

Rezolüsyonu Olmayan Pnömoninin Nadir Bir Nedeni: Bronkobilyer Fistül

A Rare Cause of Persistent Pneumoniae: Bronchobiliary Fistula: Case Report

Dr. Dilek ÇAKMAKCI KARADOĞAN,^a
Dr. Göksel KİTER,^a
Dr. Nevzat KARABULUT,^b
Dr. Fatih TEKİN,^c
Dr. Oktay TEKEŞİN,^c
Dr. Olga YAYLALI^d

^aGöğüs Hastalıkları AD,

^bRadyoloji AD,

^cNükleer Tıp AD,

Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Denizli

^dGastroenteroloji AD,

Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi,
İzmir

Geliş Tarihi/Received: 21.05.2010

Kabul Tarihi/Accepted: 06.07.2010

Olgumuz Türkiye Solunum Araştırma Derneğinin 31. Ulusal Kongresinde elektronik Poster Bildirisi olarak sunulmuştur.

Yazışma Adresi/Correspondence:

Dr. Dilek ÇAKMAKCI KARADOĞAN
Pamukkale Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Göğüs Hastalıkları AD, Denizli,
TÜRKİYE/TURKEY
cakmakcidilek@yahoo.com

ÖZET Bronkobilyer fistül (BBF) nadir görülen, safra yolları ile bronş sistemi arasında geçiş olması ile karakterli bir durumdur. Olgumuz, 56 yaşında kadın hasta olup 1,5 yıl önce geçirdiği kolesistektomi operasyonundan sonra başlayan ve aralıklarla yineleyen sarı renkli balgam, öksürük ve hırıltı nedeniyle tetkik edilmekteydi. Toraks BT'sinde sağ akciğer ota lobda konsolidasyon alanı saptandı. Verilen antibiyotik tedavisine rağmen klinik iyileşme ve radyolojik düzelme olmaması üzerine hastaya bronkoskopi yapıldı. Orofarinks ve hava yollarının safra renginde sekresyonla kaplı olması ve aspirasyon sıvısının bazik nitelikte olması üzerine BBF den kuşkulandı. İstenen safra yolları sintigrafisi ve magnetik rezonans kolanjiyopankreatografi (MRCP) ile tanı doğrulandı. Hastaya öncelikle minimal invaziv tedaviler yakın takibimiz ile uygulandı. Hasta en son uygulanan biliyer stent sonrasında 4 aydır yakınmasız olarak izlenmektedir. Olgumuzu, solunumsal yakınmalarla bulgu veren ve nadir görülen bir durum olan BBF'ün tanı ve tedavisindeki geçerli yaklaşımları irdelemek amacıyla sunuyoruz.

Anahtar Kelimeler: Biliyer fistül; pnömoni

ABSTRACT BBF (bronchobiliary fistula) is a very rare entity, characterised with passage between bronchial and biliary system. Our case, 56 years old woman was complaining about yellow juicy sputum, cough, wheezing since 1,5 years, after a cholecistectomy operation. There was a consolidation area in the right middle lobe at thorax CT. In spite of treatment with antibiotics there wasn't any clinical or radiological healing. We determined the correct diagnosis by magnetic resonance cholangiopancreatography (MRCP) and cholescintigraphy after determining oropharynx and airways covered by alkaline, yellow secretion at fiberoptic bronchoscope. The patient underwent minimally invasive treatment choices first by our follow up. Now this is 4 th months of patient with her last biliary stent and without complaint. We present our case to emphasize that BBF is a very rare situation, diagnosis of BBF is difficult but possible when a clinical sign is suspicious and its treatment chooses are variable for each patient's condition.

Key Words: Biliary fistula; pneumonia

Türkiye Klinikleri Arch Lung 2010;11(2):96-100

Bronkobilyer fistül (BBF) nadir görülen, safra yolları ile bronş sistemi arasında geçiş olması ile karakterli bir durumdur. İlk kez 1850 yılında Peacock tarafından karaciğer kist hidatikli bir hastada raporlanmıştır.¹ Batı ülkelerinden bildirilen yayınlarda en sık nedenleri, safra yollarında taş, tümör, travma veya postoperatif safra kanalı stenozu ile gelişen safra kanalı obstrüksiyonu olarak bildirilmektedir.^{1,2} Gelişmekte olan ülkelerde ise, ekinokokal kistler, amipler ve piyojenik karaciğer ab-

seleri başta gelen nedenlerdir.³ Diğer nadir nedenler ise konjenital fistül, pankreatit, tüberküloz, askaris lumbrikoidesin safra obstrüksiyonu ve perkutan transhepatik kolanjiografi işlemini içerir.^{3,4}

Biliptizis, BBF için patognomonik bir bulgudur.² Sarı renkte balgam çıkarma yakınmasında balgamın görülmesi ve öyküde safra yollarını içeren cerrahi geçirme geçmişinin öğrenilmesi ile akla getirilir. BBF tanısı bilgisayarlı tomografi (BT), magnetik rezonans kolanjiyopankreatografi (MRCP), safra yolları sintigrafisi veya endoskopik retrograt kolanjiyopankreatografi (ERCP) gibi görüntüleme yöntemleri ile doğrulanır.³⁻⁶

BBF için önerilen tek bir tedavi olmayıp her merkezin tedavi yaklaşımı, deneyimine göre değişmektedir. ERCP ile nazobiliyer dren ve biliyer stent gibi minimal invaziv yöntemlerin yanında, karaciğer ve akciğer dokularını da kapsayan fistül traktının rezeksiyonu gibi cerrahi seçenekler de bulunmaktadır.⁷⁻⁹

BBF tanısının klinik öyküden kuşkulanması halinde konabildiği nadir görülen bir durum olduğuna dikkat çekmek, tanı yöntemlerini irdeleyerek tedavisinde geçerli yaklaşımları tartışmak ve rezolüsyonu olmayan pnömonilerde ayırıcı tanıdaki yerini vurgulamak amacıyla bu olgu sunumu hazırlanmıştır.

OLGU

Elli altı yaşında kadın hastanın, son 1,5 yıldır aralıklarla olan, verilen antibiyotiklerle gerileyen, ancak yeniden ortaya çıkan öksürük, sarı renkte balgam, hırıltı yakınması vardı. Son 1 yılda bir kısmı kontrol muayenesi olmak üzere 7 kez hastanemize, birkaç kez de başka sağlık kurumlarına başvurmuştu. Sarı-yeşil renkli balgam çıkarma yakınmasının, geniş spektrumlu antibiyotiklerle tedavi sonrası bir süre tama yakın geriledikten sonra yeniden ortaya çıktığı öğrenildi. Hasta, öksürük, sarı-yeşil renkte balgam çıkarma yakınmalarının sırtüstü yatınca artıp otururken azaldığını ve rahatsızlığının zaman geçtikçe giderek arttığını belirtti. Sarı-yeşil renkli balgam çıkarma yakınması tekrar başlayan hastaya Toraks BT çekilmişti. Sağ akciğer orta lob medial segmentte, içerisinde hava bronkogramları da olan konsolidasyon alanı sap-

tanması üzerine Levofloksasin tedavisi peroral olarak verildi.

Yakınması gerileyen hastanın 5 ay sonraki kontrolünde bu sürede öksürük şikayeti azalmışken, sarı-yeşil renkli balgam çıkarmasının artarak devam ettiği öğrenildi. Bu nedenle toraks BT yinelenildi ve sağ orta lobdaki konsolidasyonun aynen devam etmesi üzerine rezolüsyonu olmayan pnömoni araştırması açısından bronkoskopi endikasyonu konularak hastanın yatışı yapıldı.

Sistem sorgusunda hastanın, öksürük, sarı-yeşil, acı, sulu balgam yakınması dışında; özellikle bulantı, kusma, karın ağrısı gibi gastrointerstinal sisteme ait yakınmaları yoktu.

Özgeçmişinde, diabetes mellitus ve hipertansiyon dışında hastalık öyküsü yoktu. Sigara hiç içmemişti. Kolesistektomi (1,5 yıl önce) dışında operasyon öyküsü yoktu. Düzenli kullandığı oral antidiyabetik ilaçlarla diyabeti kontrol altındaydı ve antihipertansif kullanmaktaydı.

Fizik incelemesinde, genel durumu iyi, koltuktaltından vücut ısısı:36.5°C, TA:130/80 mmHg, nabız 80 atım/dk, solunum sayısı:22/dk olarak saptandı. Solunum sistemi muayenesinde, her iki hemitoraks solunuma eşit katılıyordu. Bilateral ekspiratuvar ronküsler duyulmaktaydı, ral duyulmadı. Her iki kostofrenik sinüs açıktı. Batında sağ üst kadranda geçirilmiş kolesistektomi operasyonuna bağlı insizyon skarı mevcuttu. Palpasyonla batın serbestti, defans veya rebound saptanmadı.

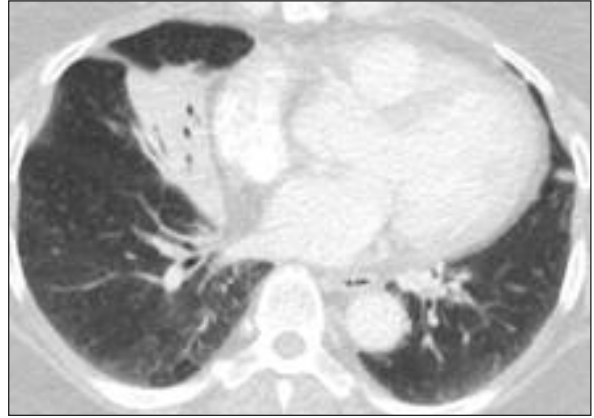
PA Akciğer grafisinde; sağ parakardiyak alanda kalp konturunu silen heterojen dansite izlendi (Resim 1).

Toraks BT'inde, sağ akciğer orta lob bronşu ve proksimal kesiminde lümende belirgin daralma, lezyon distalinde hava bronkogramları içeren atelektazi-konsolidasyon alanı, karaciğer segment 8'de 33 mm çapta hipodens alan izlendi. Tariflenen hipodens alanın subdiyafmagmatik alana kadar uzanıp orta lob inferior ile yakın komşuluk gösterdiği izlendi (Resim 2).

Hastaya bronkoskopi yapıldı. Orofarinks, epiglot ve kord vokallerin çevresi yoğun sarı renkte sekresyon ile kaplıydı, aspire edilmesine karşın ye-



RESİM 1: PA AC grafisinde; sağ parakardiyak alanda heterojen dansite.



RESİM 2: Toraks BT'de sağ orta lobda içerisinde hava bronkogramları da olan atelektazi-konsolidasyon alanı

niden aynı görüntü oluşmaktaydı. Tüm lob ve segment bronşları açık izlendi. Sağ bronş sisteminde daha yoğun olmak üzere her iki bronş mukozası safran sarı renkli sekresyon ile kaplı gözlemlendi. Orta lob bronş ağzının ve subsegment bronşlarının da diğer bronş sistemi gibi açık olduğu dikkati çekti. Lavaj alındı, mikrobiyolojiye ve patolojiye örnekler gönderildi. Bronş lavaj sıvısının pH'ı 8 idi.

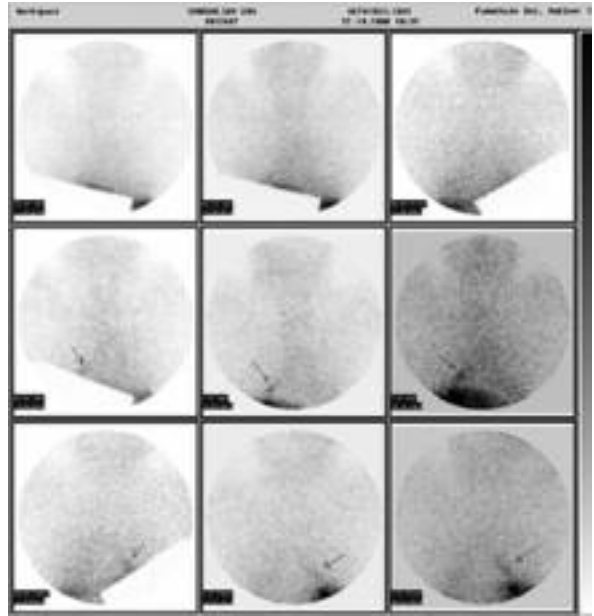
İzleminde safıralı balgam (bilioptizis), öksürük yakınması devam eden hastanın bronkoskopik lavaj kültüründe *E.coli* üremesi oldu ve kültür-antibiyoğrama uygun parenteral antibiyotik tedavisine başlandı.

Hastaya safra yolları sintigrafisi çektilirdi. Tc99m Mebrofenin kullanılarak yapılan hepatobiliyer sintigrafide, akciğer dokusuna radyoaktif maddenin geçişi gözlemlendi (Resim 3).

Safra yolları sintigrafisi sonucu ile genel cerrahi bölümüne danışıldı; safra yollarının daha detaylı görüntülenmesi ve fistül traktının kesin lokalizasyonu için magnetik rezonans kolanjiyopankreatografi (MRCP) çektilirmesi önerildi.

MRCP ile karaciğer sağ lob anterior segmentini drene eden biliyer kanalın karaciğer kubbesine yakın kesimde parankim içerisinde fistülize olduğu, bu lokalizasyonda akciğer parankimine doğru ilerleyen fistül traktı izlendi (Resim 4).

Tekrar tüm sonuçlar ile genel cerrahi konsültasyonu istendi. Ocak 2007'deki kolesistektomi



RESİM 3: Tc-99m Mebrofenin kullanılarak yapılan hepatobiliyer sintigrafide, akciğer dokusuna radyoaktif maddenin geçişi gözlemlendi.

operasyonu notunda, karaciğer sağ lobunun diyafırana komşu tarafında kalsifiye kist hidatik sekeli görüldüğü ancak çıkarılmasına gerek görülmediği, rutin kolesistektominin gerçekleştirildiği öğrenildi. Yeni bir cerrahi girişim önerilmedi. Öncelikle endoskopik retrograt kolanjiyopankreatografi (ERCP) yapılmasının ve diğer minimal invaziv tedavi yöntemlerinin denenmesinin uygun olacağı görüşü bildirildi.



RESİM 4: Koronal planda MRCP; ana safra kanalının stenozunu ve bronkobiliyer bağlantıya fistülizasyonunu göstermektedir

Kist hidatik serolojisi negatif bulundu.

Hastaya dış merkezde ERCP yapıldı ve nazobiliyer dren takıldı. Hasta 10 gün nazobiliyer dren ile takip edildi. Günlük 1000-1200 cc safra gelişiminin azalmadan sürdüğü gözlemlendi. Önerilen biçimde 10. gün sonrasında dren çekildi ancak biliyoptizis aynen devam etti ve balgam kültürlerinde *E.coli*, *P.vulgaris* üredi. Uygun antibiyotikler parenteral yolla verildi. Hasta bu kez de Papilla vateri bölgesinde darlığı giderip safra akımının basıncını düşürmek amacıyla biliyer stent uygulanmak üzere aynı merkeze gönderildi. Stent öneriye uygun olarak 3 ay sonunda çıkarıldı. Biliyoptizis 1 ay sonra yineleyince ikinci kez, bu sefer 2 adet biliyer stent takıldı. İki ay stent ile takipten sonra stent çıkarılınca yakınmalar yineleyince 3. kez 2 adet stent dış merkezde gastroenteroloji uzmanlarınca takıldı. Hasta son takılan biliyer stent sonrasında 4 aydır yakınmasız olarak izlenmektedir.

TARTIŞMA

Biliyoptizis, orak hücreli anemi ve hemolitik kriz dışlanırsa BBF için patognomonik bir bulgudur.² Koyu sarı, acı, sulu balgam yakınmasında biliyoptizisten kuşulanılmalıdır.

Bronkobiliyer fistülün çok nadir görülmesi nedeniyle başlangıçta tanının atlanması kolaysa da geçmeyen ısrarcı yakınmaların varlığında, safra yollarını içeren cerrahi öyküsüne dikkat edilmesi ve sarı renkli olarak tanımlanan balgamın doktor tarafından görülmesinin ihmal edilmemesi tanıya gitmede önemlidir. Olgumuzdaki yakınmalar da başlangıçta pnömoniye düşündürmüştü ve uzunca bir süre antibiyotik verilerek takip edilmişti. Hastamızın da yakınmaların kolesistektomi operasyonundan sonra başlaması dikkat çekicidir. Aslında BFF nedeni bu operasyon olmamakla birlikte operasyon notunun incelenmesi, operasyon sırasında kalsifiye kist hidatik ile uyumlu bir lezyonun da eşlik ettiğini göstermektedir. Literatürdeki olguların çoğunluğu, gelişmekte olan ülkelerde karaciğer kist hidatiki operasyonlarından sonra ortaya çıkmaktadır.^{1,10} Literatürde sunulan bir olguda BBF'nin nedeninin, yetersiz drenaja bağlı rezidü karaciğer kavitesinde inflamatuvar bir koleksiyon olduğu düşünülmekte ve bu koleksiyonun sütüre edilen diyaframı zedeleyerek kolesistektomiye bağlı yapışıklıklar nedeniyle bu alandan bronşiyal sistemi doğrudan perforasyonla ileri sürülmektedir.^{8,10} Olgumuzda ise karaciğerdeki kalsifiye eski kistlere bir girişim yapılmaması nedeniyle, kolesistektomi sonrasında oluşan yapışıklıklara ve inflamasyona bağlı olarak komşu diyaframda bir defektin ortaya çıktığı ve bronş sistemi ile bağlantının gerçekleştiği düşünülebilir.

Kesin tanı için görüntüleme yöntemleri kullanılmalıdır. BT, MRCP, sintigrafi gibi noninvaziv yöntemlerin yanında ERCP, PTC gibi tedavi edici girişimlere olanak veren invaziv yöntemler de mevcuttur. Toraks ve üst batını da kapsayan BT kesitlerinde, etkilenen alanlar görülmekle birlikte fistül traktını ortaya koymada ve safra kaçağını göstermede safra yolları sintigrafisi ve MRCP daha duyarlı yöntemlerdir.⁶⁻⁸ Olgumuzda da başlangıçta Toraks BT'de sağ akciğer orta lobda konsolidasyon ve karaciğerin bu alanla yakın komşuluğu olduğu saptanmış ve kesin tanı için safra yolları sintigrafisi ve MRCP kullanılmıştı. Hastaya bronkoskopi de yapılmış olsa da yoğun safra kaçağı nedeniyle fistül traktı gözlenmemişti.

Literatürde bronkoskopinin nadiren fistülü gösterdiği belirtilmiştir.¹⁰

Literatürde BBF tedavisi için cerrahi müdahaleyi öneren pek çok rapor olmakla birlikte, morbidite ve mortalite oranları yüksektir.^{4,7,9} Konservatif yöntemlerle tedavinin daha başarılı bir yaklaşım olabileceği ve cerrahinin bu yöntemlerin başarısız kalması durumunda tercih edilebileceği düşünülmüştür. Biz de olgumuzda öncelikle minimal invaziv tedavi seçeneklerini deneyip yanıtı göre bir diğer adıma geçmeyi uygun gördük. Minimal invaziv yöntemler kullanılarak başarı ile tedavi edilen olgu sunumları literatürde bildirilmektedir.^{4,7,9}

BBF'ün tedavisinde amaç, duodenuma safra akışının rahat bir şekilde olmasını sağlamak ve böylece intrabilyer basıncı düşürerek fistül traktının iyileşmesine/kapanmasına izin vermektir.^{3,7,9} Bunun için endoskopik sfinkterotomi, nazobilyer dren, bilyer stent gibi yöntemler mevcuttur.^{4,7-10} Hastamızda uyguladığımız tedavi seçeneklerinden biri olan nazobilyer drenaj, endoskopik olarak yer-

leştirilen nazobilyer kateter aracılığı ile duodenuma safra akımını kolaylaştırmayı, fistül traktında akımı ortadan kaldırmayı sağlamaktadır. Kısa süredeki tedavi edici sonucu nedeniyle BBF'de tedavi seçeneği olarak önerilmektedir.¹⁰ Olgumuzda bu yöntemin yeterli olmaması üzerine bir başka tedavi seçeneği olan bilyer stent uygulaması gerçekleştirildi. Perkutan eksternal bilyer stent tedavisi de önerilen yöntemler arasındadır.¹⁰ Cerrahi ancak bu tedavi yöntemleri başarısız olduğunda uygulanmalıdır; genel cerrahi konsültasyonunda karaciğere de segmental rezeksiyon gerekebileceği belirtilmiş olması nedeniyle operasyonun riskli olduğu düşünülmüştür. Böylece öncelikle minimal invaziv tedaviler denenmiş ve şu an için cerrahiden kaçınılmıştır.

Sonuç olarak; BBF rezolüsyonu olmayan pnömoninin nadir rastlanan bir nedenidir. Erken tanı koymak için klinik kuşku gereklidir. Tedavisinde minimal invaziv yöntemler öncelikle denenmelidir.

KAYNAKLAR

1. Tocchi A, Mazzone G, Miccini M, Drumo A, Cassini D, Colace L, et al. Treatment of hydatid bronchobiliary fistulas: 30 years of experience. *Liver Int* 2007;27(2):209-14.
2. Al-Mezem SS, Al-Jahdali HH. Chronic cough due to bronchobiliary fistula. *Respiration* 1999;66(5):473-6.
3. Tran T, Hampel H, Qureshi WA, Shaib Y. Successful endoscopic management of bronchobiliary fistula due to radiofrequency ablation. *Dig Dis Sci* 2007;52(11):3178-80.
4. Aydin U, Yazici P, Tekin F, Ozutemiz O, Coker A. Minimally invasive treatment of patients with bronchobiliary fistula: A case series. *J Med Case Reports* 2009;3:23.
5. Gugenheim J, Ciardullo M, Traynor O, Bismuth H. Bronchobiliary fistulas in adults. *Ann Surg* 1988;207(1):90-4.
6. Ragozzino A, De Rosa R, Galdiero R, Maio A, Manes G. Bronchobiliary fistula evaluated with magnetic resonance imaging. *Acta Radiol* 2005;46(5):452-4.
7. Eryigit H, Oztas S, Urek S, Olgac G, Kurutepe M, Kutlu CA. Management of acquired bronchobiliary fistula: 3 case reports and a literature review. *J Cardiothorac Surg* 2007; 2:52.
8. Katsinelos P, Paroutoglou G, Chatzimavroudis G, Beltsis A, Mimidis K, Katsinelos T, et al. Successful treatment of intractable bronchobiliary fistula using long-term biliary stenting. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2007; 17(3):206-9.
9. Modrzejewski A, Tereszczuk T, Buszkiewicz M, Chęciński P, Dmytrzak A, Inman M. Case report: Bronchobiliary fistula; Endoscopic management. *Videosurgery Miniinvasive Tech* 2009;4(2):83-7.
10. Suleihat AA. Biliary- bronchial fistula as a late complication of hepatic resection. *Pak J Med Sci* 2008;24(5):757-61.