MEDwave

Reporte de caso
Medwave 2017 Jul;17(6):e7002 doi: 10.5867/medwave.2017.06.7002

Tratamiento quirúrgico de coledocolitiasis en situs inversus totalis: reporte de caso y revisión de la literatura

Surgical treatment of choledocholithiasis in a patient with situs inversus totalis: a case report and literature review

Autores: Jerson Francisco Morales-Rodríguez**[1]**, Estefania Corina Cotillo**[2]**, Oscar Moreno-Loaiza**[3]**

Filiación:
[1] Departamento de Cirugía, Hospital Carlos Alberto Seguín Escobedo, Arequipa, Perú
[2] Facultad de medicina, Universidad Andina Néstor Cáceres Velásquez, Puno, Perú
[3] Facultad de Medicina, Universidad Nacional San Agustín, Arequipa, Perú

E-mail: oscarml5@hotmail.com

Citación: Morales-Rodríguez JF, Corina Cotillo E, Moreno-Loaiza O. Surgical treatment of choledocholithiasis in a patient with situs inversus totalis: a case report and literature review. *Medwave* 2017 Jul;17(6):e7002 doi: 10.5867/medwave.2017.06.7002
Fecha de envío: 24/4/2017
Fecha de aceptación: 9/7/2017
Fecha de publicación: 26/7/2017
Origen: no solicitado
Tipo de revisión: con revisión por tres pares revisores externos, a doble ciego

Palabras clave: coledocolitiasis, situs Inversus, colelitiasis

Resumen

El situs inversus totalis es una rara condición en la que existe trasposición de los órganos torácicos abdominales. Esta situación da lugar a dificultades diagnósticas y terapéuticas en pacientes con cuadros de abdomen agudo quirúrgico. El objetivo de este reporte es dar cuenta del caso de un paciente que presentó con dolor de tipo cólico en epigastrio e hipocondrio izquierdo. Luego de los estudios imagenológicos del caso, el paciente fue diagnosticado como situs inversus totalis, con colelitiasis y coledocolitiasis. El tratamiento fue realizado mediante una colangiopancreatografía retrograda endoscópica y posterior exploración quirúrgica de vías biliares. Ambos procedimientos fueron fallidos, debido a dificultades técnicas generadas por la condición del paciente. En conclusión, pese al reporte de casos exitosos en la literatura de colangiopancreatografía retrograda endoscópica y tratamiento quirúrgico de la vía biliar en situs inversus totalis, pueden existir situaciones que no permitan un abordaje exitoso. Es por ello que una planificación quirúrgica meticulosa y el uso de métodos de apoyo son necesarios en el manejo de estos pacientes.

Abstract

Situs inversus totalis (SIT) is a rare condition, in which there is transposition of the thoraco-abdominal organs. This situation leads to diagnostic and therapeutic difficulties in patients with acute surgical abdomen. The objective of this report is to present the case of a patient who presented with colonic pain in the epigastrium and left hypochondrium, in which the diagnosis of SIT, cholelithiasis and choledocholithiasis was reached after the respective imaging studies. Once the diagnosis was made, treatment was performed through retrograde endoscopic cholangiopancreatography (ERCP) and subsequent surgical exploration of bile ducts. Both procedures were failed due to technical difficulties generated by the patient's condition. In conclusion, in spite of the report of successful cases in the literature of ERCP and surgical treatment of the biliary tract in SIT, there may be situations that do not allow a successful approach, so meticulous surgical planning and the use of support methods are necessary In the management of these patients

Introducción

El *situs inversus totalis* es una rara malformación caracterizada por la trasposición de los órganos torácicos y abdominales, de tal modo que se disponen como "imagen en espejo" pero mantienen sus relaciones anteroposteriores [1]. Esta condición fue reportada por primera vez en el año 1600 por Fabricus. Algunos estudios sitúan la incidencia del *situs inversus totalis* en uno de cada 10 000 casos. No obstante, este valor puede ser mayor debido a subdiagnóstico porque con frecuencia estos pacientes se encuentran asintomáticos [2].

En la exploración y valoración clínica de las enfermedades agudas del abdomen, la localización y las características del dolor son muy importantes a la hora de establecer diagnósticos. Sin embargo, en los pacientes con *situs inversus totalis* se presentan dificultades debido a los cambios de lateralidad de los síntomas [3]. Esta condición puede significar un retraso en el diagnóstico, que condicione posteriores dificultades en la terapia del mismo.

Se han reportado casos de pacientes con *situs inversus totalis* y enfermedades de la vesícula y vías biliares, los cuales han ofrecido distintos grados de dificultad en el tratamiento [4],[5],[6]. El objetivo del presente reporte es presentar un caso de *situs inversus totalis* con coledocolitiasis, en el que el tratamiento fue fallido debido a dificultades técnicas originadas por la condición del paciente. Por ese motivo realizamos además una revisión de la literatura respecto de las opciones de tratamiento endoscópico y quirúrgico que se han presentado en casos similares, a fin de contribuir con el conocimiento de las opciones terapéuticas que se tienen ante esta inusual enfermedad.

Reporte de caso

Varón de 41 años, sin enfermedades crónicas ni cirugías previas. Acudió al hospital refiriendo dos días de dolor de tipo cólico moderado en epigastrio, con irradiación a cuadrante superior izquierdo del abdomen. En forma concomitante presentó náuseas, coluria e hipocolia progresivas. Además refirió dispepsia a grasas de un mes de evolución.

En el examen físico se encontraron funciones vitales conservadas, buen estado de hidratación, ictericia moderada en piel y mucosas, abdomen no distendido, blando, doloroso a la palpación profunda en epigastrio e hipocondrio izquierdo, y signo de Murphy negativo. Los ruidos hidroaéreos estaban conservados en intensidad y frecuencia. Llamó la atención la palpación de masa en hipocondrio izquierdo sugestiva de "esplenomegalia"; así como la ausencia de área de matidez hepática en hipocondrio derecho.

Se solicitaron análisis de laboratorio. Sus resultados fueron hemograma con 5180 leucocitos (0% bastones, 61% segmentados, 9% monocitos, 1% eosinófilos, 29% linfocitos, 0% basófilos); hemoglobina 15 gramos por decilitro; hematocrito 44,8%. La bioquímica sanguínea presentó glucosa 99 gramos por decilitro; creatinina 0,87 miligramos por decilitro; amilasa 59 unidades por decilitro; bilirrubinas totales 8,79 gramos por decilitro; bilirrubina directa 7,47 gramos por decilitro. La bilirrubina indirecta arrojó 1,22; g-glutamiltranspeptidasa 439 unidades internacionales por litro; fosfatasa alcalina 709 unidades internacionales por litro. En orina se encontró trazas de pigmentos biliares.

La ecografía abdominal reportó cambios en la lateralidad de los órganos abdominales. La vesícula biliar presentaba dimensiones de 113 por 69 milímetros, paredes de 5 milímetros y múltiples imágenes hiperecogénicas sugerentes de litiasis vesicular. El colédoco fue visible sólo en su tercio proximal, con 8,1 milímetros de diámetro y sin evidencias de litiasis en la ventana ecográfica evaluada. En radiografía de tórax se evidenció la punta del corazón dirigida hacia el hemitórax derecho.

Para precisar el diagnóstico se solicitó resonancia magnética abdominal y colangiorresonancia (Figuras 1 y 2). En las imágenes se pudo apreciar la trasposición de órganos abdominales, así como una vesícula biliar de 113 por 52 milímetros, con paredes engrosadas y presencia de 30 cálculos. El mayor de estos tenía 5 milímetros de diámetro. En colédoco se apreció litiasis de 11 por 10 milímetros a nivel del tercio proximal, que condiciona dilatación del segmento superior del mismo (Figura 2).

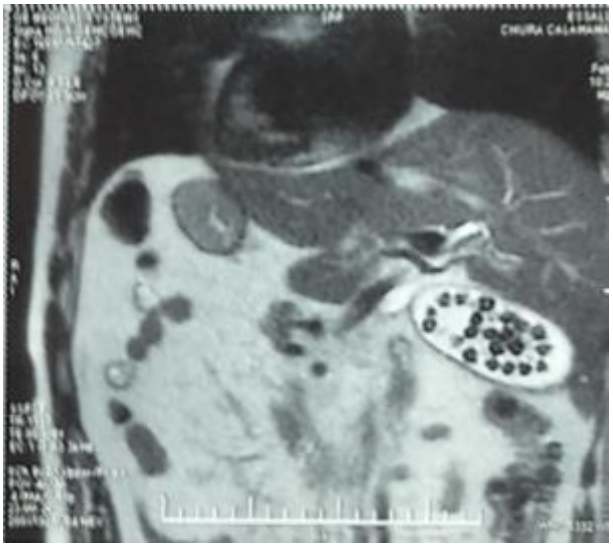

Figura 1. Trasposición de vísceras torácico-abdominales en resonancia magnética nuclear.

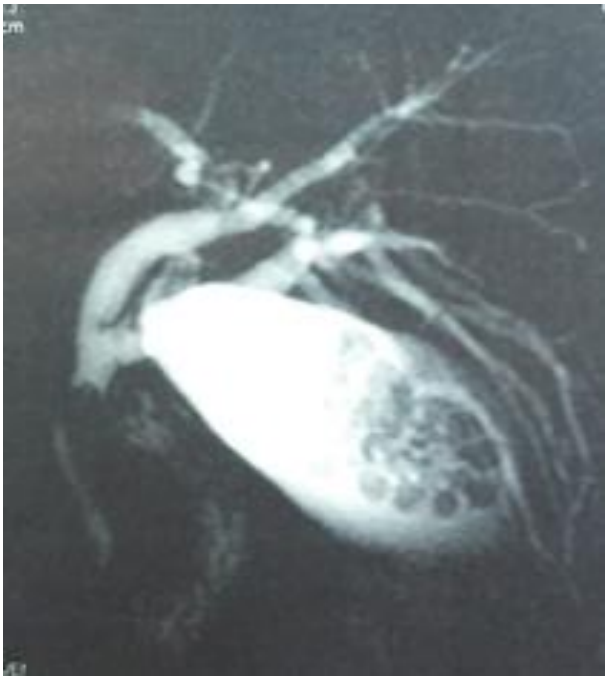

Figura 2. Resonancia magnética nuclear de vesícula biliar y colédoco proximal.

Con estos datos se llegó a los diagnósticos de *situs inversus totalis*, colecistitis crónica litiásica y coledocolitiasis. Por ello se decidió realizar tratamiento a través de colangiopancreatografía retrograda endoscópica. Durante el procedimiento se tuvo un ingreso dificultoso a cámara gástrica, el píloro se encontraba lateralizado y la papila estaba ubicada en lado contralateral. El procedimiento fue suspendido tras varios intentos fallidos de canalizar la papila.

Ante la falla del tratamiento endoscópico se decidió optar por tratamiento quirúrgico. El paciente fue intervenido con anestesia general inhalatoria a través de un abordaje abdominal por incisión subcostal izquierda, tras lo cual se realizó disección por planos. Al llegar a la cavidad abdominal se procedió a realizar colecistectomía directa y coledocotomía. El procedimiento se vio dificultado por la existencia de múltiples adherencias, así como una vía biliar tortuosa con marcada dirección posterior. Se realizó además, exploración de la vía biliar con dilatador de Bakes

y pinza Randall. La exploración de la vía biliar se realizó en reiteradas oportunidades, sin lograr acceder al cálculo enclavado en el tercio distal del colédoco. Se colocó un drenaje Kehr número 16, a través del cual se realizó colangiografía intraoperatoria, evidenciando imagen compatible con cálculo en el tercio distal de colédoco. Luego, se procedió a realizar coledocorrafia.

Tras el procedimiento el paciente presentó disminución del dolor, buena tolerancia a la alimentación por vía oral, disminución de bilirrubinas totales a 4,39 gramos por decilitro. La colangiografía trans Kehr post operatoria mostró una imagen correspondiente a coledocolitiasis residual (Figura 3). Se decidió prorrogar tratamiento definitivo.

Figura 3. Colangiografía trans Kehr.

Discusión

El caso presentado ofreció dificultades diagnósticas y terapéuticas debido a la posición de la vesícula y la vía biliar. En primer lugar la presentación anómala del caso, caracterizado por dolor en epigastrio y cuadrante superior izquierdo, pudo alterar los diagnósticos presuntivos. Esta localización del dolor pudo llevar a plantear diagnósticos que localizaran la enfermedad en estómago, páncreas o colon. Además, pudo alejar la posibilidad de enfermedad en vías biliares.

El hallazgo de una posible "esplenomegalia", debido a la presencia de hígado en posición contralateral, pudo incluir distintos diagnósticos que van desde alteraciones funcionales del bazo (hiperesplenismo), hasta neoplasias como leucemias en el diferencial. Sin embargo, otros de los síntomas presentados por el paciente, como acolia y coluria, eran indicativos de un cuadro colestásico. Dada la amplia gama de posibilidades diagnósticas, era necesario realizar una exploración meticulosa tanto de la analítica de laboratorio como de los estudios imagenológicos. Luego de ello se llegó a concluir el *situs inversus totalis* y la presencia de enfermedad en vesícula y vías biliares.

En cuanto al tratamiento de estas enfermedades, en Colombia se presentó un caso de *situs inversus totalis* con coledocolitiasis distal en el cual la colangiopancreatografía retrograda endoscópica logró ser efectiva [5], a diferencia de nuestro paciente, en que múltiples intentos fueron fallidos. El abordaje realizado en dicho reporte fue con esfinterotomía biliar dirigida hacia horas una a tres de la esfera del reloj y orientación de 180 grados. Esta técnica facilitó el abordaje de la vía biliar, pero ofreció mayor dificultad y cuidado en el procedimiento. Otra forma de mejorar el tratamiento endoscópico de estos pacientes es siguiendo las recomendaciones de Coban y colaboradores, quienes sugirieron que para el caso de colangiopancreatografía retrograda endoscópica en pacientes con *situs inversus totalis*, el conducto biliar sea canulado rotando la punta del esfinterótomo y manipulando la guía hacia el lado derecho [7].

Hu y colaboradores concuerdan con ello y señalan que la colangiopancreatografía retrograda endoscópica es un procedimiento seguro en estos pacientes, pero que es necesario ajustar la posición del paciente y del endoscopista, y hacer uso de técnicas especiales. Estas consideraciones incrementan la dificultad del procedimiento y la posibilidad de fallo en el tratamiento. Por este motivo es necesario contar con los equipos adecuados, personal entrenado y con experiencia, a fin de mejorar las probabilidades de obtener éxito [4].

En torno a la cirugía en pacientes con *situs inversus totalis*, un estudio en México reportó un adecuado abordaje quirúrgico con laparoscopia con asistencia acuscópica [8]. Sin embargo, en dicho estudio se presentaron pacientes

con el diagnóstico de colecistitis y no de coledocolitiasis. En el caso presentado, debido a la ausencia de experiencia previa en casos de *situs inversus totalis*, se decidió realizar colecistectomía y exploración de vías biliares por un acceso abdominal con incisión subcostal.

Sena y colaboradores señalaron que desde un punto de vista quirúrgico, es importante resaltar la necesidad de un planeamiento preoperatorio adecuado en pacientes con *situs inversus totalis.* Ello involucra cambiar la posición del equipo quirúrgico, y en el caso de realizar laparoscopía, los trocares también necesitan reorientación [3]. Pese a estas recomendaciones, está demostrado que la laparoscopía es un abordaje adecuado y seguro, pero que requiere habilidad y experiencia del equipo quirúrgico [9]. Se ha señalado además que la disección de las estructuras en el triángulo de Calot necesita de tiempo extra y es más difícil que en los pacientes con una vesícula normalmente posicionada [10].

Estas situaciones fueron aún más complejas en el paciente que presentamos, en el que existieron adherencias y la dirección de la vía biliar fue más tortuosa y posterior. Esto complica el manejo intraoperatorio del paciente, prolonga la cirugía y expone al mismo a mayor posibilidad de complicaciones post operatorias.

En el manejo del paciente existieron algunas limitaciones, como la ausencia de personal con experiencia previa con casos de *situs inversus totalis.* También dificultó su tratamiento la falla en el abordaje endoscópico. Pese a la falta de experiencia en el manejo de esta enfermedad, una posibilidad habría sido intentar el tratamiento laparoscópico recomendado por la mayoría de los autores, y en caso de que dicho abordaje hubiera sido fallido convertir la cirugía a laparotomía. Además de ello, una alternativa a la exploración de vías biliares realizada, pudo ser el uso de coledocoscopía, canastilla de dormia o sonda Fogarty biliar. Estas opciones quedan también como recomendaciones para el manejo futuro de este paciente, en quien el tratamiento ha sido diferido.

Conclusión

Pese al reporte de casos exitosos de colangiopancreatografía retrograda endoscópica y abordaje quirúrgico de la vía biliar en pacientes con *situs inversus totalis*, pueden existir situaciones en las que las dificultades ofrecidas por la posición anatómica no permitan un abordaje exitoso. Recomendamos que en futuros casos de *situs inversus totalis* se realice una planificación quirúrgica cuidadosa, teniendo en cuenta la técnica a utilizar, así como la pericia del equipo que realizará el procedimiento.

Notas

Aspectos éticos

El consentimiento informado solicitado por *Medwave*, ha sido firmado por el paciente; una copia de este fue remitido a la dirección editorial de la *Revista*.

Declaración de conflictos de intereses

Los autores han completado el formulario de declaración de conflictos intereses del ICMJE traducido al castellano por *Medwave*, y declaran no haber recibido financiamiento para la realización del reporte; no tener relaciones financieras con organizaciones que podrían tener intereses en el artículo publicado, en los últimos tres años; y no tener otras relaciones o actividades que podrían influir sobre el artículo publicado. Los formularios pueden ser solicitados contactando al autor responsable o a la dirección editorial de la *Revista*.

Financiamiento

Los autores declaran que no hubo fuentes de financiación externas.

Referencias

1. Navarro V, Oshiro H, Peña B, Moquillaza Pineda F. [Situs inversus totalis]. Rev Gastroenterol Peru. 2013 Oct-Dec;33(4):345-7. | PubMed |
2. Machado NO, Chopra P. Laparoscopic cholecystectomy in a patient with situs inversus totalis: feasibility and technical difficulties. JSLS. 2006 Jul-Sep;10(3):386-91. | PubMed |
3. Sena R, Weiss M, Abreu A, Costa L, Peixoto R, Gomes C, et al. Laparoscopic Cholecystectomy in Patient with Situs Inversus Totalis: Diagnostic and Treatment Pitfalls. Arch Clin Exp Surg. 2016;5(2): 124-127. | CrossRef |
4. Hu Y, Zeng H, Pan XL, Lv NH, Liu ZJ, Hu Y. Therapeutic endoscopic retrograde cholangiopancreatography in a patient with situs inversus viscerum. World J Gastroenterol. 2015 May 14;21(18):5744-8. | CrossRef | PubMed |
5. Castro DJ, De Faria A. Case study of a sphincterotomy to remove stones from the common bile duct cholelithiasis biliary in a patient with total situs inversus. Rev Colomb Gastroenterol. 2013;28(2):146-8. | Link |
6. Melchor-González JM, Pérez-García R, Torres-Vista M, Rodríguez-Brambila VR. Situs inversus. Reporte de dos casos. Cir Ciruj. 2000;68(2):72-75. | Link |
7. Çoban Ş, Yüksel I, Küçükazman M, Başar Ö. Successful ERCP in a patient with situs inversus. Endoscopy. 2014;46 Suppl 1 UCTN:E222. | CrossRef | PubMed |
8. Vega CGR, Salazar BMA, Calderón JR, Preciado BCY, Heredia JNM, Gandarilla JS. Litiasis vesicular y situs inversus totalis resueltos por cirugía endoscópica con asistencia acuscópica. Rev Mex Cir Endoscop. 2003;4(3):153-161. | Link |
9. Reddy A, Paramasivam S, Alexander N, Abhilash, Ravisankar V, Thillai M. Management of a patient with situs inversus totalis with acute cholecystitis and common bile duct stones: A case report. Int J Surg Case Rep. 2014;5(11):821-3. | CrossRef | PubMed |
10. Salama IA, Abdullah MH, Houseni M. Laparoscopic cholecystectomy in situs inversus totalis: Feasibility and review of literature. Int J Surg Case Rep. 2013;4(8):711-5. | CrossRef | PubMed |

Correspondencia a:
[1] Urbanización Villa Gloria 4 f-7
Arequipa
Perú

Esta obra de Medwave está bajo una licencia Creative Commons Atribución-No Comercial 3.0 Unported. Esta licencia permite el uso, distribución y reproducción del artículo en cualquier medio, siempre y cuando se otorgue el crédito correspondiente al autor del artículo y al medio en que se publica, en este caso, Medwave.