

Cisto de colédoco na população pediátrica: experiência de 13 procedimentos laparoscópicos em dois anos de uma única instituição

Choledochal cyst in the pediatric population: experience of 13 laparoscopic procedures in two years at a single institution

CAROLINA TALINI¹; BRUNA CECÍLIA NEVES DE-CARVALHO¹; LETÍCIA ALVES ANTUNES¹; CLAUDIO SCHULZ¹; CESAR CAVALLI SABBAGA¹; SYLVIO GILBERTO ANDRADE AVILLA¹; JOÃO CARLOS GARBERS¹; LUIZ ROBERTO FARION DE-AGUIAR¹; LEILA GRISA TELLES¹; GIOVANA CAMARGO DE-ALMEIDA¹; FERNANDO ANTONIO BERSANI AMADO¹; ELISANGELA DE MATTOS E-SILVA, ACBC-PR¹

R E S U M O

Objetivo: descrever os primeiros 13 casos de correção laparoscópica de cisto do ducto biliar comum no Hospital Pequeno Príncipe, Curitiba, Paraná, Brasil. **Métodos:** análise retrospectiva dos registros médicos em prontuário dos casos de cisto de colédoco operados por via laparoscópica entre março de 2014 e setembro de 2016. **Resultados:** dos 13 pacientes, oito eram do sexo feminino e a média de idade na ocasião da cirurgia foi de 7,8 anos. O sintoma mais comum foi dor abdominal. A anastomose hepático-duodenal foi a técnica de reconstrução mais utilizada, em 84,6% dos casos. Não houve conversão para laparotomia ou complicações intraoperatórias. Apenas um paciente apresentou fístula da anastomose e foi reoperado por laparotomia. Todos permanecem em acompanhamento ambulatorial, com tempo de seguimento médio de 16 meses, assintomáticos e não apresentaram episódio de colangite após a cirurgia. **Conclusão:** a laparoscopia é um método seguro para correção dos cistos de colédoco, mesmo em crianças mais jovens, com baixas taxas de complicações e baixas taxas de conversão para cirurgia aberta quando realizada por cirurgiões com bom treinamento.

Descritores: Pediatria. Cisto do Colédoco. Laparoscopia. Anastomose em-Y de Roux. Anastomose Cirúrgica.

INTRODUÇÃO

Cistos de colédoco são anomalias raras do ducto biliar¹, caracterizados por dilatação desproporcional do sistema ductal biliar². Foram inicialmente descritos por Vater, em 1723, e classificados por Todani *et al.*³, em 1977. Estima-se que a incidência geral seja de um para cada 150.000 nascidos vivos, com uma predominância no sexo feminino de 4:1¹. Podem se manifestar apenas na vida adulta, porém cerca de 60% dos casos são diagnosticados na primeira década de vida⁴. Existem diversas explicações etiológicas, porém a mais aceita é a Teoria de Babbitt, que atribui a formação dos cistos a uma anormalidade na junção do ducto pancreático com o ducto biliar comum, fora da ampola de Vater, resultando

em um canal comum longo, que permite o refluxo de suco pancreático para o interior do ducto biliar⁵. As enzimas pancreáticas ativas provocam inflamação e fraqueza das paredes da via biliar, levando à formação dos cistos. Pacientes com dilatações extensas da via biliar tem predisposição à estase biliar, que leva à colangite de repetição, formação de cálculos e, em última instância, à cirrose biliar secundária e transformação maligna⁵. A excisão completa do cisto é a melhor estratégia para o tratamento e envolve a ressecção completa do cisto associada à reconstrução do ducto biliar⁶. Desde o primeiro relato, por Farello *et al.*⁷, em 1995, a excisão laparoscópica dos cistos com reconstrução em Y de Roux e hepático-jejuno-anastomose em crianças tem ganhado atenção mundialmente⁸.

1 - Hospital Pequeno Príncipe, Departamento de Cirurgia Pediátrica, Curitiba, PR, Brasil.

O objetivo deste estudo foi descrever os primeiros 13 casos de correção laparoscópica da dilatação congênita da via biliar em nossa Instituição durante um período de dois anos, discutir seus resultados e realizar uma revisão da literatura.

MÉTODOS

Foi realizada avaliação retrospectiva dos registros médicos de pacientes submetidos a tratamento laparoscópico do cisto de colédoco no período entre março de 2014 e setembro de 2016. Os seguintes dados foram coletados a partir de um questionário padronizado: nome, sexo, idade ao diagnóstico, idade na cirurgia, episódios de pancreatite anterior ao tratamento, sintomas, exames de imagem e classificação de Todani, técnica cirúrgica escolhida, complicações intraoperatórias e pós-operatórias, tempo de hospitalização, seguimento e sintomas pós-operatórios. Os dados foram tabulados em Excel® para análise descritiva.

A pesquisa foi aprovada previamente pelo Comitê de Ética da Instituição, tendo como aprovação o parecer CAAE: 58448116.3.0000.0097.

RESULTADOS

Durante o período do estudo, 13 ressecções laparoscópicas de cisto de colédoco foram realizadas. Oito (61,5%) pacientes eram do sexo feminino e cinco (38,5%) do sexo masculino. A média de idade ao diagnóstico foi de 6,4 anos (variando de dois meses a 11,4 anos) e, no momento da cirurgia, de 7,8 anos (variando de dois meses a 14,3 anos). Em relação aos episódios de pancreatite, observou-se que 53,8% dos pacientes (7/13) apresentaram pancreatite aguda previamente ao diagnóstico etiológico. A dor abdominal foi a manifestação clínica mais frequente, como descrito na tabela 1.

Tabela 1. Quadro clínico.

Sintomas	Número de pacientes	%
Dor abdominal	12/13	92,3%
Icterícia	6/13	46,1%
Vômito	2/13	15,3%
Febre	1/13	7,7%

Os dados relativos a cada paciente são mostrados na tabela 2.

O diagnóstico foi confirmado através de ultrassonografia e colangiorressonância em todos os pacientes. Nos casos de pancreatite aguda os testes de função hepática e amilase foram realizados a fim de avaliar a melhora clínica e laboratorial. A anastomose hepático-duodenal foi o procedimento de reconstrução biliar mais comumente realizado, em 84,6% dos casos. Não houve conversão para laparotomia ou complicações intraoperatórias. Todos os pacientes foram submetidos à drenagem da cavidade abdominal com dreno de sucção por um período médio de 6,7 dias e o tempo médio de hospitalização foi de 7,7 dias (variando de cinco a 26 dias). Um paciente apresentou fístula biliar e foi reoperado por laparotomia no nono dia após a primeira cirurgia para reforço da anastomose. Este paciente tinha história de mais de um episódio de pancreatite pré-operatória e apresentava grande quantidade de aderências e tecidos friáveis no primeiro procedimento.

Todos os pacientes permanecem em acompanhamento ambulatorial, com um tempo de seguimento médio de 16 meses (variando de oito meses a 2,6 anos), estão assintomáticos e não apresentaram colangite no pós-operatório. Um paciente desenvolveu vômitos e dor abdominal após a cirurgia. A endoscopia digestiva alta demonstrou gastrite com *Helicobacter pylori* positivo e o paciente apresentou melhora clínica após tratamento.

Tabela 2. Dados demográficos dos pacientes.

Paciente	Idade ao diagnóstico	Idade à cirurgia	Sexo	Sintomas	Pancreatite aguda	Classificação de Todani	Técnica cirúrgica	Complicações	LOS	Seguimento	Sintomas pós-operatórios
1	7 anos	10,8 anos	M	Dor + icterícia	Não	I	HJ	Não	8 dias	2,6 anos	Assintomático
2	5 meses	7 meses	M	Dor	Não	I	HJ	Não	6 dias	2,6 anos	Assintomático
3	7,1 anos	7,2 anos	F	Dor	Não	I	HD	Não	5 dias	2 anos	Assintomático
4	7,3 anos	7,4 anos	M	Dor, icterícia, febre e vômito	Sim	I	HD	Fístula biliar	26 dias	1,9 anos	Assintomático
5	4,6 anos	4,7 anos	F	Dor + icterícia	Não	I	HD	Não	6 dias	1,8 anos	Assintomático
6	8 anos	9 anos	M	Dor	Sim	I	HD	Não	6 dias	1,7 anos	Assintomático
7	6,6 anos	6,7 anos	F	Dor + vômito	Sim	I	HD	Não	6 dias	1,6 anos	EDA: <i>H pylori</i> +
8	2 meses	2 meses	F	Icterícia	Não	I	HD	Não	6 dias	1,3 anos	Assintomático
9	9,4 anos	9,5 anos	F	Dor + vômito	Sim	I	HD	Não	6 dias	1,1 anos	Assintomático
10	11,4 anos	12,4 anos	F	Dor	Sim	I	HD	Não	5 dias	10 meses	Assintomático
11	7,3 anos	8,5 anos	M	Dor + icterícia	Sim	IV	HD	Não	5 dias	9 meses	Assintomático
12	4 anos	14,3 anos	F	Dor	Não	IV	HD	Não	5 dias	8 meses	Assintomático
13	10,3 anos	10,4 anos	F	Dor, icterícia e febre	Sim	I	HD	Não	6 dias	8 meses	Assintomático

M: Masculino; F: Feminino; HJ: Hepático-jejunal; HD: Hepático-duodenal; LOS: Tempo de hospitalização.

DISCUSSÃO

A dilatação biliar congênita representa um desafio diagnóstico e terapêutico para os cirurgiões pediátricos, demandando alto grau de suspeição e investigação etiológica eficiente, para o correto diagnóstico e tratamento apropriado⁴. Cerca de 80% dos pacientes se tornam sintomáticos na infância⁹ e os sintomas mais comum são dor abdominal, em cerca de 60% dos casos, icterícia, em 80%, e vômitos, em cerca de 44%⁶. A tríade clássica de icterícia, dor abdominal e massa palpável é encontrada em apenas 20% dos pacientes, com predominância na faixa etária pediátrica¹.

Os pacientes nesta série foram predominantemente do sexo feminino (61,5%), porém em proporções não tão superiores quanto às relatadas na literatura, que é de 4:1 para o sexo feminino. Em relação à sintomatologia, a maioria deles apresentou dor (92,3%) e icterícia (46,1%), como descrito na literatura, porém nenhum paciente apresentou a tríade clássica. A classificação de Todani ainda é a mais aceita e usada em todo o mundo (Figura 1)¹⁰. De acordo com a literatura, a forma mais comum em crianças é o tipo I, em até 75% dos casos, como foi encontrado nesta série, seguida pelo tipo IV, com cerca de 19% dos casos².




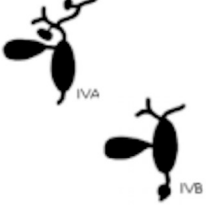

I	Cisto limitado ao trato biliar extra-hepático IA – dilatação sacular acometendo a porção distal do colédoco IB – Dilatação sacular limitada do ducto hepático comum e do colédoco IC – Dilatação fusiforme do ducto hepático comum e do colédoco	
II	Divertículo extra-hepático, supra duodenal com vesícula biliar e ducto hepático comum normais	
III	Coledococoele: divertículo intra duodenal	
IV	Dilatação dos ductos intra e/ou extra-hepáticos IV A – dilatação fusiforme do ducto extra-hepático e cistos intra-hepáticos IV B – múltiplas dilatações da árvore biliar extra-hepática, sem alterações intra-hepáticas	
V	Múltiplos cistos intra-hepáticos, sem alterações extra-hepáticas Quando combinada com fibrose hepática, recebe o nome de Síndrome de Caroli	

Figura 1. Classificação de Todani (1977) para os cistos de colédoco.

Atualmente, a investigação se inicia com ultrassonografia, que apresenta alta sensibilidade para diagnóstico das doenças do trato biliar⁴. O diagnóstico pré-natal tem sido descrito em alguns casos a partir da

15ª semana de gestação e vem se tornando cada vez mais frequente em nosso meio². Nesta série, apenas um paciente recebeu diagnóstico pré-natal. Testes não invasivos para definir a anatomia da árvore biliar

incluem tomografia computadorizada (sensibilidade e especificidade de cerca de 90%), cintilografia hepatobiliar com tecnécio 99 e ressonância magnética (70 a 100% de sensibilidade e 90 a 100% de especificidade). Todos estes métodos podem ser usados como abordagem diagnóstica, sendo a ressonância magnética o exame de primeira linha^{1,4}. Todos os pacientes desta amostra foram submetidos à ultrassonografia e ressonância magnética para confirmação diagnóstica.

Após a confirmação diagnóstica, o tratamento de escolha é o cirúrgico e consiste na ressecção completa do cisto acompanhada de anastomose bileodigestiva para reconstrução do trânsito. Com relação à abordagem laparoscópica, as principais vantagens incluem a excelente visualização e menores perdas sanguíneas¹¹, além de melhor recuperação pós-operatória, menor trauma cirúrgico, menos dor pós-operatória, menor agressão à parede abdominal, menor tempo de drenagem da cavidade, redução do tempo de íleo paralítico pós-operatório e menor tempo de hospitalização. As complicações gerais e taxas de mortalidade também são mais baixas em comparação com as séries de pacientes tratados por cirurgia aberta^{12,13}. A abordagem cirúrgica consiste na completa remoção do cisto associada à reconstrução da árvore biliar através de hepático-êntero-anastomose. Apesar da hepático-jejunostomia ter sido considerada o padrão ouro durante muitos anos, a hepático-duodenostomia vem ganhando cada vez mais adeptos e tem sido preferida por muitos cirurgiões, que alegam menor tempo operatório, menores chances de aderências pós-operatórias, menor tempo de hospitalização, menor incidência de fístulas anastomóticas e também maior facilidade para dilatação por endoscopia em caso de estenose na anastomose⁵. A maioria dos pacientes nesta série foi submetida à reconstrução por anastomose hepático-duodenal. Apenas os dois primeiros pacientes foram submetidos à hepático-jejunostomia.

Outro assunto controverso em relação ao tratamento, diz respeito à drenagem da cavidade abdominal. Estudos recentes demonstraram alguns aspectos contrários à drenagem, como infecções graves e

estreitamentos do ducto hepático comum¹⁴. Entretanto, os cirurgiões que optam por drenagem, o fazem com o intuito de diagnosticar precocemente possíveis fístulas biliares. Nesta série, todos os pacientes foram submetidos à drenagem da cavidade abdominal. Nenhum paciente apresentou complicações relacionadas à drenagem e houve um caso de fístula biliar, que foi diagnosticada precocemente graças ao uso do dreno. Além da fístula biliar, descrita na literatura como presente em até 10% dos pacientes, outras complicações pós-operatórias podem ocorrer, mas são incomuns, como deiscência da anastomose, colangite, pancreatite, obstrução intestinal por bridas e infecção da ferida operatória¹⁵.

Em relação ao seguimento, alguns estudos demonstram que, mesmo os pacientes com diagnóstico pré-natal e operados no primeiro ano de vida, apresentam alterações nas biópsias hepáticas como um resultado da obstrução biliar, com proliferação ductal, fibrose e até mesmo cirrose⁴. Alterações malignas do epitélio do ducto biliar podem ocorrer mesmo após a remoção do cisto e, desta forma, os pacientes precisam ser seguidos e observados quanto à recorrência dos sintomas. Algumas destas transformações malignas têm sido vistas mesmo em áreas distantes do cisto original. Localizações comuns para desenvolvimento de malignidades são o ducto biliar (50%), a vesícula, nos pacientes não operados (43%), e a região periampular (2,5%)². Durante o período de *seguimento* os pacientes desta amostra não apresentaram complicações adicionais, recorrência dos sintomas ou sinais de malignização.

Os resultados obtidos em nossa série são comparáveis aos resultados apresentados na literatura, confirmando que a correção laparoscópica do cisto de colédoco é factível, mesmo em crianças pequenas, com baixas taxas de complicação e de conversão para laparotomia quando realizadas por cirurgiões experientes e bem treinados. A anastomose hepático-duodenal se tornou a técnica de escolha por muitos cirurgiões desta equipe, tendo em vista que proporciona uma anastomose mais fácil, menor tempo cirúrgico e de hospitalização, com baixas complicações no seguimento em médio prazo.

ABSTRACT

Objective: to describe the first 13 cases of laparoscopic correction of common bile duct cyst in the Pequeno Príncipe Hospital, Curitiba, Paraná, Brazil. **Methods:** we performed a retrospective analysis of medical records of cases of choledochal cyst operated by laparoscopy between March 2014 and September 2016. **Results:** of the 13 patients, eight were female and the mean age at surgery was 7.8 years. The most common symptom was abdominal pain. The hepaticoduodenal anastomosis was the most used reconstruction technique, in 84.6% of the cases. There was no conversion to laparotomy or intraoperative complications. Only one patient presented anastomotic fistula and was reoperated by laparotomy. All patients were followed up in an outpatient clinic, were asymptomatic and had no episode of cholangitis after surgery, with a mean follow-up of 16 months. **Conclusion:** laparoscopy is a safe method to correct choledochal cysts, even in younger children, with low rates of complications and low rates of conversion to open surgery when performed by well trained surgeons.

Keywords: Pediatrics. Choledochal Cyst. Laparoscopy. Anastomosis, Roux-en-Y. Anastomosis, Surgical.

REFERÊNCIAS

- Silva-Baez H, Coello-Ramírez P, Ixtabalán-Escalante EM, Sotelo-Anaya E, Gallo-Morales M, Cordero-Estrada E, et al. Treatment of choledochal cyst in a pediatric population. A single institution experience of 15-years. Case series. *Ann Med Surg (Lond)*. 2015;5:81-5.
- Subramony R, Kittisarapong N, Barata I, Nelson M. Choledochal cyst mimicking gallbladder with stones in a six-year-old with right-sided abdominal pain. *West J Emerg Med*. 2015;16(4):568-71.
- 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(2):263-9.
- Forny DN, Ferrante SM, Silveira VG, Siviero I, Chagas VL, Méio IB. Choledochal cyst in childhood: review of 30 cases. *Rev Col Bras Cir*. 2014;41(5):331-5.
- Gezer HÖ, Oğuzkurt P, Temiz A, İnce E, Ezer SS, Hiçsönmez A. Choledochal cyst in children: intrahepatic ductal dilatation does not indicate true intrahepatic biliary duct disease. *Turk J Gastroenterol*. 2016;27(1):23-9.
- Gadelhak N, Shehta A, Hamed H. Diagnosis and management of choledochal cyst: 20 years of single center experience. *World J Gastroenterol*. 2014;20(22):7061-6.
- Farello GA, Cerofolini A, Rebonato M, Bergamaschi G, Ferrari C, Chiappetta A. Congenital choledochal cyst: video-guided laparoscopic treatment. *Surg Laparosc Endosc*. 1995;5(5):354-8.
- Lee JH, Kim SH, Kim HY, Choi YH, Jung SE, Park KW. Early experience of laparoscopic choledochal cyst excision in children. *J Korean Surg Soc*. 2013;85(5):225-9.
- Yurttutan N, Karakus SC, Koku N, Demirci M, Ucak R. A giant choledochal cyst in infancy: a case report. *Korean J Pediatr*. 2016;59(5):239-41.
- Tongprasert F, Traisrislp K, Tongsong T. Prenatal diagnosis of choledochal cyst: a case report. *J Clin Ultrasound*. 2012;40(1):48-50.
- Liuming H, Hongwu Z, Gang L, Jun J, Wenying H, Wong KK, et al. The effect of laparoscopic excision vs open excision in children with choledochal cyst: a midterm follow-up study. *J Ped Surg*. 2011;46(4):662-5.
- Liem NT, Pham HD, Vu HM. Is the laparoscopic operation as safe as open operation for choledochal cyst in children? *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2011;21(4):367-70.
- Wang B, Feng Q, Mao JX, Liu L, Wong KK. Early experience with laparoscopic excision of choledochal cyst in 41 children. *J Ped Surg*. 2012;47(12):2175-8.
- Diao M, Li L, Cheng W. To drain or not to drain in Roux-en-Y hepaticojejunostomy for children with choledochal cysts in the laparoscopic era: a prospective randomized study. *J Ped Surg*. 2012;47(8):1485-9.
- Cherqaoui A, Haddad M, Roman C, Gorincour G, Marti J, Bonnard A, et al. Management of choledochal cyst: evolution with antenatal diagnosis and laparoscopic approach. *J Minim Access Surg*. 2012;8(4):129-33.

Recebido em: 02/03/2018

Aceito para publicação em: 22/03/2018

Conflito de interesse: nenhum.

Fonte de financiamento: nenhuma.

Endereço para correspondência:

Carolina Talini

E-mail: caroltalini@yahoo.com.br /

fbersani.amado@gmail.com

