

АНОМАЛНИ СПОЈ ХОЛЕДОХУСА И ПАНКРЕАСНОГ ВОДА КОД ЦИСТЕ ХОЛЕДОХУСА

Миодраг ЈОВАНОВИЋ¹, Драгољуб БИЛАНОВИЋ², Радоје ЧОЛОВИЋ¹,
Никица ГРУБОР¹, Миленко УГЉЕШИЋ¹

1. Институт за болести дигестивног система, Клинички центар Србије, Београд;

2. Клиничко-болнички центар „Бежанијска коса”, Београд

КРАТАК САДРЖАЈ

Цисте холедохуса су ретке конгениталне аномалије. Данас се генеза најчешћег типа ових циста доводи у везу са аномалним уливањем панкреасног вода у холедохус изнад Одијевог (*Odi*) сфинктера, што омогућава рефлукс панкреасног сока у жучни вод и током времена доводи до промена у структури зида и дилатације холедохуса. Аутори приказују болесницу стару 38 година код које је циста холедохуса откривена раније током операције због иктеруса, када је начињена цистојејуностомија. У нашу установу је примљена после 11 година због болова и поновне појаве иктеруса. Болесница је тада поново оперисана. Нађени су циста холедохуса и аномални панкреатикобилијарни спој, потпуна оклузија анастомозе и торквација вијуге јејунума са којом је била урађена анастомоза. Урађене су холецистектомија, дезанастомоза ексцизија највећег дела зида цисте холедохуса, деторквација цревне вијуге и ретроколична холедохојејуностомија по Руу (*Roux*). Ексцизија цисте у целини технички би била тешко изводљива због хроничних инфламаторних промена у хепатодуоденалном лигаменту и озбиљне опасности од крвављења. Постоперациони опоравак је био уредан и болесница је без тегоба већ 14 година.

Кључне речи: циста холедохуса, аномални холедохопанкреасни спој.

УВОД

Цисте холедохуса су ретке конгениталне аномалије, тако да се и у највећим установама бележи свега неколико случајева. Сматрало се да су све цисте холедохуса урођене. Међутим, код најчешћег типа циста изгледа да је примарно у питању урођена грешка у споју панкреасног канала са холедохусом, а да се циста тек касније развија [1-9].

Дуг заједнички канал (дужи од 0,5 *cm*) и угао спајања већи од нормалног ($26,8 \pm 9,4^\circ$) услед неадекватног сфинктерског механизма доводе до рефлукса панкреасног сока у холедохус, што потврђује повећани ниво амилазе у жучи [1, 5, 7].

Приказана је болесница са цистом холедохуса и аномалним спојем холедохуса и панкреасног вода, која је лечена у нашој установи.

ПРИКАЗ БОЛЕСНИКА

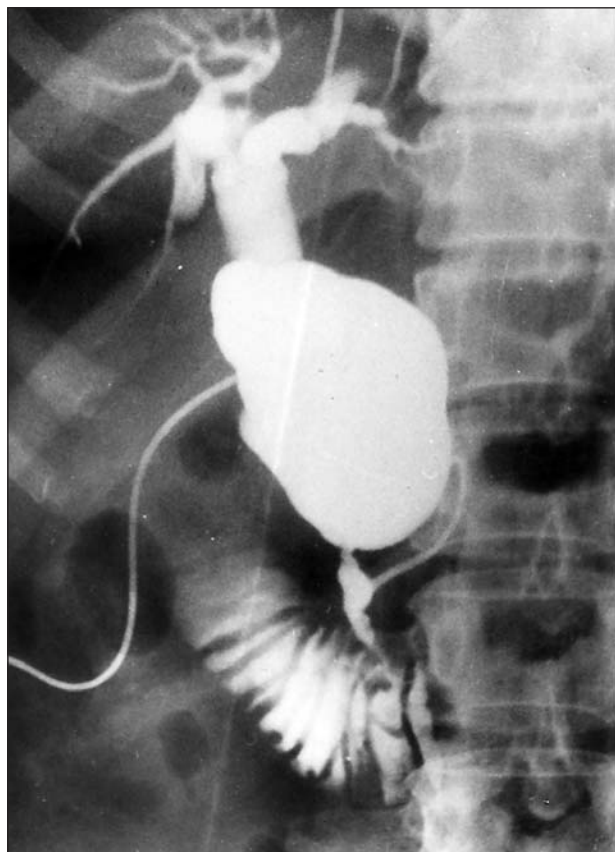
Болесница стара 38 година је 1979, када је имала 27 година, после вишегодишњих повремених болова у горњем десном квадрату трбуха и епизода жутице, оперисана у регионалној хируршкој установи због опструктивне жутице, када је нађена циста холедохуса и начињена цистојејуностомија по Руу (*Roux*) са вијугом постављеном антеколично.

Билирубин се убрзо нормализовао и болесница је отпуштена у добром општем стању. Годину дана касније поново је оперисана у истој установи због адхезивног илеуса. Цревна пасажа се после операције тешко успоставила. Наредних година долазило је до појаве епизода жутице и болова, нарочито у периодима када је долазило и до сметњи у пасажи. Почетком фебруара 1990. године болови су постали јачи и стални, а жутица је била израженија.

У нашу установу примљена је 27. фебруара 1990. године због опструкционог иктеруса, бола испод десног ребарног лука и опстипације.

У време пријема вредност билирубина је била 154 $\mu\text{mol/l}$, алкална фосфатаза 2,6 *U/l* (нормална вредност је 2,5 *U/l*), док су *SGOT*, *SGPT*, уреа, гликемија и амилазе биле у границама нормалних вредности. Ехотомографијом абдомена виђени су „јакко дилатиран холедохус” и жучна кеса задебљаних зидова. Значајније дилатације интрахепатичких жучних водова није било. *HIDA* је указивала на екстрахепатичку холестазу.

Болесница је оперисана и после опсежне адхезиолизе нађена је торквација цревне вијуге око уздужне осовине са којом је циста била анастомозирана, што је довело до израженог сужења црева. Холедохус је био цистичан а жучна кеса задебљаног зида, без калкулозе, адхерентна за околне структуре. Пероперационом холангиографијом нађени су циста холедохуса и дуг заједнички канал холедохуса и дуктус панкреатикуса (2,5 *cm*) са сужењем изнад споја (Слика 1). Контраст је, прелазећи из суженог дела, испуњавао цистично проширен холедохус и жучну кесу. Анастомоза се није приказала. Интрахепатички жучни водови нису били знатније проширени. Анастомоза између цревне вијуге и цисте холедохуса била је потпуно опструирана. Након холецистектомије урађена је холедохотомија. На дну дисталног дела цисте нађен је отвор промера од 1 *mm*. Због јаких адхезија у хепатодуоденалном лигаменту, којим је холедохус био јако адхерентан за хепатичку артерију и портну вену, потпуна ексцизија цисте била је веома опасна због ризика од крвављења. Због тога су урађене широка ексцизија слободног дела зида цисте холедохуса и холедохојејуностомија са цревном вијугом по Руу, која је претходно била потпуно ослобођена, деторквирана и доведена транзмезоко-



СЛИКА 1. Пероперациона холангиографија показује дуг заједнички канал између холедохуса и Вирзунговог (*Wirsung*) канала и цисту холедохуса.

FIGURE 1. Operative cholangiography showing long duct between choledochus and Wirsung's duct and choledochal cyst.

лично у субхепатички простор. Постоперациони ток је био уредан.

Патохистолошки налаз у зиду жучне кесе и ексцидираном делу зида цисте холедохуса није показао знаке малигне алтерације. Сви лабораторијски налази су се убрзо нормализовали, а болесница је и данас без тегоба.

ДИСКУСИЈА

Први опис цисте холедохуса дао је Тод (*Todd*) 1817. године. Фланиган (*Flanigan*) [4] наводи 955 публикованих случајева, а Јамагући (*Yamaguchi*) [10] даје анализу 1.433 случаја који су објављени у јапанској литератури. Тан (*Tan*) и Хауард (*Howard*) [11] наводе више од 3.000 случајева саопштених до 1988. године. Из тих података закључује се да су цисте четири пута чешће код жена (више од 80%) [2, 10].

Данас се аномалије споја холедохуса и панкреасног вода сматрају могућим узроком настанка цисте холедохуса тип I. Наиме, нађено је да се спој панкреасног и главног жучног вода код њих налази изван зида дуоденума и изнад сфинктера холедохуса, што омогућава рефлукс панкреасног сока у холедохус, те се он временом шири, добијајући цистичан изглед. Показало се да 90% болесника са конгениталним цистама холедохуса и 16% болесника са карциномом билијарног стабла има аномални спој холедохуса и пан-

креасног вода [7]. Ове аномалије настају пре осме недеље феталног развоја [12]. Кузуноки (*Kusunoki*) и сарадници [3] су показали да код неких болесника постоји олигоганглиоза дисталног дела холедохуса.

У литератури постоји класификација самих циста холедохуса и класификација аномалних спојева холедохуса и панкреасног вода.

Према извештају Тоданија (*Todani*) и сарадника [8], постоје два типа дилатације холедохуса: цистични (чешћи, око 80% болесника) и цилиндрични (ређи, око 20% болесника). Цистична дилатација холедохуса обично има аномални спој два дуктуса – панкреасног и холедохусног – са дугом и израженом стенозом дисталног холедохуса. У цилиндричној дилатацији стеноза дисталног холедохуса или не постоји, или је кратка.

Класификацију конгениталних циста жучних водова на три типа, коју су дали Алонзо-Леј (*Alonso-Lej*) и сарадници [13], модификовали су и допунили Тодани и сарадници [2] 1977. године.

Спој холедохуса и панкреасног вода код болесника са конгениталном дилатацијом жучног вода може се, према истраживањима Тоданија и сарадника [8], класификовати у пет група: 1. под правим углом (55%); 2. под оштрим углом (15%); 3. комплексни спој (9%); 4. нормални спој под углом од око 27° (7%); 5. непознат спој (није испитиван или се не визуелизује на холангиографији, 14%).

Суда (*Suda*) и сарадници [6] су приказали три типа панкреасно-холедохусног споја канала, са два подтипа, у светлости обновљеног концепта постојања аномалија у споју панкреасног и главног жучног вода као узрока настанка цисте холедохуса и карцинома билијарног тракта. Ову хипотезу су први поставили Кизуми (*Kizumi*) и Кодама (*Kodama*) [14] 1916. године, а затим Бебит (*Babbitt*) [5] 1969.

Наша болесница је често имала холангитисе и тип I цисте холедохуса са аномалним дугим заједничким каналом. Холедохусне цисте често су праћене секундарном дифузном дилатацијом интрахепатичких жучних водова, која је код наше болеснице била умерена, са тенденцијом повлачења после операције.

У клиничкој слици доминирају жутица, бол и палпабилни тумор, али се сва три симптома ређе јављају истовремено, већ најчешће постоји само један од ових знакова [13]. Код деце је често повраћање.

Код старије деце и млађих одраслих особа зид цисте често има тенденцију стварања инфламаторних ожиљака и ишчезавања епитела. На тако дегенерисаној мукози, као резултат хроничне иритације, улцерација и регенерације епитела, може се развити карцином [2]. Инциденција холангиокарцинома је око 2,5%, али се са узрастом повећава – од 0,7% у првој деценији до 14,3% после двадесете године [2, 6, 9, 15]. У опису 29 циста холедохуса код одраслих Нагорни (*Nagorney*) и сарадници [16] наводе 28% карцинома.

Ако се циста холедохуса не ексцидира у потпуности, може се појавити аденокарцином у остатку цисте или карцином жучне кесе, вероватно услед инфламаторне дегенерације зида жучног вода, стазе жучи и рефлукса цревног садржаја и панкреасног сока у лумену жучног вода [4, 6, 15].

ЗАКЉУЧАК

Дијагноза аномалног споја се данас најчешће поставља помоћу *ERCP* и *PTC*, али се понекад може визуелизовати неком другом холангиографијом. Значајно већа инциденција карцинома него у општој популацији наметнула је став да цисте треба ресецирати, па се напуштају раније билиодигестивне анастомозе [2, 16-18]. Ресеција се не врши само онда када је због хроничних инфламаторних промена у зиду цисте и у хепатодуоденалном лигаменту дошло до такве адхеренције за портну вену и хепатичку артерију да би ексцизија цисте била исувише ризична. Због хроничне опструкције и рецидивне инфламације зид цисте сраста са крвним судовима, па ексцизија може резултирати чак и фаталним крвављењем. Нажалост, код приказане болеснице могућност ресекције није искоришћена током прве операције, када су за то постојали добри услови. Зато смо морали да урадимо парцијалну ексцизију цисте и широку цистојејуностомију.

ЛИТЕРАТУРА

1. Todani T, Watanabe Y, Fujii Y, Uemura S. Anomalous arrangement of the pancreatobiliary ductal system in patients with a choledochal cyst. *Am J Surg* 1984; 147:672-6.
2. Todani T, Watanabe Y, Narusue M, Tabuchi K, Okajima K. Congenital bile duct cysts. Classification, operative procedures and review of thirty-seven cases including cancer arising from choledochal cyst. *Am J Surg* 1977; 134:263-9.
3. Kusunoki M, Saitoh N, Yamamura T, Fujita S, Takahashi T, Utsunomiya J. Choledochal cyst-oligoganglionosis in the narrow portion of the choledochus. *Arch Surg* 1988; 123:984-6.
4. Flanigan P. Biliary cyst. *Ann Surg* 1975; 182:635-43.
5. Babbitt DP. Congenital choledochal cyst: new etiological concept based on anomalous relationships of common bile duct and pancreatic bulb. *Ann Radiol* 1969; 12:231-40.
6. Suda K, Miyano T, Konuma I, Matsumoto M. An abnormal pancreatobiliary ductal junction in cases of biliary tract carcinoma. *Cancer* 1983; 52:2086-8.
7. Loria LE, Yamamoto K, Eto T, Tomioka T, Miyamoto T, Mochigana N, Tsuchiya R. A case of a rare anomaly of the common bile duct associated with an abnormal arrangement of the pancreatobiliary ductal union. *JPN J Surg* 1988; 18:718-24.
8. Todani T, Watanabe Y, Fujiti T, Toki A, Uemura S, Koike Y. Cylindrical dilatation of the choledochus: a special type of congenital bile duct dilatation. *Surgery* 1985; 98:964-8.
9. Ristić M. Ciste hloedohusa (kongenitalna ili idiopatska dilatacija hloedoha). *Hirurgija jetre i žučnih puteva, Medicinska knjiga, Beograd – Zagreb* 1986; 174-8.
10. Yamaguchi M. Congenital choledochal cyst – analysis of 1433 patients in the Japanese literature. *Am J Surg* 1980; 140:653-7.
11. Tan KC, Howard ER. Choledochus cyst: a 14-year surgical experience with 36 patients. *Br J Surg* 1988; 75:892-5.
12. Jona JZ, Babbitt DP, Starshak RJ, et al. Anatomic observations and surgical considerations in choledochal cyst. *J pediatr Surg* 1979; 14:315-20.
13. Alonso-Lej F, Rever WB Jr, Pessagno DJ. Congenital choledochal cyst with a report of 2 and analysis of 94 cases. *Int Abstr Surg* 1959; 108:1-29.
14. Kizumi K, Kodama T. A case of cystic dilatation of the common bile duct and etiology of the disease. *Tokyo Med J* 1916; 30:1413-23.
15. Voyles CR, Smadja C, Shands WC, Blumgart LH. carcinoma in choledochal cyst. *Arch Surg* 1983; 118:986-8.
16. Nagorney DM, McIlrath DC, Adson MA. Choledochal Cyst in adults: clinical management. *Surgery* 1984; 96:656-63.
17. Todani T, Watanabe Y, Toki A, Urushihara N. Reoperation for congenital choledochal cyst. *Ann Surg* 1988; 207:142-7.
18. Nagata E, Sakai K, Kinoshita H, Kobayashi Y. The relation between carcinoma of the gallbladder and an anomalous connection between the choledochus and the pancreatic duct. *Ann Surg* 1985; 202:182-90.

ANOMALOUS CHOLEDOCHO-PANCREATIC DUCTAL JUNCTION IN A CHOLEDOCHAL CYST – A CASE REPORT

Miodrag JOVANOVIĆ¹, Dragoljub BILANOVIĆ², Radoje COLOVIĆ¹, Nikica GRUBOR¹, Milenko UGLJESIC¹

1. Institute of Digestive System Diseases, Clinical Centre of Serbia, Belgrade; 2. Clinical Hospital Centre "Bezanijska kosa", Belgrade

ABSTRACT

Choledochal cysts are rare congenital anomalies, mostly detected in adults. Pathogenesis of these cysts seems to be in anomalous junction between pancreatic and common bile duct, above the papillary sphincter and outside of the duodenal wall. The absence of the sphincter above the junction is followed by reflux of the pancreatic juice into the bile duct leading to dilatation and fibrous changes of bile duct wall. A 38-year-old female is presented in whom a choledochal cyst was found 11 years earlier, during the operation performed for obstructive jaundice, when cystojejunostomy with Roux-en Y jejunal limb was carried out. In February 1990, she was admitted to our Institution for jaundice and biliary colic. The patient was reoperated. Operative cholangiography showed an anomalous pancreatobiliary junction, choledochal cyst, dilated cystic duct and moderate dilatation of intrahepatic bile ducts. Cholecystectomy, desanastomosis with partial

excision of choledochal cyst, and retrocolic choledochojejunostomy with the same Roux-en-Y jejunal limb were performed. Total excision of choledochal cyst was too risky due to chronic inflammatory changes in the hepatoduodenal ligament. Postoperative recovery was uneventful and the patient remained symptom-free so far.

Key words: choledochal cyst; anomalous bilio-pancreatic ductal junction.

Miodrag JOVANOVIĆ
Institut za bolesti digestivnog sistema
Prva hirurška klinika
Klinički centar Srbije
Dr Koste Todorovića 6, 11000 Beograd
Tel: 011 361 07 15 / lokal 133