

- [6] Ni JB, Zhu MY, Li K, et al. The feasibility of cap-assisted routine adult colonoscope for therapeutic endoscopic retrograde cholangiopancreatography in patients with Roux-en-Y reconstruction after total gastrectomy[J]. J Dig Dis, 2021,22(12):721-726. DOI: 10.1111/1751-2980.13069.
- [7] Tønnesen CJ, Young J, Glomsaker T, et al. Laparoscopy-assisted versus balloon enteroscopy-assisted ERCP after Roux-en-Y gastric bypass[J]. Endoscopy, 2020, 52(8):654-661. DOI: 10.1055/a-1139-9313.
- [8] Ayoub F, Brar TS, Banerjee D, et al. Laparoscopy-assisted versus enteroscopy-assisted endoscopic retrograde cholangiopancreatography (ERCP) in Roux-en-Y gastric bypass: a meta-analysis[J]. Endosc Int Open, 2020, 8(3): E423-436. DOI: 10.1055/a-1070-9132.
- [9] Ichkhanian Y, Yang J, James TW, et al. EUS-directed transenteric ERCP in non-Roux-en-Y gastric bypass surgical anatomy patients (with video)[J]. Gastrointest Endosc, 2020, 91(5):1188-1194.e2. DOI: 10.1016/j.gie.2019.12.043.
- [10] Ogura T, Higuchi K. Endoscopic ultrasound-guided hepaticogastrostomy: technical review and tips to prevent adverse events[J]. Gut Liver, 2021, 15(2): 196-205. DOI: 10.5009/gnl20096.

内镜逆行胰胆管造影术治疗支气管胆管瘘 1 例

张蒙 刘宏伟 吕璵 邹晓平

南京大学医学院附属泰康仙林鼓楼医院消化内科, 南京 210046

通信作者: 邹晓平, Email: 13770771661@163.com

【摘要】 支气管胆管瘘(bronchobiliary fistula, BBF)是一种罕见的临床疾病,由胆管和支气管之间的异常交通引起,以病理性胆汁痰为特征。目前研究认为BBF的形成与感染性疾病(如包虫感染、肝脓肿等)、创伤、肿瘤侵袭和医源性损伤相关。本文报道 1 例内镜逆行胰胆管造影术诊治的肝脏手术相关BBF。

【关键词】 胰胆管造影术,内窥镜逆行; 支气管胆管瘘; 内镜下胆道塑料支架置入引流术; 经内镜鼻胆管引流术

Endoscopic retrograde cholangiopancreatography for bronchobiliary duct fistula: a case report

Zhang Meng, Liu Hongwei, Lyu Ying, Zou Xiaoping

Department of Gastroenterology, Taikang Xianlin Drum Tower Hospital, The Affiliated Hospital of Nanjing University Medical School, Nanjing 210046, China

Corresponding author: Zou Xiaoping, Email: 13770771661@163.com

患者女,65岁,因“咳嗽咳痰1个月余”于2022-11-03入院。既往有乙肝病史,2019年3月及2020年5月因肝细胞癌先后行两次外科手术(具体不详),2022年7月行肝细胞癌射频消融术。患者入院前1个月余无明显诱因下出现咳嗽咳痰,痰色金黄,量约600 mL/d,随后出现发热,体温最高38.7℃,伴轻度胸闷,多次查胸部CT提示右肺感染(图1),考虑肺部感染收入我院呼吸内科。入院查体:生命体征平稳,神志清,精神可,双肺呼吸音粗,右肺闻及散在湿啰音,心律齐,各瓣膜区未闻及病理性杂音,腹软,无压痛、反跳痛,肝脾肋下未及,肝肾区无叩击痛,移动性浊音(-),肠鸣音正常,双下肢无水肿。辅助检查:白细胞 $17.58 \times 10^9/L$,

中性粒细胞百分比86.7%;丙氨酸转氨酶19 U/L,天冬氨酸转氨酶29 U/L,碱性磷酸酶201 U/L,谷酰转肽酶176 U/L;C反应蛋白18.5 mg/L;肾功能、凝血功能正常。住院期间经积极抗感染、雾化、止咳、平喘对症治疗后症状改善不明显。2022-11-14完善支气管镜检查见支气管内金黄色分泌物(图2),咳出物总胆红素19.5 $\mu\text{mol/L}$,考虑支气管胆管瘘(bronchobiliary fistula, BBF)可能。

为进一步明确诊断,于2022-11-25行ERCP,术中见肝内散在粒子,碘克沙醇用生理盐水1:1稀释后造影可见肝内胆管扩张,并见造影剂流入气管内,胆总管扩张约1.6 cm,留置鼻胆管(图3)。

DOI: 10.3760/cma.j.cn321463-20230628-00131

收稿日期 2023-06-28 本文编辑 许文立 唐涌进

引用本文:张蒙,刘宏伟,吕璵,等.内镜逆行胰胆管造影术治疗支气管胆管瘘1例[J].中华消化内镜杂志,2024,41(9):736-738. DOI: 10.3760/cma.j.cn321463-20230628-00131.



患者 BBF 诊断明确,留置鼻胆管引流通畅,量 100~200 mL/d,术后患者咳嗽好转,仍间断咳金黄色痰,痰量较前稍减少,未再出现发热、胸闷不适。考虑患者胆汁引流治疗有效后拟行胆管支架置入术,于 2022-12-06 再次行 ERCP,术中见鼻胆管在位,少许造影剂流入气道,较前明显减少,拔除鼻胆管后于左侧肝内胆管置入 2 枚 7 Fr×12 cm 单猪尾塑料支架,见胆汁引流通畅(图 4)。

术后患者咳嗽减轻,间断咳金黄色痰,咳痰量减少,复查胸部 CT 提示右肺中下叶炎症伴右肺中叶实变,右肺下叶炎症较前好转(图 5)。考虑患者胆管支架位置不能满足引流的充分性,2022-12-14 再次行 ERCP,术中见 2 枚支架在位,圈套器取出 1 枚,于左肝内胆管留置鼻胆管引流(图 6)。术后间断行鼻胆管冲洗可见少量胆汁样液体引出,量 10~60 mL/d。2022-12-27 行鼻胆管造影示胆道内造影剂未见明显外溢征象。

术后患者咳嗽症状逐渐好转,痰液逐渐转为少量白色黏痰,复查白细胞 $9.2 \times 10^9/L$;丙氨酸转氨酶 31 U/L,天冬氨酸转氨酶 50 U/L,碱性磷酸酶 363 U/L,谷酰转肽酶 400 U/L,

总胆红素 $9.5 \mu\text{mol/L}$;肾功能、C 反应蛋白正常;胸部 CT 见两肺散在炎症,较前明显好转(图 7),予带鼻胆管出院。出院后患者无明显咳嗽,未再出现咳黄痰、发热、胸闷等不适,出院 2 周后门行鼻胆管拔除,1 个月后随访患者恢复良好。

讨论 BBF 是一种临床上十分罕见且复杂的疾病,由胆管和支气管之间的异常交通引起,以病理性胆汁痰为特征,最早被报道于 1850 年^[1]。ERCP 在 BBF 的诊断和治疗过程中起到至关重要的作用。

BBF 包括先天性和获得性,目前研究认为获得性 BBF 的形成主要与肝脏恶性肿瘤以及胆道结石、肿瘤、包虫病或术后狭窄引起的胆道梗阻相关^[2]。BBF 的形成机制尚未完全清楚,胆道压力升高和局部炎症可能是导致 BBF 发生的两个主要因素^[3]。射频消融术是肝细胞癌的重要治疗方法之一^[4],研究报道射频消融术后 BBF 的发生率为 0.2%~0.9%^[5-6],发生时间可以在术后 2~58 d^[6]。本例患者在出现症状前约 2 个月曾因肝细胞癌行射频消融术,因此考虑其 BBF 的发生与射频消融术相关。

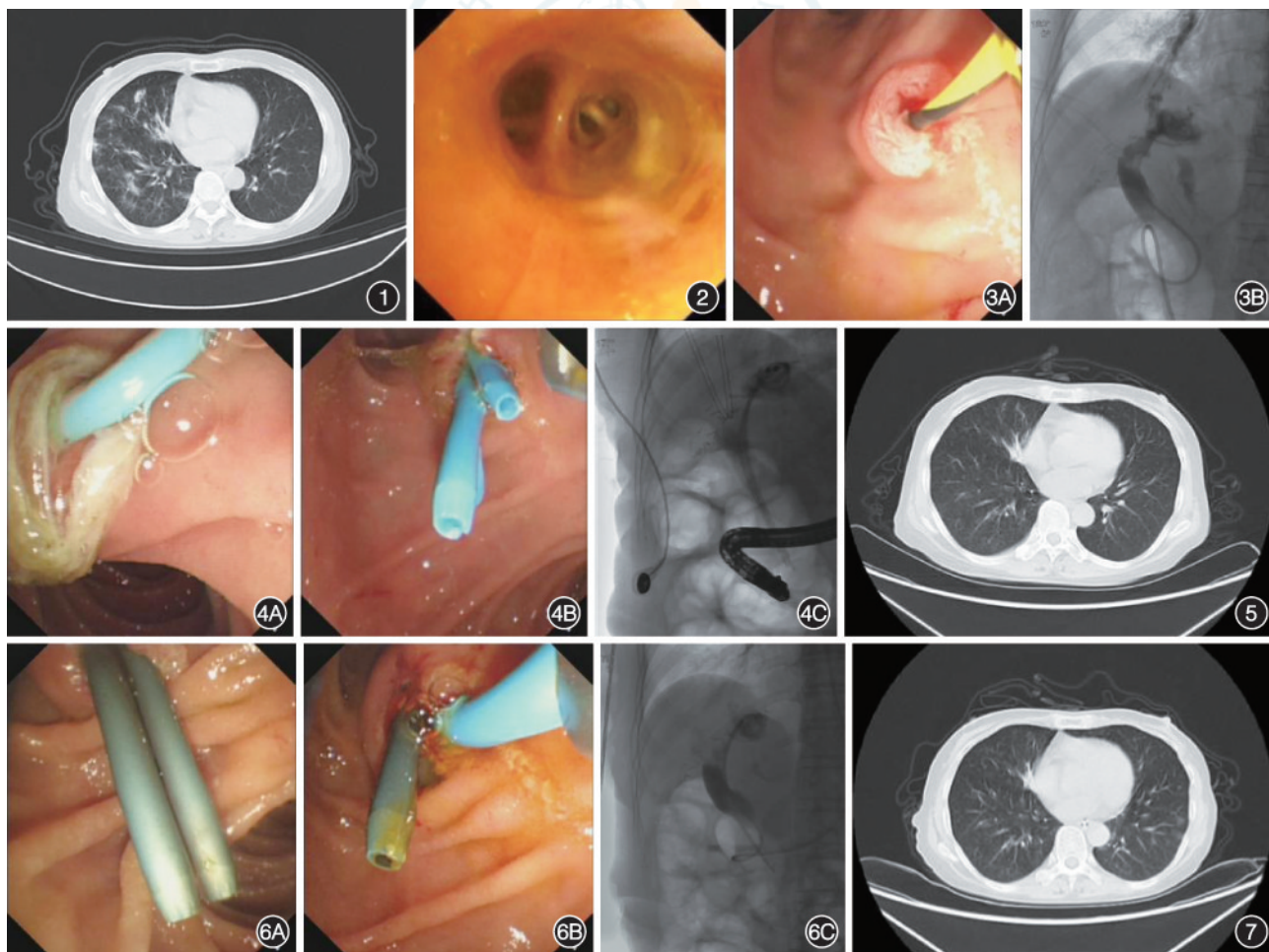


图 1 入院前胸部 CT 提示右肺散在感染 图 2 支气管镜检查见气管内金黄色分泌物 图 3 行内镜逆行胆胰管造影术并留置鼻胆管 3A:内镜下经十二指肠乳头留置胆管导丝;3B:术中造影见胆管扩张,并见造影剂流入气管内,留置鼻胆管 图 4 胆管支架置入术 4A:内镜下见鼻胆管在位;4B:拔除鼻胆管后于置入 2 枚单猪尾塑料支架;4C:X 线下见胆管支架在位 图 5 治疗后胸部 CT 提示右肺下叶炎症较前好转 图 6 拔除 1 枚胆管支架并置入鼻胆管 6A:内镜下见 2 枚胆管支架在位;6B:内镜下拔除其中 1 枚胆管支架并置入鼻胆管;6C:X 线下见胆管支架及鼻胆管在位 图 7 出院前胸部 CT 见两肺散在炎症,较前明显好转

BBF 的典型症状是咳大量胆汁痰, 常为黄绿色或金黄色, 味苦, 同时会合并原发性及继发性肺部感染的相关症状及体征, 如发热、黄疸、呼吸困难、胸痛等^[7]。在本病例中, 患者以咳嗽、咳金黄色痰起病, 病程中出现发热、轻度呼吸困难, 影像学检查提示肺部感染, 经积极抗感染治疗后效果不佳。由于 BBF 在临床中十分罕见, 因此临床医师应提高对该疾病的敏感性, 当出现疑似临床表现时, 应注意 BBF 发生的可能, 同时排查病因。

由于持续的 BBF 可导致胆汁流入支气管造成严重的肺损伤、肺实变甚至坏死性肺炎, 因此 BBF 的早期诊断和治疗至关重要^[8]。详细询问病史及既往史对 BBF 的诊断十分重要, 痰液胆红素阳性对疾病的诊断也有重要意义^[9]。常规的 B 超、CT、MRI 等检查对疾病诊断的特异性不强, 且无法对 BBF 进行准确定位, 增强磁共振胰胆管成像和肝胆亚氨二醋酸扫描作为非侵入性检查相对安全且准确性高^[10-11]。支气管镜检查、经皮肝穿胆管造影术和 ERCP 可显示瘘管的开口及走行, 同时在诊断的过程中可以进行治疗。本病例中首先应用支气管镜检查评估气道内情况, 随后在 ERCP 的协助下明确诊断气管胆管瘘, 同时在首次 ERCP 的过程中置入鼻胆管缓解胆道压力。

生长抑素及其类似物可用于缓解症状并促进瘘管愈合, 但单纯的药物治疗并不能使 BBF 达到治愈^[12]。既往研究显示支气管镜下镍钛合金封堵器或生物胶、医用胶封闭、ERCP 置入鼻胆管或支架引流、经皮肝穿胆道引流术等微创治疗方式创伤小且恢复快, 目前是治疗 BBF 的首选方式^[8, 13-17]。但现有研究尚未对各种微创治疗方式的鉴别、选择依据及预后差别提出明确的建议。本例患者先后经内镜下鼻胆管引流及支架引流达到 BBF 的治愈, 手术创伤小且术后恢复良好。

综上所述, 由于 BBF 的发生率很低, 目前尚未形成疾病诊治的共识及指南。BBF 的早期诊断及治疗对疾病的预后十分重要, 因此当出现疑似临床表现时, 应考虑 BBF 发生的可能。除了详细的询问现病史及既往史, ERCP 在疾病的诊断方面也发挥了很大的作用, 同时在诊断的过程中也可以采取相应的治疗措施, 临床研究已证实其有效性及良好的预后。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

参 考 文 献

- [1] Peacock TB. Case in which hydatids were expectorated, and one of suppuration in a hydatid cyst of the liver communicating with the lungs [J]. *Edinb Med Surg J*, 1850, 74(184): 33-46.
- [2] Liao GQ, Wang H, Zhu GY, et al. Management of acquired bronchobiliary fistula: a systematic literature review of 68 cases published in 30 years[J]. *World J Gastroenterol*, 2011, 17(33):3842-3849. DOI: 10.3748/wjg.v17.i33.3842.
- [3] Lazarou V, Moris D, Papalampros A, et al. Bronchobiliary fistula after hepatectomy: a case report and review of the literature[J]. *Mol Clin Oncol*, 2019, 11(6): 602-606. DOI: 10.3892/mco.2019.1935.
- [4] Izzo F, Granata V, Grassi R, et al. Radiofrequency ablation and microwave ablation in liver tumors: an update[J]. *Oncologist*, 2019, 24(10): e990-1005. DOI: 10.1634/theoncologist.2018-0337.
- [5] Tateishi R, Shiina S, Teratani T, et al. Percutaneous radiofrequency ablation for hepatocellular carcinoma. An analysis of 1000 cases [J]. *Cancer*, 2005, 103(6): 1201-1209. DOI: 10.1002/cncr.20892.
- [6] Huang ZM, Zuo MX, Gu YK, et al. Bronchobiliary fistula after ablation of hepatocellular carcinoma adjacent to the diaphragm: case report and literature review[J]. *Thorac Cancer*, 2020, 11(5): 1233-1238. DOI: 10.1111/1759-7714.13380.
- [7] 王继涛, 朱震宇, 张绍庚, 等. 近 25 年我国胆管支气管瘘文献分析: 附 213 例报告[J]. *中国普通外科杂志*, 2014, 23(2): 147-152.
- [8] Aydin U, Yazici P, Tekin F, et al. Minimally invasive treatment of patients with bronchobiliary fistula: a case series [J]. *J Med Case Rep*, 2009, 3: 23. DOI: 10.1186/1752-1947-3-23.
- [9] Andrade-Alegre R, Ruiz-Valdes M. Traumatic thoracobiliary (pleurobiliary and bronchobiliary) fistula[J]. *Asian Cardiovasc Thorac Ann*, 2013, 21(1): 43-47. DOI: 10.1177/0218492312454667.
- [10] Karabulut N, Cakmak V, Kiter G. Confident diagnosis of bronchobiliary fistula using contrast-enhanced magnetic resonance cholangiography[J]. *Korean J Radiol*, 2010, 11(4): 493-496. DOI: 10.3348/kjr.2010.11.4.493.
- [11] Annovazzi A, Viceconte G, Romano L, et al. Detection of a suspected bronchobiliary fistula by hepatobiliary scintigraphy [J]. *Ann Nucl Med*, 2008, 22(7): 641-643. DOI: 10.1007/s12149-008-0154-z.
- [12] Ong M, Moozar K, Cohen LB. Octreotide in bronchobiliary fistula management[J]. *Ann Thorac Surg*, 2004, 78(4): 1512-1513. DOI: 10.1016/j.athoracsur.2003.10.137.
- [13] Keckler SJ, Spilde TL, St Peter SD, et al. Treatment of bronchopleural fistula with small intestinal mucosa and fibrin glue sealant[J]. *Ann Thorac Surg*, 2007, 84(4): 1383-1386. DOI: 10.1016/j.athoracsur.2007.05.009.
- [14] Rutenstock E, Saxena AK, Höllwarth ME. Closure of bronchopleural fistula with porcine dermal collagen and fibrin glue in an infant[J]. *Ann Thorac Surg*, 2012, 94(2): 659-660. DOI: 10.1016/j.athoracsur.2012.03.013.
- [15] 李强, 姚小鹏, 顾红军, 等. 镍钛合金支气管封堵器在支气管瘘封堵中的应用[J]. *第二军医大学学报*, 2004, 25(7): 743-745. DOI: 10.3321/j.issn:0258-879X.2004.07.014.
- [16] Goldman SY, Greben CR, Setton A, et al. Bronchobiliary fistula successfully treated with n-butyl cyanoacrylate via a bronchial approach[J]. *J Vasc Interv Radiol*, 2007, 18(1 Pt 1): 151-155. DOI: 10.1016/j.jvir.2006.10.012.
- [17] Yilmaz U, Sahin B, Hilmioglu F, et al. Endoscopic treatment of bronchobiliary fistula: report on 11 cases[J]. *Hepatogastroenterology*, 1996, 43(7):293-300.