

Caso Clínico / Clinical Case

DERRAME PLEURAL RECIDIVANTE POR FÍSTULA PANCREÁTICO-PLEURAL

B. RIBEIRO ⁽¹⁾, D. GOMES ⁽¹⁾, A. ROSA ⁽¹⁾, P. AMARO ⁽¹⁾, L. TOMÉ ⁽¹⁾, M. LEITÃO ⁽¹⁾, DINIZ DE FREITAS ⁽¹⁾

Resumo

A fístula pancreático-pleural é uma complicação rara da pancreatite crónica e resulta da ruptura posterior do canal pancreático ou da extensão de um pseudoquisto na cavidade pleural. Habitualmente apresenta-se como um derrame pleural volumoso e recorrente, com níveis extremamente elevados de amilase. Aproximadamente metade dos casos resolvem apenas com tratamento conservador. Os doentes que não respondem à terapêutica médica devem ser submetidos a terapêutica endoscópica (descompressiva) ou tratamento cirúrgico. Apresentamos um caso de fístula pancreático-pleural num homem com pancreatite crónica alcoólica, em que o diagnóstico foi confirmado por CPRE e tratado eficazmente com ocreatide e esfínterectomia da papila maior e da acessória.

Summary

Pancreaticopleural fistula is an uncommon complication of chronic pancreatitis and results from posterior disruption of the pancreatic duct or pancreatic pseudocyst extension into the pleural cavity. It is usually presented as a large, recurrent pleural effusion with markedly elevated amylase levels. About 50% of cases are successfully treated with conservative therapy. In patients who do not respond to medical therapy, endoscopic or surgical treatment is mandatory. We present a case of pancreaticopleural fistula confirmed by ERCP and successfully treated by octreotide and endoscopic sphincterotomy of the major and accessory papilla.

GE - *Jornal Português de Gastroenterologia* 2000, 7: 161-164

INTRODUÇÃO

As complicações pleuro-pulmonares associadas a pancreatite incluem atelectasias, pneumonites, síndrome de dificuldade respiratória do adulto, pseudoquistos intratorácicos e derrames pleurais (1,2). A incidência do derrame pleural na pancreatite aguda é de 3 a 17%, sendo

este geralmente pequeno, localizado no hemitórax esquerdo, auto-limitado e provocado muito provavelmente por inflamação do diafragma com drenagem linfática no espaço pleural (1-5). Em contrapartida a pancreatite crónica, com ou sem formação de pseudoquisto, é raramente complicada por derrame pleural, sendo habitualmente volumoso e recorrente. Nesta situação o derrame resulta da formação de uma fístula pancreático-pleural (FPP) provocada pela ruptura posterior do canal pancreático ou pela extensão de um pseudoquisto através do mediastino na cavidade pleural (1,2,5). Os autores apresentam um caso de derrame pleural recidivante provocado por uma FPP num doente com pancreatite crónica alcoólica, em que o diagnóstico foi confirmado pela CPRE.

CASO CLÍNICO

Homem de 45 anos, com hábitos etílicos marcados, que em Setembro de 1999 recorreu ao serviço de urgência por dispneia desde há dois meses com agravamento acentuado nas duas últimas semanas. Referia também dor torácica à esquerda, principalmente com a inspiração profunda e negava queixas abdominais. Cinco anos antes, foi-lhe diagnosticado um seminoma abdominal que foi tratado com quimioterapia e extirpação do testículo que se localizava sobre a bexiga. Em Janeiro de 1998, esteve internado por um quadro de pancreatite e nódulo hipodenso de 3 cm na cabeça do pâncreas, em que uma citologia (por punção ecoguiada) foi suspeita de adenocarcinoma. Foi proposta cirurgia que o doente recusou. Nessa altura, apresentava também uma colecção líquida na transição toraco-abdominal e derrame pleural à direita rico em amilase tratado por toracocentese. Três meses depois, foi internado novamente por pancreatite e derrame pleural septado com paquipleurite à direita, tendo-se feito descorticação pleural. Nesse internamento verificou-se que o nódulo de 3 cm

(1) Serviço de Gastroenterologia, Hospitais da Universidade de Coimbra, Coimbra.

Recebido para publicação: 19/05/2000

Aceite para publicação: 28/07/2000

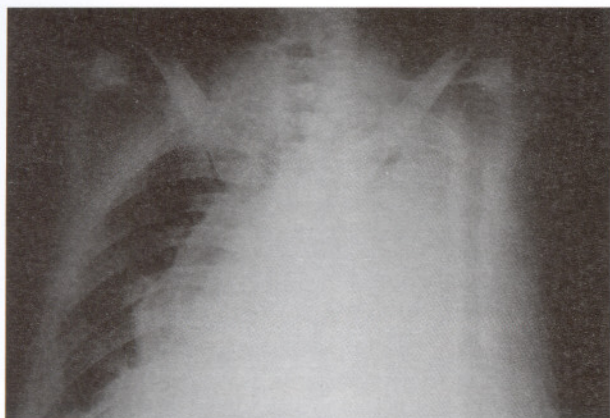


Figura 1 - Radiografia do tórax (PA) – Derrame pleural extenso ocupando todo o hemitórax esquerdo.

na cabeça do pâncreas, cuja citologia tinha sido suspeita de adenocarcinoma tinha agora características de pseudoquisto na TAC. Esteve assintomático, até Julho de 1999 altura em que é internado num serviço de cirurgia, por novo quadro de pancreatite com boa evolução. Ficou com indicação de fazer TAC toraco-abdominal no domicílio, sendo o doente portador do relatório na altura em que é internado no nosso serviço e que mostrava: Wirsung dilatado, uma colecção líquida com características de pseudoquisto na transição toraco-abdominal com 5,4 cm, um nódulo hipodenso de 2,4 cm na cabeça do pâncreas (provavelmente pseudoquisto) e pequeno derrame pleural à esquerda.

À entrada no nosso serviço, apresentava ao exame objectivo ausência de murmúrio vesicular à auscultação dos 2/3 inferiores do hemitórax esquerdo com maciszez à percussão. Sem dor à palpação abdominal nem ascite. A avaliação laboratorial mostrou um hemograma normal, amilase sérica de 793 UI/L ($N < 120$), amilásúria de 12477 UI/L ($N < 800$) e hipoxémia (PO_2 de 53,3 mmHg).

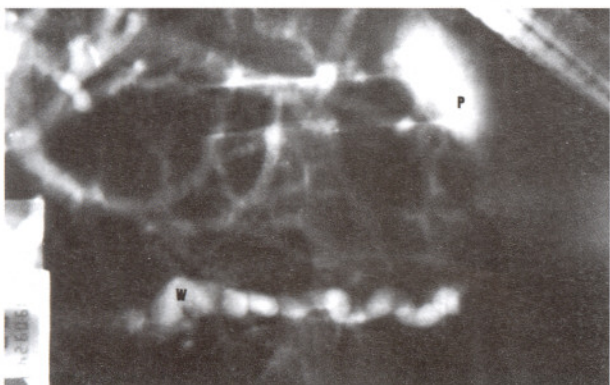


Figura 2 - CPRE – Wirsung (W) muito dilatado e tortuoso com fístula na sua porção caudal para a cavidade pleural esquerda (P).

A beta-gonadotrofina coriônica humana (BHCG) sérica era normal. A radiografia do tórax mostrou um derrame pleural extenso à esquerda com desvio do mediastino para a direita (Figura 1). A análise do líquido pleural revelou um líquido sero-hemático com glicose de 110 mg/dl, proteínas de 2,4 g/dl, BHCG indetectável, citologia e bacteriologia negativas e uma amilase extremamente elevada de 53033 UI/L. Devido a reacumulação rápida do líquido, houve necessidade de toracocenteses repetidas. A ecografia abdominal mostrou um pâncreas difusamente heterogêneo com dilatação do Wirsung e um nódulo hipocogénico com 17 mm na cabeça do pâncreas. A ecoendoscopia mostrou alterações compatíveis com pancreatite crónica, não visualizando qualquer lesão nodular. Com a hipótese de se tratar de uma FPP realizou-se CPRE. No entanto, foi impossível o acesso pancreático através da papila principal por aparente estenose do Wirsung terminal. Foi então realizado wirsungograma através da papila acessória que mostrou um Wirsung tortuoso, dilatado e com comunicação por fístula de alto débito para a pleura esquerda (Figura 2). Após realização de esfínterectomia da papila acessória, não foi possível a passagem do fio-guia o que impediu a introdução de uma prótese. Realizada também esfínterectomia da papila major. Iniciou então, tratamento com octreótido por via subcutânea na dose de 0,1 mg de 8/8 horas, durante 11 dias. Três semanas depois, a radiografia do tórax não mostrou derrame pleural (Figura 3). Num seguimento de sete meses o doente mantém-se assintomático e sem sinais de derrame pleural.

DISCUSSÃO

As FPP são raras ocorrendo só em 0,4% dos doentes com pancreatite (80% com pancreatite crónica alcoólica).

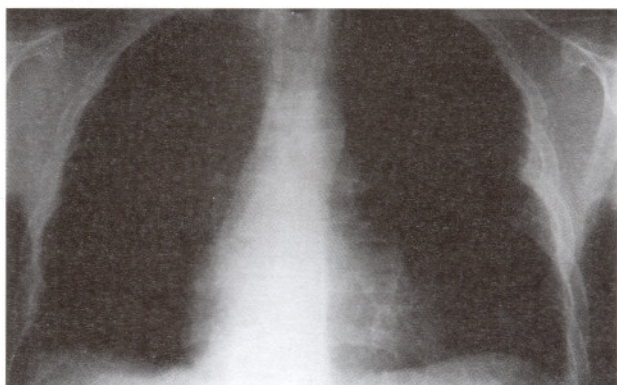


Figura 3 - Radiografia do tórax (PA) mostrando o desaparecimento do derrame pleural, três semanas após o final do tratamento.

ca) e em 3% daqueles com pseudoquistos (1). A formação de uma FPP resulta da ruptura de um canal pancreático ou de um pseudoquisto, provocada pela inflamação crónica e recorrente do pâncreas. Esta ruptura geralmente é posterior (se for anterior leva a formação de ascite) através do hiato esofágico ou aórtico levando à formação de um pseudoquisto mediastínico que se rompe posteriormente na cavidade pleural (1,2,5,6). Por vezes, a fístula segue um trajecto directo para a pleura através do diafragma (6). Devido à comunicação directa, em combinação com a pressão intratorácica negativa, estes derrames tendem a ser volumosos e recorrentes (1). A apresentação clínica das FPP é muitas vezes confusa, uma vez que os sintomas abdominais geralmente estão ausentes ou são dominados pelos sintomas pulmonares tais como dispneia (sintoma mais comum), dor torácica e tosse (1,7). Apenas 50% dos doentes têm uma história clínica de doença pancreática inflamatória prévia (1).

A amilase sérica está moderadamente elevada provavelmente devido não à inflamação aguda do pâncreas, mas à reabsorção da amilase acumulada no derrame pleural. Na maior parte dos casos os derrames são sero-sanguinolentos e tipicamente “exsudativos”, com proteína total pleural >3 g/dl. No entanto, um doseamento baixo de proteínas no líquido pleural, tal como aconteceu com o nosso doente, não exclui a FPP (1). A principal chave para o diagnóstico é a elevação acentuada da amilase no fluido pleural. Uma vez que estes derrames contêm essencialmente fluido pancreático puro, o nível da amilase é extremamente elevado, muitas vezes superior a 50000 UI/L. Na revisão de Rockey e Cello (1) o valor médio de amilase no fluido pleural foi de 18450 UI/L (variando de 1830 – 164187 UI/L). O diagnóstico diferencial de doenças que se manifestam com derrame pleural rico em amilase incluem: pancreatite aguda (geralmente a amilase não ultrapassa 4000 UI/L), perfuração esofágica, linfoma, leucemia linfocítica crónica, carcinoma do pulmão, do ovário, do colo uterino, da mama, do pâncreas e do recto. Nestas situações a amilase apenas está ligeiramente elevada e é constituída por isoamilase não pancreática (1). Virtualmente nenhuma outra doença apresenta valores de amilase no líquido pleural tão elevados como a FPP.

Os exames complementares devem-se iniciar pela radiografia do tórax a qual mostra um derrame pleural extenso localizado em 67% dos casos no hemitórax esquerdo, 19% no direito e 14% bilaterais (1). A ecografia pode ser útil para definir as anormalidades pancreáticas,

podendo raramente visualizar a fístula (8). A TAC abdominal parece ser o melhor exame para distinguir as anormalidades anatómicas pancreáticas, revelando pseudoquistos pancreáticos em 79% dos casos e extensão ao mediastino em 42% (1). O próprio trajecto fistuloso pode ser visível na TAC especialmente se realizada imediatamente após a CPRE (1,9). A colangiografia por ressonância magnética também já diagnosticou FPP (10), no entanto, estes casos ainda são escassos. A CPRE tem um importante papel na avaliação e tratamento da FPP. Embora a demonstração do trajecto fistuloso entre o pâncreas e a pleura seja considerado o “gold standard” diagnóstico (11), o uso da CPRE como ferramenta diagnóstica deve ser limitado aqueles doentes nos quais a TAC é negativa ou equívoca (1). A maior utilidade da CPRE é como forma de tratamento endoscópico ou para definir as relações anatómicas precisas nos doentes que vão ser submetidos a cirurgia.

Em relação ao tratamento a maior parte dos autores advogam de início medidas conservadoras associando: alimentação parenteral total, toracocenteses repetidas e tratamento com somatostatina ou o seu análogo octreótido, com a intenção de diminuir a secreção pancreática e assim encerrar a fístula. Este tipo de tratamento é eficaz em 40 a 60% dos casos e não deve durar mais de 2 a 4 semanas (1,12). O sucesso desta terapêutica é substancialmente menor na presença de estenoses do canal pancreático (13). No caso da terapêutica médica não resultar, sugere-se tratamento endoscópico habitualmente com a introdução de prótese no canal pancreático, com o objectivo de diminuir a pressão elevada no canal e assim encerrar a fístula (6,10,14, 15). A prótese deve ser retirada 1 a 2 meses depois. Se a terapêutica endoscópica falhar o doente deverá ser operado, sendo as alterações verificadas na CPRE orientadoras para o tipo de cirurgia a realizar.

O prognóstico dos doentes com FPP parece ser favorável, com taxa de mortalidade de 5%, sendo a principal complicação a superinfecção (1). Infelizmente não há parâmetros clínicos, testes laboratoriais ou exames de diagnóstico que permitam predizer qual dos doentes beneficiam de terapêutica médica *versus* cirúrgica ou aqueles que terão pior prognóstico.

A apresentação clínica do caso aqui descrito é típica de FPP: Homem, jovem com pancreatite crónica alcoólica que se apresenta com derrame pleural volumoso e recidivante, bastante rico em amilase. Neste caso, a fístula muito provavelmente resultou da extensão da colecção líquida na transição toraco-abdominal (visível

na TAC) para a cavidade pleural, ajudada pela pressão elevada no canal pancreático. A realização da CPRE teve a intenção de confirmar a presença da fístula (não visível na TAC) e avaliar a possibilidade de tratamento endoscópico. Embora, não tivesse sido possível a colocação de prótese, a esfinterotomia da papila major e da acessória, diminuindo a pressão no canal pancreático associada ao tratamento com octreótido, contribuiu para o encerramento da fístula e resolução do derrame pleural.

Correspondência:

Bernardino Novais Ribeiro
Serviço de Gastreenterologia
Hospitais da Universidade de Coimbra
3000-075 Coimbra
Telef.: 239 701 517; Fax: 239 701 517
E-mail: BNRibeiro@hotmail.com

BIBLIOGRAFIA

1. Rockey DC, Cello JP. Pancreaticopleural fistula – report of seven patients and review of the literature. *Medicine* 1990; 69(6): 322-344.
2. Williams SGJ, Bhupalan A, Zureikat N, et al. Pleural effusions associated with pancreaticopleural fistula. *Thórax* 1993; 48: 867-868.
3. Gumaste V, Singh V, Dave P. Significance of pleural effusion in patients with acute pancreatitis. *Am J Gastroenterology* 1992; 87(7): 871-875.
4. Lankisch PG, Droge M, Becher R. Pleural effusions: a new negative prognostic parameter for acute pancreatitis. *Am J Gastroenterol* 1994; 89: 1849-51.
5. Wakefield S, Tutty B, Britton J. Pancreaticopleural fistula: a rare complication of chronic pancreatitis. *Postgrad Med J*. 1996; 72: 115-6.
6. Duchmann JC, Delcenserie R, Finet L, et al. Traitement endoscopique d'une fistule pancréatico-pleurale. A propos d'un cas. *Gastroenterol Clin Biol*. 1995; 19: 837-840.
7. Izbuki JR, Wilken DK, Waldner H, Reiff FL, Schwieberer L. Thoracic manifestations of internal pancreatic fistulas – a report of five cases. *Am J Gastroenterology* 1989; 84(3): 265-271.
8. Duchmann JC, Joly JP, Brazier F, et al. Pancreaticopleural fistula diagnosed sonographically. *AJR Am J Roentgenol*. 1995; 165(6): 1551.
9. Lee DH, Shin DH, Kim TH, et al. Mediastinal pancreatic pseudocyst with recurrent pleural effusion: demonstration by endoscopic retrograde cholangiopancreatogram and subsequent computed tomography scan. *J Clin Gastroenterol* 1992; 14: 68-71.
10. Fulcher AS, Capps GW, Turner MA. Thoracopancreatic fistula: clinical and imaging findings. *J Comput Assist Tomogr*. 1999; 23(2): 181-7.
11. Iglesias JI, Cobb J, Levey J, Rosiello RA. Recurrent left pleural effusion in a 44-year-old woman with a history of alcohol abuse. *Chest*. 1996; 110: 547-49.
12. Cameron JL. Chronic pancreatic ascites and pancreatic pleural effusions. *Gastroenterology* 1978; 74: 134-40.
13. Saari A, Schröder T, Kivilaakso E, et al. Treatment of pancreatic fistulas with somatostatin and total parenteral nutrition. *Scand J Gastroenterol* 1989; 24: 859-62.
14. Griesshammer B, Strobel M. Pancreaticopleural fistula treated by transpapillary implantation of a plastic prosthesis. *Endoscopy*. 1998; 30: 741.
15. Safadi SY, Marks JM. Pancreatic-pleural fistula: the role of ERCP in diagnosis and treatment. *Gastrointest Endosc*. 2000; 51: 213-215.