

RECIBIDO:
30 julio 2023
APROBADO:
31 octubre 2023

Biliotórax: una entidad rara para un diagnóstico frecuente. Un reporte de caso

Bilothorax: a Rare Entity for a Frequent Diagnosis. A Case Report

Nidia Rodríguez Plascencia
<https://orcid.org/0000-0002-6985-6291>
Juan Gerardo Alcaraz López
<https://orcid.org/0000-0002-3865-1197>
Hermes Ernesto Castellanos García
<https://orcid.org/0000-0003-2212-5704>

Nidia Rodríguez Plascencia¹, Juan Gerardo Alcaraz López¹,
Hermes Ernesto Castellanos García²

1. Hospital de especialidades del Centro Médico Nacional de Occidente, Instituto Mexicano del Seguro Social, Servicio de Neumología, Jalisco, México.
2. Hospital de especialidades del Centro Médico Nacional de Occidente, Instituto Mexicano del Seguro Social, Servicio de Radiología Intervencionista, Jalisco, México.

AUTOR CORRESPONSAL:

Nidia Rodríguez Plascencia, nidia_yiyi@yahoo.com.mx

Resumen

Introducción: El biliotórax es una condición infrecuente definida por la presencia de bilis en el espacio pleural. Actualmente, hay alrededor de 70 casos descritos en la literatura. Sigue siendo relativamente desconocido, por lo tanto, poco sospechado. Esta entidad suele ser el resultado de una lesión iatrogénica, a menudo secundaria a cirugías o traumatismos del tracto biliar, que conduce a la formación de una fístula pleurobiliar.

Caso clínico: Presentamos el caso de un paciente con probable cáncer pulmonar metastásico a pleura e hígado quien por la enfermedad hepática extensa desarrolló biliotórax como complicación.

Conclusión: Este caso resalta la importancia de tener un alto grado de sospecha de biliotórax en pacientes que presentan derrame pleural causado por cáncer de pulmón con enfermedad hepática metastásica extensa. Si bien es un diagnóstico raro, el biliotórax puede provocar complicaciones respiratorias y morbilidad significativas.

Palabras clave: biliotórax, metástasis hepáticas, derrame pleural maligno, cáncer pulmonar.

Abstract

Introduction: Bilothorax is a rare condition defined by the presence of bile in the pleural space. Currently, there are around 70 cases described in the literature. It remains relatively unknown and, therefore, little suspected. This entity is usually the result of an iatrogenic injury, often secondary to surgery or trauma to the biliary tract, leading to the formation of a pleurobiliary fistula.

Clinical case: We present the case of a patient with probable metastatic lung cancer to the pleura and liver who, due to extensive liver disease, developed bilothorax as a complication.

Conclusion: This case highlights the importance of having a high degree of suspicion for bilothorax in patients presenting with pleural effusion caused by lung cancer with extensive metastatic liver disease. Although it is a rare diagnosis, bilothorax can cause significant respiratory complications and morbidity.

Keywords: bilothorax, liver metastases, malignant pleural effusion, lung cancer.

Presentación del caso

Se trata de un hombre de 72 años, con antecedente de consumo de alcohol (480 gramos/semana por 20 años) y tabaquismo intenso (progresivo, con un índice paquetes/año de 195), además de hipertensión arterial en manejo y enfermedad pulmonar obstructiva crónica en tratamiento con anticolinérgico y broncodilatador β -agonista de acción larga. Tuvo una colecistectomía hace 46 años y hernioplastia inguinal.

Al examen físico se mostraba caquéctico, con estado de higiene precario. Exploración física del tórax y ultrasonido pulmonar demostraron un síndrome de derrame pleural bilateral (mayoritariamente derecho) el cual era heterogéneo y con septos. Se realizó toracentesis diagnóstica en donde se obtuvo líquido en un inicio marrón y posteriormente verdoso (Figura 1), se drenaron 1200 mL a lo que se obtuvo mejoría clínica. Citometría hemática, pruebas de función hepática y renal sin alteraciones, a excepción de una deshidrogenasa láctica (DHL) elevada. Tenía bilirrubinas séricas totales de 0,9 mg/dL y en líquido pleural de 3,11 mg/dL. El líquido pleural era no complicado y contaba con una DHL de 3,135 UI/L. En la misma intervención, se decidió colocar un catéter pleural. La tomografía computarizada contrastada de cuerpo completo evidenció, entre lo pertinente, una pleura engrosada de manera irregular, bilateral y con múltiples calcificaciones, derrame pleural completo del hemitórax derecho con compresión del parénquima, además de nódulos de contorno regular en ambos lóbulos de pulmón izquierdo (Figuras 2, 3 y 4). Ultrasonido de hígado y vías biliares en donde se evidencia enfermedad hepática extensa con múltiples lesiones hipocogénicas, redondas, bien circunscritas, distorsión de la vasculatura y algunas lesiones calcificadas de manera difusa, sugerente de metástasis. Además, se evidenció un defecto de diafragma de 7 mm y líquido perihepático (Figura 5), por lo que se decidió realizar una biopsia de la lesión hepática en segmento 7.

Figura 1.

Drenaje de líquido pleural; marrón en un inicio y posteriormente verdoso.



Figura 2.

TC de tórax que evidencia el derrame pleural casi total del lado derecho y de menor tamaño del lado izquierdo, sin desviación de estructuras mediastinales.

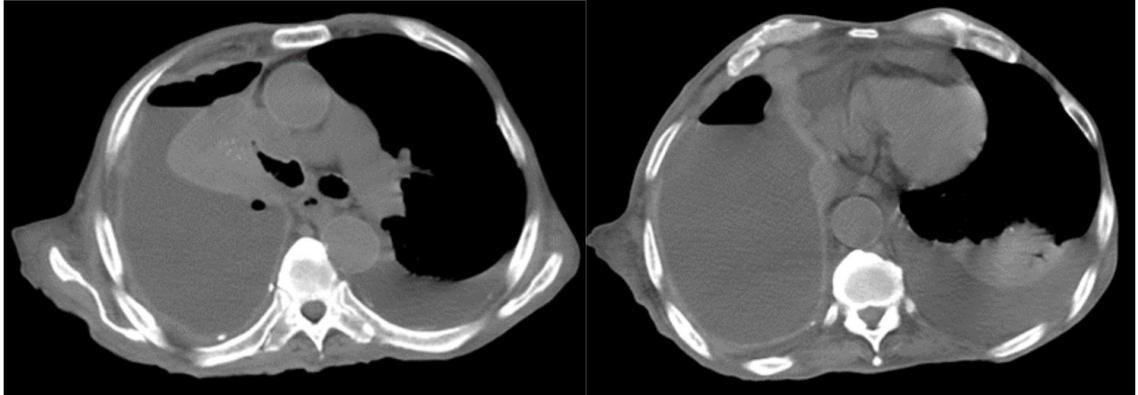


Figura 3.

TC a nivel hepático que evidencia múltiples lesiones de baja atenuación, redondeadas de bordes bien circunscritos y difusas en todo el parénquima.

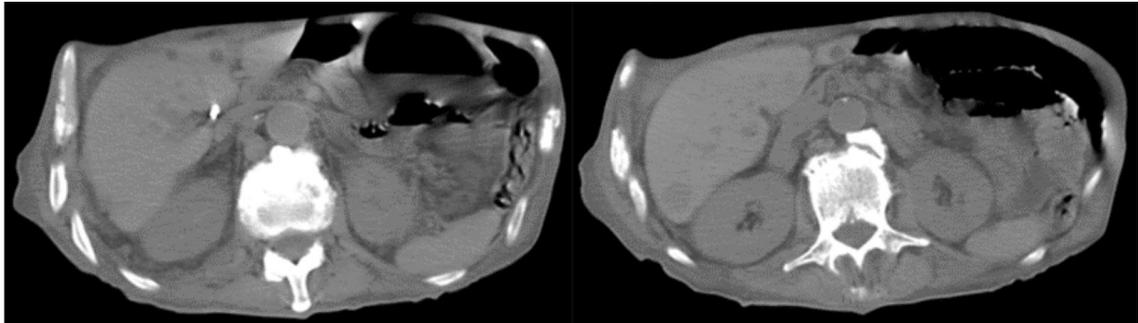


Figura 4.

Ultrasonido hepático en modo B que muestra múltiples lesiones hipocogénicas, redondas, bien circunscritas, distorsión de la vasculatura y algunas lesiones calcificadas de manera difusa.

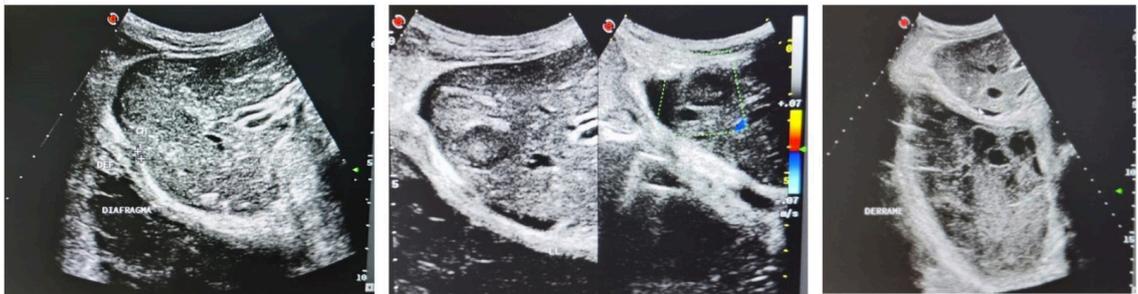


Figura 5.

Corte histológico de la biopsia hepática en la que se observa parénquima conservado (parte derecha) y la metástasis por un adenocarcinoma de origen pulmonar (parte izquierda). Tinción de H&E

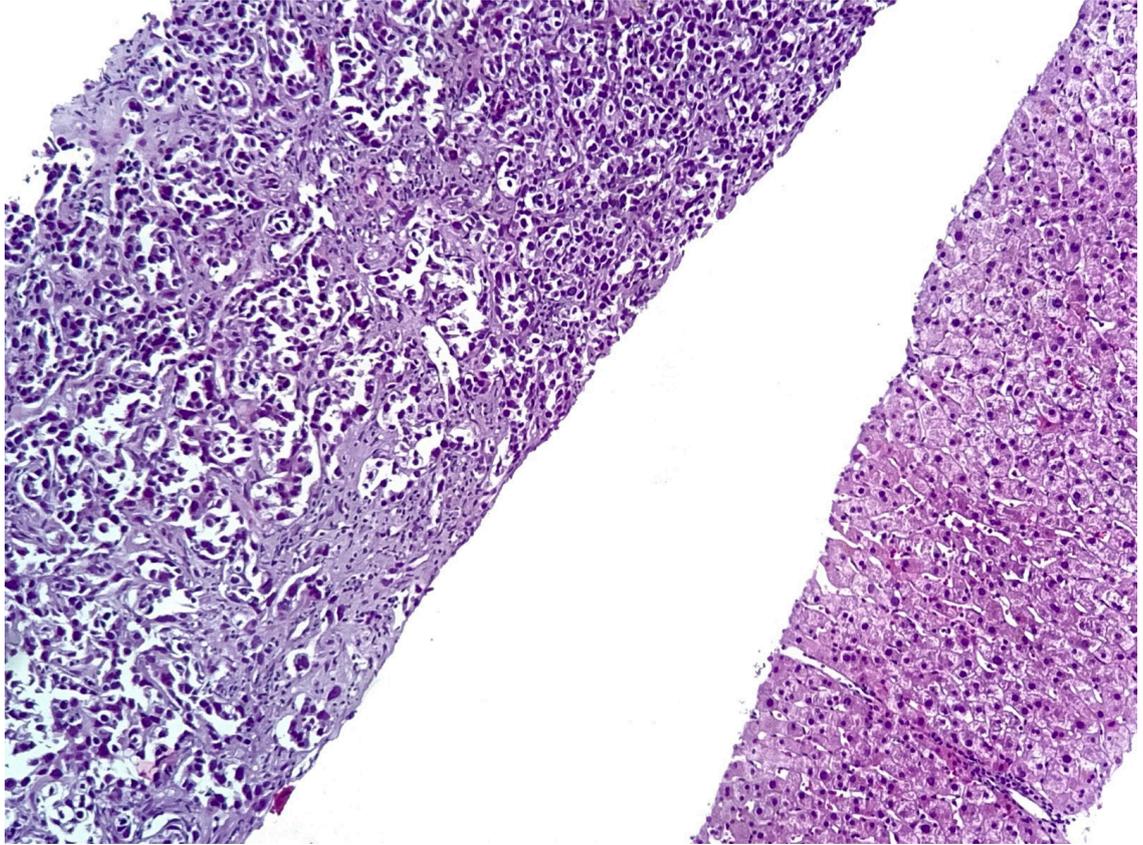
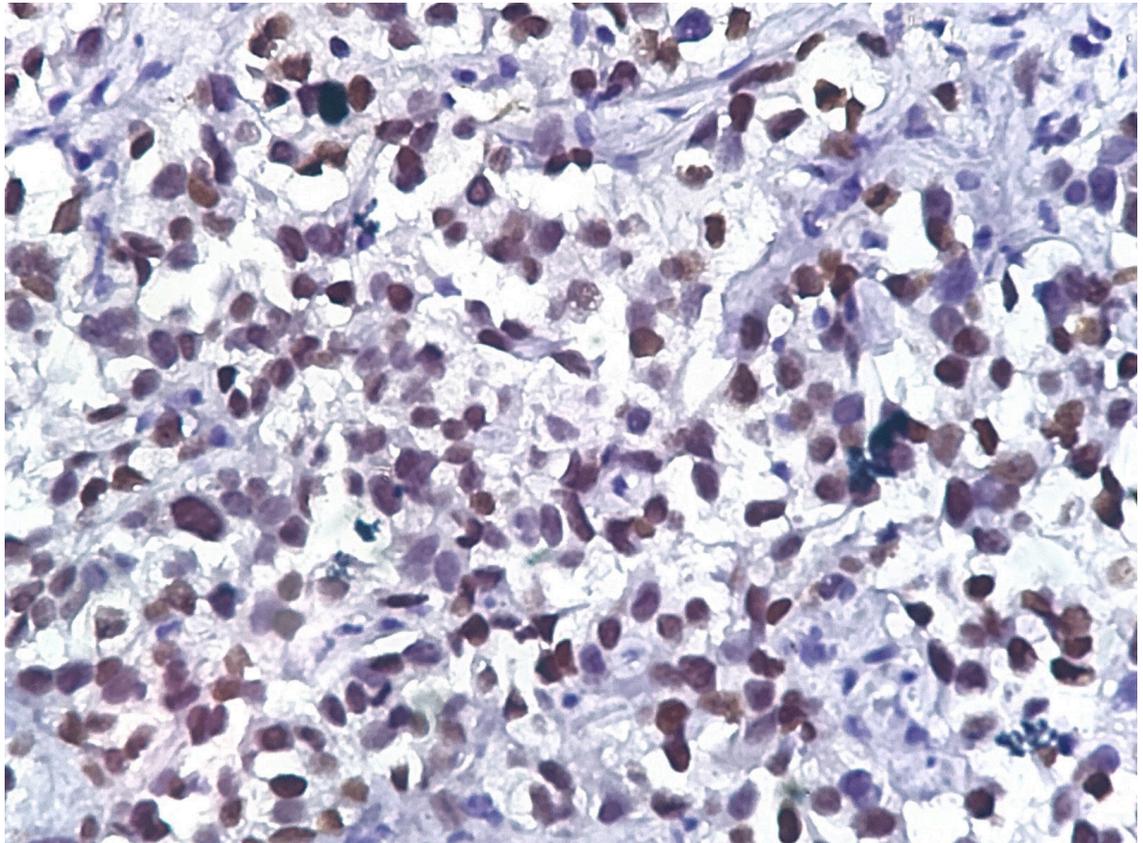


Figura 6.

Inmunohistoquímica con TTF-1 que demuestra positividad nuclear y confirma el origen primario de la neoplasia.⁴



Durante su hospitalización, por dificultad con el drenaje del líquido pleural por su espesor, se cambió a un catéter de mayor calibre.

Por el estado de gravedad del paciente y negación de otros esfuerzos de abordaje diagnóstico por paciente y familiar, no se obtuvieron biopsias pleurales. Sin embargo, se logró el diagnóstico mediante la biopsia de la lesión hepática que demostró un adenocarcinoma moderadamente diferenciado con citoqueratina 7 y 19 positivo, además de Factor de Transcripción Tiroideo (TTF-1) positivo.

Discusión

El biliotórax se refiere a la presencia de bilis en el líquido pleural. Es una causa infrecuente de derrame pleural exudativo. Su origen puede ser traumático, por el movimiento de la bilis directamente a través del diafragma o de los canales linfáticos en forma de peritonitis biliar, absceso subfrénico o absceso piógeno;¹ congénito, con defectos diafragmáticos; obstrucción, por una estenosis maligna o benigna;² traumatismo del árbol hepatobiliar³ o del diafragma por un procedimiento invasivo;⁴ o perforación del surco pleural por la inserción de un drenaje hepatobiliar percutáneo.^{5,6}

El diagnóstico se establece cuando la relación entre la bilirrubina del líquido pleural total y la bilirrubina sérica es superior a 1.⁵ Una vez establecido el diagnóstico, el siguiente paso es identificar el portal de entrada de la bilis en el espacio pleural.

La bilis en el espacio pleural provoca modificaciones en el pH y otras variables bioquímicas cuya consecuencia fisiológica culmina en la colonización e infección del espacio pleural debido a que la bilis es un medio propicio para el crecimiento bacteriano.⁷ En cuanto a la infección pleural y por las principales etiologías, los organismos del tracto gastrointestinal son los más comunes: *Escherichia coli*,^{5,8,9} *Enterococcus faecalis*,¹⁰ *Enterobacter* y *Klebsiella*¹¹ representan las causas primarias. La formación de empiema es frecuente en estos pacientes,¹¹ por lo que se justifica el drenaje inmediato de líquido y la administración de antibióticos según las directrices actuales.

El tratamiento consiste en el manejo del derrame con colocación de catéter pleural de calibre variable y drenaje completo de la cavidad, además del control de la enfermedad biliodigestiva subyacente. La terapia antimicrobiana sistémica temprana vendrá acompañada cuando exista infección pleural y deberá ir dirigida al patógeno causal.¹² La resolución quirúrgica del origen de la fístula al espacio pleural está reservada a pacientes en los cuales el manejo establecido no es efectivo o en quienes de manera inmediata se determine por el servicio de cirugía de tórax.¹³

Ahora bien, la relación causal entre un procedimiento biliohepático y un biliotórax está bien reconocida en la literatura. Sin embargo, la metástasis hepática como causa de la enfermedad está empezando a ser más reconocida.¹⁴ Para comprender el comportamiento y los desenlaces de la enfermedad es esencial disponer de más informes sobre los resultados en estudios de cohorte o series de casos más amplios.

Los especialistas en medicina pulmonar deben ser conscientes de esta afección y considerarla como una posible complicación en pacientes con cáncer de pulmón, derrame pleural y metástasis hepáticas extensas.

Conclusión

Presentamos el caso de un paciente con probable cáncer pulmonar en estadio avanzado evidenciado por derrame pleural bilateral y enfermedad hepática extensa. No está claro el origen del defecto diafragmático de 7 mm, sin embargo, la afectación hepática es evidente, a lo que tenemos dos teorías: la primera que el proceso inflamatorio extenso secundario a enfermedad metastásica hepática ocasionó erosión de la cápsula hepática y consiguientemente el defecto diafragmático; y la segunda que el defecto fue ocasionado por el procedimiento quirúrgico (colecistomía abierta) realizado hace más de 30 años.

Es importante considerar al biliotórax dentro de las complicaciones posibles en pacientes con cáncer pulmonar con metástasis hepáticas extensas. En ellos, la resolución de la causa puede requerir múltiples intervenciones dirigidas a tratamiento del derrame pleural maligno, así como terapéutica dirigida.

Consentimiento informado: Se obtuvo el consentimiento informado por escrito del paciente para la publicación de sus datos clínicos y/o imágenes clínicas.

Financiamiento: Los autores declaran que el trabajo no tuvo financiamiento.

Conflictos de interés: Los autores declaran que no tienen conflictos de intereses relacionados con el tema de esta publicación.

Contribuciones de los autores: NRP: administración del proyecto, análisis formal, conceptualización, escritura - revisión y edición. JGAL: investigación, metodología, redacción. HECG: supervisión, validación. Todos los autores formaron parte de la atención del paciente.

Contribuciones de no-autores: Francisco A. Calderón García: revisión de laminillas.

El Editor en Jefe, Dr. Francisco Arancibia, realizó el seguimiento del proceso de revisión y aprobó este artículo.

Referencias

1. Roy DC, Ravindran P, Padmanabhan R. Bronchobiliary fistula secondary to amebic liver abscess. *Chest* 1972 ;62(4):523-4. Doi: 10.1378/chest.62.4.523
2. Frampton AE, Williams A, Wilkerson PM, Paterson IM. Thoracobilia: a rare complication of gallstone disease. *Ann R Coll Surg Engl* 2010 ;92(5):e1-3. Doi: 10.1308/147870810X12659688851951
3. Williams SW, Majewski PL, Norris JEC, Cole BC, Doohen DJ. Biliary decompression in the treatment of bilothorax. *Am J Surg* 1971 ;122(6):829-31. Doi: 10.1016/0002-9610(71)90456-9.
4. Basu S, Bhadani S, Shukla VK. A dangerous pleural effusion. *Ann R Coll Surg Engl* 2010 ;92(5):e53-4. Doi: 10.1308/147870810X12699662980637.
5. Al-Qahtani HH. Bilioleural fistula with choledochal fistula. A rare complication of percutaneous transhepatic biliary drainage. *Saudi Med J* 2011 ;32(11):1189-92.
6. Vrachliotis TG, Spiliopoulos S, Voros D. Management of massive bilothorax post-percutaneous trans-hepatic biliary drainage. *Egypt J Radiol Nucl Med* 2022 ;53(1):59.
7. Petri CR, Majid A, Anandaiah A. A Man with Biliary Sepsis and an Enlarging Pleural Effusion. *Ann Am Thorac Soc* 2019;16(4):496-8. Doi: 10.1513/AnnalsATS.201809-622CC.
8. Cunningham LW, Grobman M, Paz HL, Hanlon CA, Promisloff RA. Cholecystopleural Fistula with Cholelithiasis Presenting as a Right Pleural Effusion. *Chest* 1990 ;97(3):751-2. Doi: 10.1378/chest.97.3.751.
9. Strange C, Allen ML, Freedland PN, Cunningham J, Sahn SA. Bilioleural Fistula as a Complication of Percutaneous Biliary Drainage: Experimental Evidence for Pleural Inflammation. *Am Rev Respir Dis* 1988 ;137(4):959-61. Doi: 10.1164/ajrccm/137.4.959.
10. Hamers LAC, Bosscha K, Van Leuken MH, Moviat MAM, De Jager CPC. Bilothorax: A Bitter Complication of Liver Surgery. *Case Rep Surg* 2013 ;2013:1-2. Doi: 10.1155/2013/372827.
11. Oparah SS, Mandal AK. Traumatic Thoracobiliary (Pleurobiliary and Bronchobiliary) Fistulas: Clinical and Review Study. *J Trauma Inj Infect Crit Care* 1978 ;18(7):539-44. Doi: 10.1097/00005373-197807000-00009.
12. Roberts ME, Rahman NM, Maskell NA et al. British Thoracic Society Guideline for pleural disease. *Thorax* 2023;78:s1-s42. Doi: 10.1136/thorax-2022-219784.
13. Jenkinson M, Campbell W, Taylor M. Bilothorax as a rare sign of intra-abdominal bile leak in a patient without peritonitis. *Ann R Coll Surg Engl* 2013 ;95(7):e12-3. Doi: 10.1308/003588413X13629960047678.
14. Kurahara Y, Nagayama I. Bilothorax. *N Engl J Med* 2023;388(7):e17. Doi: 10.1056/NEJMicm2206943.