed. Liver injuries were classified according to the American Association for the Surgery of Trauma liver injury scale based on CT scan or laparotomy findings. All the patients were evaluated and resuscitated in the

shock room following the advanced trauma life support (ATLS) guidelines. The initial management was decided by the on-call trauma surgeon and general surgery residents. The subsequent management was decided by all the members of the department of general surgery. All trauma patients with hemodynamic stability undergo full-body or thoracoabdominal CT-scan as usual practice. As specialists in diagnostic imaging were not on call at the hospital, the lesions were classified by the on-call trauma surgeon. The diagnosis of PBF was made by observing bilious fluid through the pleural drainage and was confirmed by the presence of bilirubin in pleural fluid. The treatments proposed were pleural drainage (PD), PD and endoscopic or percutaneous biliary drainage, and thoracotomy or laparotomy. Length of hospital stay, morbidity and mortality were also evaluated.

Results

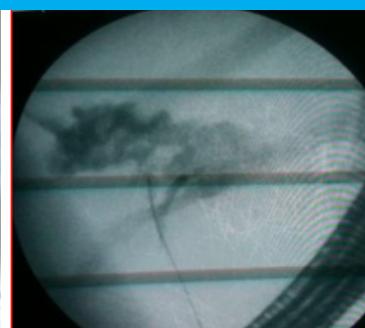
From total of 5688 clinical records reviewed, 614 had involvement of the thoracic and abdominal wall. Of these, 7 patients presented PBF, corresponding to an incidence of 1.1%. All the cases were confirmed with determination of bilirubin in pleural fluid. Sex, causes and mechanism of injury are summarized in Table 1. Mean age was 26 years (range 18-32). In 4 cases, pleural drainage was the initial management after trauma. Two patients with suspected associated lesions underwent PD plus laparotomy and 1 patient required urgent thoracotomy with suture of the diaphragm followed by PD. All the patients presented bilious fluid through the PD 2 and 6 (median 4.2) days after the intervention. Five patients with bilious fluid through the PD for more than 72 hours underwent ERCP between 3 and 5 days after the diagnosis was made (Fig. 1). In all these patients a wide sphincterectomy was performed during the procedure and a plastic biliary stent was placed in 2 of them. Amylase levels increased in 1 patient

■ TABLE 1

Demographic data				
Patient	Age	Gender	Mechanism	Grade of liver injury*
A	18	Male	GSI	III
B	25	Male	GSI	III
C	27	Male	SWI	II
D	31	Male	SWI	II
E	19	Male	GSI	III
F	30	Male	GSI	IV
G	32	Male	GSI	III

*American Association for the Surgery of Trauma liver injury scale.
GSI: gunshot injury. SWI: stab wound injury

■ FIGURE 1



Endoscopic retrograde cholangiopancreatography showing biliary leaks.

after the procedure who remained asymptomatic with favorable outcome; amylase level returned to normal values within 4 days. The biliary stents were removed 8 weeks after the fistula resolved, without complications. Of the 5 cases that underwent ERCP, 2 patients required ultrasound-guided percutaneous drainage during hospitalization due to right subphrenic collections.

Two patients of the entire series required thoracotomy due to persistent biliary leak and sepsis despite the treatments indicated and underwent decortication, washing of the pleural cavity and suture of the laceration of diaphragm. One of these patients required open pleurostomy due to chronic empyema associated with sepsis.

None of the patients died and mean time to resolution was 7 to 45 days, but 2 patients required prolonged antibiotic treatment. Data are summarized in Tables 2 and 3.

Discussion

In our experience, PBF occurred as a complication of penetrating thoraco-abdominal injuries. They are considerably rare after trauma in general and result from the combination of hepatic duct injury, inadvertent or inappropriately treated diaphragmatic injury, and bile leakage into the pleural space or bronchial system facilitated by the pressure gradient between the abdomen and the pleural space. Anderson found only 3 cases of thoracobiliary fistula in a review of 1767 cases of thoracoabdominal wounds from World War I and the Korean conflict. Carroll et al. reported only 5 cases from 254 patients with traumatic hepatic injury in Vietnam, and Trunkey et al. described only 1 case from 811 consecutive patients treated at a major trauma center^{1,4,7}. We have found 71 cases of traumatic PBF in the literature. In our case series, the incidence

■ TABLE 2

Treatment received

Patient	PD	ERCP + OS	ERCP + OS + Stent	Percutaneous drainage	Thoracotomy
A	+				
B	+				
C	+	+			
D	+	+			
E	+	+		+	
F	+		+	+	+
G	+		+		+

■ TABLE 3

Morbidity and mortality associated with BPF

Morbidity	Treatment	Mortality
Empyema + peel (n = 2)	Thoracotomy (n = 2) Thoracostomy (n = 1)	0
Intraabdominal fluid collection (n = 2)	Percutaneous drainage	0
Sepsis (n = 2)		
MRSA Acinetobacter sp.	Prolonged intravenous antibiotics	0

MRSA, Methicillin-resistant *Staphylococcus aureus*

was 7 cases in 614 patients with shotgun injuries and stab wound injuries (1.1%). Ivatury et al. reported an incidence of 0-2%¹⁰ (Table 4). The complications associated with liver trauma, as biliary fistulae, hepatic hematoma, intraperitoneal bile collection and hemoperitoneum occur in 3-5% of patients and are considered predisposing factors for the development of PBF¹³. In addition, traumatic diaphragmatic injuries may occasionally remain inadvertent^{4,9,10,13}. Post-traumatic PBF are more common in young men and after penetrating wounds, as in our series^{1,2,10}. The spectrum of post-traumatic PBF varies from small, bilious pleural effusions that resolve after PD as

■ TABLE 4

International case series

Author	Year	Cases	Mechanism of trauma
Graham	1897	1	Blunt
Tyrman	1909	1	Penetrating
Elliot	1916	1	Penetrating
Loe	1930	1	Penetrating
Guy	1947	2	Penetrating
Sparkman	1954	2	Penetrating
Anderson	1961	2	Penetrating/blunt
Merendino	1963	1	Penetrating
Ferguson	1967	4	Blunt
Mc Clelland	1965	2	N/D
Williams	1971	1	Blunt
Carroll	1973	5	Penetrating
Trunkey	1974	1	Penetrating
Oparah	1978	4	Penetrating
Oluwole	1980	1	Penetrating
Franklin	1980	1	Penetrating
Cropper	1980	1	Penetrating
Ivatury	1983	3	Penetrating
Coselli	1983	1	Penetrating
Rothberg	1994	1	Penetrating
Sheik-Gafoor	1998	1	Penetrating
Navsaria	2002	1	Penetrating
Singh	2002	3	Penetrating
Bustos ¹⁹	2008	1	Penetrating
Burmeister	2009	22	Penetrating
Ball	2009	1	N/D
Andrade-Ruiz	2013	5	Penetrating
Krithiga ²⁰	2015	1	Blunt

¹⁹⁻²⁰ see references . N/D no data available

described by Avraham⁶ and in 2 patients in our series, to large, symptomatic, infected, persistent fistulae, requiring more complex management. Bile leakage to pleural space can occur at any time depending on the grade of the injury and is more commonly observed in grade III injuries, according to our series. They usually occur within a week after the injury, as in our cases, but several authors have described a later onset, ranging between 2 and 73 days¹⁰. The diagnosis is made by the macroscopic visualization of bile through the PD. The determination of bilirubin in pleural fluid is an objective

finding to confirm the diagnosis. Nevertheless, and although bilirubin was measured in all our patients, we believe this is not strictly necessary as most reports have shown.

Most publications have reported that PBF can be managed with a surgical or conservative approach; yet, we prefer the terms aggressive surgical approach and less or minimally invasive surgical approach. The first publications recommended an initial aggressive surgical approach. In fact, in 1967 Ferguson and Burford¹² published the necessary steps for a successful treatment of PBF: aggressive surgical treatment with early thoracotomy, closure of the diaphragm with nonabsorbable suture, decortication, lobectomy in case of bronchobiliary fistula and prophylactic decompression of the biliary tree. But in the last decade of the 20th century, some reports supporting and endorsing less invasive treatment emerged. Then, percutaneous and endoscopic drainage and decompression of the biliary tree gained importance as first line treatment in patients with PBF. Three concepts are important in the management of PBF: location of the leak, adequate drainage of pleural fluid and subphrenic collections, and decompression of the biliary tree^{7,9}. The best imaging test for defining biliary duct trauma is cholangiography, either intraoperatively, endoscopically (ERCP) or by a percutaneous transhepatic approach⁹. Singh et al.³ demonstrated that magnetic resonance cholangiopancreatography and hepatobiliary scintigraphy have high sensitivity to identify biliary leakages. Ultrasound and CT scan are used to visualize the pleural space, monitor the hepatic injury and possible intra-abdominal collections, and guide those that need to be drained. Pleural effusions should always be drained in case of PBF. But in case of subphrenic collections, these should also be drained to ensure resolution of FBP as the rate of failure of PD alone is 38%¹⁴. Decompression of the biliary tree, either by conventional surgery, percutaneously or endoscopically, also plays an important role in the treatment. The percutaneous and endoscopic approach are part of the less invasive treatment, but the endoscopic approach is the best option as it is useful to identify the leak and biliary anatomy including third-order bile ducts and allows for therapeutic interventions such as sphincterotomy and implantation of a biliary stent or a nasobiliary tube. Nasobiliary intubation is not commonly used in the endoscopic approach but has been described to avoid a second endoscopy and for follow-up cholangiography¹³. There is no optimal timing for ERCP. Singh et al.³ performed ERCP within 72-96 hours. In a series of 22 patients (11 treated without surgery and 11 with urgent surgical

exploration), Burmeister et al.¹³ reported that ERCP was performed at a mean time of 13.2 days after liver injury. In our case, ERCP was done within 3 and 5 days after the diagnosis was made. Sphincterotomy is justified as a therapeutic procedure, understanding the physiology of the sphincter of Oddi. Geenen et al.¹⁶ observed that the normal pressure in the common bile duct was 10 ± 2 mm Hg and the mean baseline pressure in the sphincter of Oddi was 8 ± 3 mm Hg. The pressure gradient between the common bile duct and the duodenum before sphincterotomy was 10 ± 1 mm Hg. Given this pressure gradient, in an intact ductal system bile flows along an open fistula tract following the path of the least resistance. After sphincterotomy, the mean basal sphincter of Oddi pressure decreases to 1 ± 1 mm Hg, favoring the flow of bile into the duodenum rather than into the fistula tract^{4,16}. We have performed sphincterotomy to all the patients who underwent ERCP, with favorable outcome. Complications are uncommon and include pancreatitis, cholangitis, bleeding, duodenal perforation and stent occlusion or migration; in fact, only one patient had elevated serum amylase level, but remained asymptomatic. The use of a temporary stent has demonstrated a significant decrease in morbidity and mortality compared to surgical intervention¹⁷. Stents are removed once the fistula has resolved, usually within 6 weeks, which corresponds to the accepted patency period for small-caliber stents⁹. In this study, patients who underwent stenting resolved the fistula with conservative management, but stents were removed at 8 weeks. Several recent reports of some case series have indicated a success rate of 97% for the treatment of PBF combining ERCP and stent placement, but we emphasize the small number of cases in these series¹⁰. As an example, Krige et al.¹⁴ reported 20 cases of post-traumatic PBF successfully treated with ERCP and sphincterotomy with stent placement in 18 patients and only with sphincterotomy in 2 patients. Percutaneous embolization of the peripheral intrahepatic bile duct close to the origin of the fistula under fluoroscopic guidance is another minimally invasive treatment that was described by Giménez et al.¹⁸ for a biliobronchial fistula and by Burmester et al.¹³ for a PBF. This technique could be safe and feasible but requires advanced interventional skills and should be considered only when conventional methods have failed and the appropriate endoscopic or radiological expertise is available.

Aggressive surgical treatment is only indicated in complex PBF complicated with chronic pleural empyema, persistent fluid drainage and/or sepsis. Some

authors prefer early surgical approach via thoracotomy, describing a success rate of 97%^{1,4}. Thoracotomy is the approach most commonly used, since it allows the combination of pleural decortication, extraperitoneal drainage of the liver, fistulectomy and suture of the diaphragm^{2,10}. We have used this approach in 1 case as initial treatment and in 2 cases to treat complications developed after the diagnosis. Laparotomy is indicated in cases with major injuries of the extrahepatic biliary tree and for patients with hemodynamic instability during conservative treatment of liver trauma. Fistula closure with the greater omentum is a possible surgical method to consider¹¹.

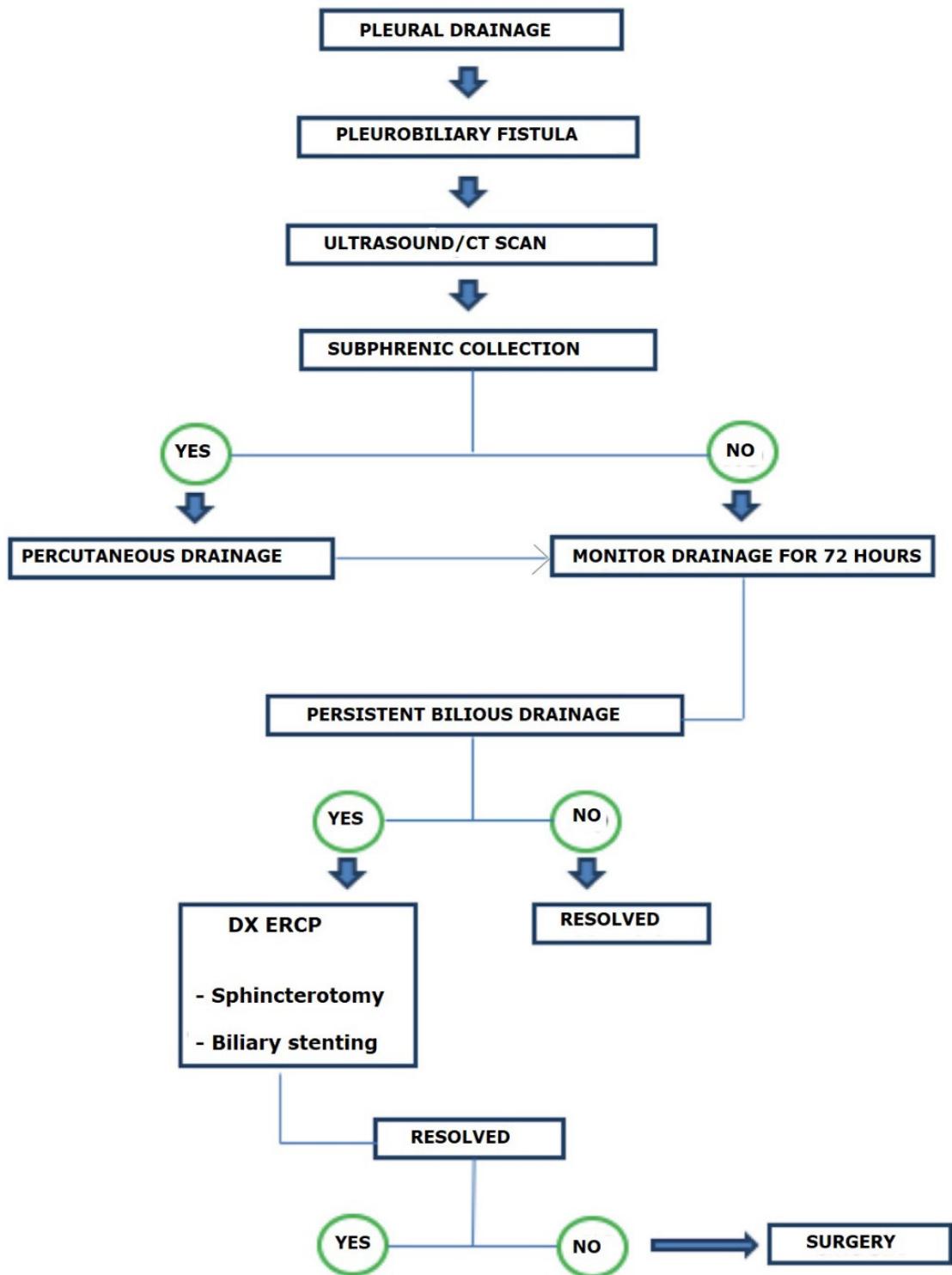
Morbidity and mortality vary depending on the cause and associated injuries. The clinical suspicion, imaging tests and early detection of biliary leak are the key to patients' outcome. There were no deaths in our series, and 100% of cases were cured. When we compare our series with those reviewed, PBF resolved with either the less invasive or aggressive surgical approach.

We propose an algorithm for the management of PBF (Fig. 2) suggesting chest and abdominal ultrasound or CT scan according to availability and accessibility after the PBF has been diagnosed. If a subphrenic collection is visualized, we indicate percutaneous drainage to reduce pressure and corrosion of the diaphragm generated by the presence of bile on the diaphragm. Drainage should be monitored for 72 hours, and in case of persistent drainage, ERCP and sphincterotomy with/or stent placement is indicated. If the condition is not resolved or the patient deteriorates, surgery via thoracotomy indicated.

Conclusion

There is no consensus about the therapeutic management of these fistulae. In current surgical practice, the wide availability of interventional endoscopy has improved the minimally invasive approach for the management of PBF. Our data demonstrate that ERCP is an accurate method for identifying post-traumatic PBF and that endoscopic treatment can be safe and effective and improves patient morbidity, mortality and outcome. Pleural drainage associated with endoscopic biliary drainage was the most used combination in this paper. Surgery should be limited to fistulae not responding to less invasive treatments or to complicated fistulae.

■ FIGURA 2



Proposed management algorithm

Referencias bibliográficas /References

1. Rothberg M, Klingman R, Peetz D, Ferraris VA, Berry WR. Traumatic thoracobiliary fistula. Ann Thorac Surg. 1994;57:472-5.
2. Andrade-Alegre R, Ruiz-Valdés M. Traumatic thoracobiliary (pleurobiliary and bronchobiliary) fistula. Asian Cardiovasc Thorac Ann. 2013;21:43-7.
3. Singh B, Moodley J, Sheik-Gafoor M. H, Dhooma N, Reddi A. Conservative management of thoracobiliary fistula. Ann Thorac Surg. 2002;73(4):1088-91.
4. Navsaria PH, Adams S, Nicol AJ. Traumatic thoracobiliary fistulæ : a case report with a review of the current management options. Injury. 2002;33:639-43.
5. Mollberg NM, Wise SR, Hoyos AL De, Lin F, Merlotti G, Massad MG. Chest Computed Tomography for Penetrating Chest Roentgenogram. Ann Thorac Surg. 2012;93(6):1830-5.
6. Avraham Z, Cooper B, Gupta A, Odom SR. Conservative Management of a Bilothorax Resulting From Blunt Hepatic Trauma. Ann Thorac Surg. 2012;93(6):2043-4.
7. Reche F, Vélez S, Sarquis G, Suízter A, Ferraro L. Fístula bilio-pleural post-traumática: manejo no quirúrgico. Rev Argent Cirug. 2000;78(5):127-30.
8. Ciriaco S, Velásquez Galvis M, Miranda E, et al. Traumatic thoracobiliary fistula. Cirujano General. 2006;54-56.
9. Horattas MC, Lewis RD, Fenton AH, Awender HM. Modern Concepts in nonsurgical management of traumatic biliary fistulas. The Journal of Trauma: Injury, Infection, and Critical Care. 1994;36(2):186-9.
10. Ivatury RR, O'Shea J, Rohman M. Post-traumatic Thoracobiliary Fistula. The Journal of Trauma: Injury, Infection, and Critical Care. 1984;24(5): 438-42.
11. Crnjac A, Pivec V, Ivanec A. Thoracobiliary Fistulas. Radiol Oncol. 2013; 47(1): 77-85.
12. Ferguson TB, Burford TH. Pleurobiliary and bronchobiliary fistulas. Arch Surg. 1967;5:380-6.
13. Burmeister S, Krige JEJ, Bornman PC, Nicol AJ, Navsaria P. Endoscopic treatment of persistent thoracobiliary fistulæ after penetrating liver trauma. HPB (Oxford) 2009;11(2):171-5.
14. Krige JEJ, Bornman PC, Terblanche J. Liver trauma in 446 patients. S Afr J Surg. 1997;35:105.
15. Sheik-Gafoor MH, Singh B, Moodley J. Traumatic thoracobiliary fistula: report of a case successfully managed conservatively, with an overview of current diagnostic and therapeutic options. J Trauma. 1998;45:819-21.
16. Geenen JE, Toouli J, Hogan WJ, et al. Endoscopic sphincterotomy (follow-up evaluation of effects on the sphincter of Oddi) . Gastroenterology 1984;87:54-8.
17. Khandelwal M, Inverso N, Center R, Campbell D. Endoscopic management of a bronchobiliary fistula. J Clin Gastroenterol. 1996;23:125-7.
18. Giménez M, Palermo M, Durán G, Córdoba JP, Berkowski D. Fístula bilio-bronquial: tratamiento invasivo mínimo endocanalicular. Presentación en Video en el 83 Congreso Argentino de Cirugía.
19. Bustos M, Ávalos S, Arcienaga Llano E, Obeide L. Biliotorax Revisión bibliográfica a propósito de un caso. Experiencia Médica 2008; 26:142-7.
20. Abirami Krishiga J, Jeyakumar S, Jaivinod R. Biliopleural fistula - A rare complication of blunt thoracoabdominal trauma. IAIM. 2015; 2(3):179-82.