
Caso Clínico / Clinical Case

**FÍSTULA ESÓFAGO-BRÔNQUICA:
A PROPÓSITO DE UM CASO DE DIFÍCIL RESOLUÇÃO**I. SEVES¹, M. ALLEN², J. TORRINHA², S. LINO³, A. P. GOMES⁴, M. SAMPAIO¹, P. PEIXE¹, L. MATOS¹**Resumo**

As fístulas esófago-brônquicas ou esófago-traqueais estão descritas no contexto de neoplasias do esófago ou mediastino e resolvem-se frequentemente, com a colocação de próteses esofágicas cobertas. Estas têm, porém, uma elevada percentagem de complicações, a partir dos seis meses de colocação.

Apresenta-se um caso clínico de fístula esófago-brônquica, no contexto de Linfoma do mediastino, em que houve necessidade de terapêuticas alternativas devido à longa sobrevivência do doente.

Summary

Broncho-esophageal and tracheo-esophageal fistulas occur in the context of esophageal or mediastinal tumours. They are often resolved by the use of covered esophageal stents, which have, however, a high percentage of late complications.

We present the case of a patient with a mediastinal lymphoma and bronchoesophageal fistula who required alternative therapeutics in view of his long survival.

GE - J Port Gastroenterol 2005, 12: 262-265

INTRODUÇÃO

As fístulas esófago-brônquicas ou esófago-traqueais surgem em 5-15% dos doentes com neoplasia do esófago ou outras neoplasias mediastínicas (1) e quando inoperáveis, são resolvidas com a colocação de próteses esofágicas cobertas, em regra metálicas expansíveis. No entanto, estas próteses são adequadas apenas a situações de sobrevivência curta, pela elevada percentagem de complicações que surgem após os seis meses de colocação.

O nosso artigo pretende chamar a atenção para a importância de avaliar a sobrevivência provável e eventualidade da cura, ao ponderar a colocação de uma prótese expansível metálica e a potencial utilidade das novas próteses nestas situações.

CASO CLÍNICO

Doente do sexo masculino, de 47 anos de idade, com diagnóstico de Linfoma não *Hodgkin* mediastínico em Maio de 2001, na sequência de queixas de febrícula vespertina, sudação, tosse seca, astenia, anorexia e toracalga posterior direita. Na altura do diagnóstico apresenta-

va: hemoglobina 8,5 g/dl (VGM 61,9fL), leucócitos 10,8 x10⁶, PCR 17,3 (valor de referência 0-8) e Tomografia Computorizada (TC) torácica mostrando massa parahilar direita envolvendo o Lobo Superior Direito, com componente mediastínico importante desde a região pré-vertebral até à face posterior da aurícula esquerda, espessamento da parede do esófago no seu terço médio e adenopatias mediastínicas. A broncofibroscopia confirmava massa no Brônquio Principal Direito, paracarinal e a Endoscopia Digestiva Alta (EDA) era normal. Foi realizada mediastinoscopia com biópsia, que revelou tratar-se de Linfoma não *Hodgkin* de tipo B, de alto grau de malignidade, difuso, de grandes células.

O doente iniciou quimioterapia com CHOP em Maio de 2001, tendo completado o 6º ciclo em Setembro de 2001. Na reavaliação após quimioterapia foi realizada TC que revelou solução de continuidade da parede anterior do esófago, sugestiva de comunicação do esófago com o brônquio principal direito (Figura 1). Este facto foi confirmado em Radiografia contrastada de esófago-estômago-duodeno (RXEED). Observado por Cirurgia Cardio-torácica, foi considerado sem indicação cirúrgica devido à sua patologia de base.

Face a este dado, em Novembro de 2001 foi colocada prótese esofágica expansível coberta (*Ultraflex*) de 18 mm de

(1) Serviço de Gastroenterologia, Hospital Egas Moniz S.A., Lisboa, Portugal.

(2) Serviço de Cirurgia, Hospital Egas Moniz S.A., Lisboa, Portugal.

(3) Consultor da Cirurgia Cardio-torácica, Hospital Egas Moniz S.A., Lisboa, Portugal.

(4) Serviço de Hematologia, Hospital Egas Moniz S.A., Lisboa, Portugal.

Recebido para publicação: 15/03/2005

Aceite para publicação: 10/08/2005

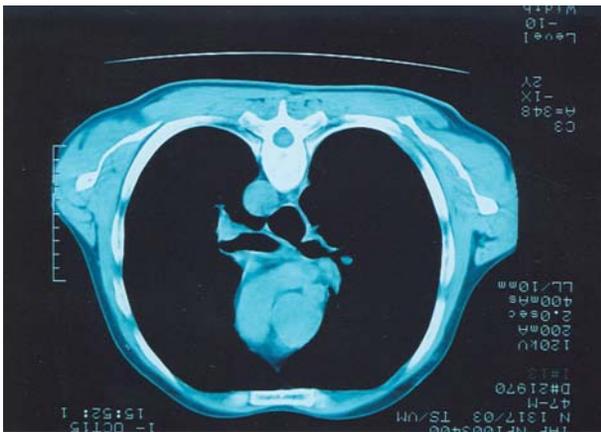


Figura 1 - TC mostrando comunicação do esôfago com o brônquio principal direito.

diâmetro. O RXEED de controlo mostrou migração distal da prótese com persistência da fístula, pelo que foi colocada nova prótese coberta, com 23 mm de diâmetro, entre os 21 e os 31 cm da arcada dentária. A nova radiografia de controlo excluiu fístula patente, após o que iniciou dieta oral. Foi submetido a mais dois ciclos de quimioterapia, até Janeiro de 2002.

Na reavaliação 1 mês após a colocação da prótese negava quaisquer queixas nomeadamente disfagia, regurgitação, pirose ou queixas respiratórias. O RX mostrava prótese bem colocada, ocluindo a fístula e uma prótese migrada na cavidade gástrica.

Em Abril de 2002 (5 meses após a colocação da prótese) inicia queixas de disfagia para sólidos. A EDA mostrou crescimento exofítico da mucosa esofágica nas duas extremidades da prótese, mais exuberante na inferior, permitindo a passagem do endoscópio. O exame anatomo-patológico revelou tecido de granulação, sem células neoplásicas.

Por agravamento da disfagia, um mês mais tarde foi submetido a EDA com destruição tecidual por Árgon, de modo circunferencial, a nível da extremidade inferior da prótese. No entanto, verificou-se agravamento clínico e endoscópico com estenose inultrapassável nas duas extremidades da prótese e tolerando apenas dieta líquida, razão por que foi submetido a mais duas sessões de destruição por Árgon e seis sessões de injeção local de álcool puro circunferencialmente, com intervalos de cerca de 3 semanas. Por refractariedade à terapêutica, mantendo sempre disfagia para pastosos e endoscopicamente, estenoses com cerca de 5 mm de diâmetro, iniciou dilatação endoscópica com velas de Savary (7 a 14 mm), com melhoria transitória mas reestenose grave em 2-3 semanas. Realizou um total de 9 sessões entre Março e Setembro de 2003, sem complicações mas com estenoses refractárias à terapêutica. Paralelamente reali-

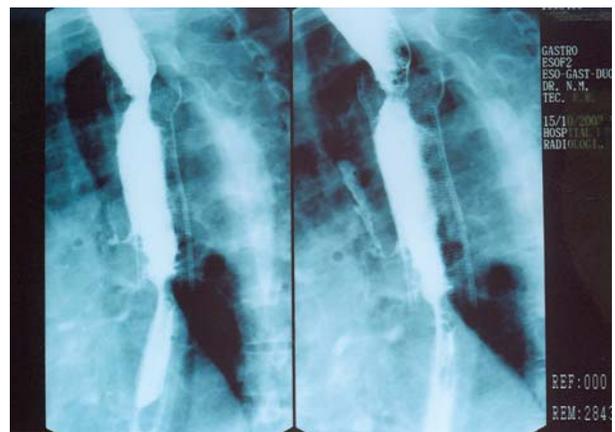


Figura 2 - RX contrastado de esôfago-estômago-duodeno mostrando solução de continuidade da parede da prótese e manutenção da fístula para o brônquio direito.

zou semestralmente TC e exames laboratoriais de controlo em Consulta de Hematologia, sem sinais de actividade da doença hematológica.

Em Setembro de 2003 realizou RXEED para reavaliação da situação, que revelou prótese *in situ* mas com solução de continuidade na sua parede, persistência de fístula para o brônquio direito e estenose em ambas as extremidades (Figura 2). Nesta altura, por persistência da fístula e falência da terapêutica endoscópica em doente jovem com linfoma em remissão há cerca de 21 meses e após conferência médico-cirúrgica, optou-se por intervenção cirúrgica com ressecção esofágica, não se perfilando à data outra solução menos invasiva.

Em Janeiro de 2004 foi submetido a esofagectomia subtotal por toracotomia postero-lateral, no 5º espaço intercostal direito, com restabelecimento da continuidade através de esôfago-gastrostomia no apex do hemitórax direito e complementada com cura cirúrgica de fístula esôfago-brônquica com *patch* pleural, piloroplastia de Weinberg e extracção da prótese migrada da cavidade gástrica. A peça de esofagectomia com estenoses nas extremidades da prótese mostra-se nas Figuras 3 e 4. A cirurgia foi difícil e laboriosa devido à grande dificuldade de dissecação do esôfago torácico do seu leito anatómico por fibrose transmural reaccional à presença de corpo estranho (prótese). No pós-operatório imediato, ocorreu atelectasia do pulmão esquerdo, que resolveu com broncoscopia de emergência e ao 7º dia pneumotórax bilateral, com pronta colocação de drenagem torácica bilateral e suporte ventilatório em Unidade de Cuidados Intensivos. Iniciou dieta oral ao 14º dia, após confirmação imagiológica (RXEED) de anastomose esôfago-gástrica continente, sem *leak* e de calibre normal. Foi transferido para o Serviço de Cirurgia ao 19º dia, tendo tido alta hospitalar ao 22º dia, medicado com inibidores da bomba de prótons em dose dupla. O exame



Figura 3 - Peça de esofagectomia com prótese metálica expansível.

histológico da peça revelou processo inflamatório crônico agudizado da mucosa esofágica, sem evidência de neoplasia maligna e a análise dos gânglios excluiu a presença de linfoma.

Dois meses após a cirurgia, referiu novamente disfagia para sólidos. Endoscopicamente observou-se estenose regular inultrapassável da anastomose cirúrgica, aos 23cm da arcada dentária. Foi submetido a seis sessões de dilatação esofágica com velas de Savary de calibre progressivamente maior, num período de quatro meses, com boa resposta, estando actualmente há 7 meses sem necessidade de terapêutica endoscópica, tolerando alimentos sólidos.

DISCUSSÃO

O uso de próteses esofágicas metálicas expansíveis é consensual e tem-se tornado comum em situações de estenose e/ou fístula maligna do esôfago sem indicação cirúrgica, pela irressecabilidade da lesão ou pelo estado clínico do doente. São conhecidas as potenciais complicações do uso destas próteses, nomeadamente: migração (mais frequente em próteses cobertas), impacto alimentar, hemorragia [(descrito um caso de hemorragia fatal 2 anos após a colocação de prótese, por erosão da parede esofágica para o lúmen da aorta (2)] e reestenose por crescimento hiperplásico da mucosa para o interior da prótese, mais frequente a partir dos 6 meses de colocação, como sucedeu no nosso caso.

Dada a sua vulgarização, estas próteses têm sido usadas em alguns casos de estenoses benignas refractárias às dilatações endoscópicas, particularmente em doentes considerados sem condições cirúrgicas. No entanto, a percentagem de complicações que se verificam em função da maior sobrevivência destes doentes é desencorajante, atingindo os 70-80% (3,4) [em 50% rees-

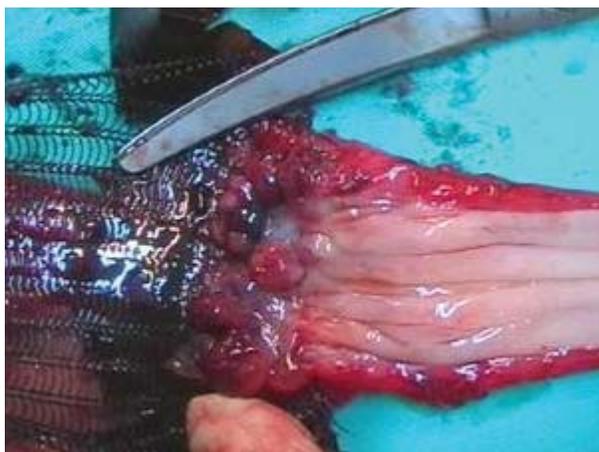


Figura 4 - Aspecto de estenose fibrótica na extremidade da prótese.

tenoses por crescimento da mucosa (4)]. Também no nosso caso, apesar de se tratar de um doente jovem com fístula esôfago-brônquica, ele foi considerado sem indicação cirúrgica em função da situação maligna de base (linfoma não *Hodgkin* sob quimioterapia). No entanto, com a evolução favorável desta situação assistimos ao aparecimento de estenoses em ambas as extremidades da prótese por reacção inflamatória da mucosa à presença do corpo estranho. Estas estenoses foram refractárias às terapêuticas endoscópicas tentadas (dilatação com velas, injeção de álcool puro, destruição com Árgon), como aliás é habitualmente referido na literatura (4,5). Há relatos de casos clínicos em que, em situação idêntica foi colocada nova prótese parcialmente sobreposta, como o de Ackroyd (4) que descreve dois doentes, num dos quais foram colocadas progressivamente 3 próteses por reestenose. No entanto, nestes casos verifica-se habitualmente o desenvolvimento de novas estenoses na extremidade de cada nova prótese, o que não oferece uma solução definitiva para um doente que nesta altura, tinha já um bom prognóstico. No nosso caso, face à refractariedade das estenoses e à demonstração radiológica de manutenção da fístula, optou-se pela cirurgia como terapêutica definitiva. Esta revelou-se eficaz apesar da dificuldade técnica da ressecção esofágica devido à fibrose desenvolvida pela presença da prótese. A solução cirúrgica, em situações semelhantes, tem sido descrita por outros autores como Chen, num caso de estenose cáustica em que foram colocadas duas próteses sucessivamente (5) e Ackroyd em dois casos de estenose péptica, em um após colocação de 3 próteses e no outro, com uso de duas (4). Em um destes casos a ressecção esofágica foi impossível pela fibrose presente, sendo necessário realizar um *bypass* retroesternal, usando o estômago. Também no caso de Chen houve necessidade de preservar uma porção da parede esofágica, devido às aderências desenvolvidas em relação à parede aórtica. No

nosso caso, apesar da dificuldade técnica da cirurgia, foi possível realizar não só a esofagectomia subtotal, mas também o encerramento da fístula com retalho.

Mais recentemente, estão disponíveis próteses removíveis, indicadas para colocação temporária em estenoses benignas e em fístulas com bom prognóstico, como no nosso caso. De facto, autores mostram a vantagem da colocação temporária de próteses em estenoses benignas: um estudo realizado na China com colocação de próteses permanentes e transitórias em 30 e 80 doentes respectivamente, com estenose benigna. A taxa de reestenose foi mais alta no 1º grupo e aumentou progressivamente com o tempo de *follow-up* (6).

As novas próteses dividem-se em 2 grupos: as metálicas, cobertas e com sistema de remoção (*Choo-stent* e as *Ultraflex* mais recentes) e as de *Poliflex* (poliéster cobertas por silicone).

As *Choo-stent* são de nitinol com membrana de poliuretano, totalmente cobertas e com sistema de retirada. As *Ultraflex* foram recentemente dotadas de um sistema de remoção semelhante, mas mantêm extremidades não cobertas. Por esta razão as primeiras são provavelmente de mais fácil extracção mas não parecem ser isentas de complicações a longo prazo, nomeadamente o crescimento da mucosa, como relata Song (7) num artigo em que usou próteses deste tipo, em 25 doentes com estenose benigna. Verificou o aparecimento de estenoses nas extremidades em 50% dos doentes.

Quanto às próteses *Poliflex*, elas parecem ser úteis no encerramento de fístulas ou perfurações esofágicas: Repici (3) descreveu um caso de fístula em anastomose cirúrgica, resolvida com colocação desta prótese, durante 18 dias. Também Schubert (8), Langer (9) e Gelbmann (10) relatam séries de 12, 24 e 9 doentes respectivamente, com perfuração esofágica ou deiscência de anastomose (por vezes de mais de 50% do diâmetro desta), em que foi aplicada esta prótese, com bons resultados: encerramento de 11/12 no 1º caso; 16/24 no 2º; 6/9 no 3º. No total dos doentes, apenas se verificou crescimento da mucosa em 1. De facto, Dormann *et al* (11), em 2003, estudou 33 doentes com neoplasia irrecorrível do esófago a quem foram colocadas próteses *Poliflex*, que permaneceram *in situ* mais de 6 meses em um terço dos doentes (até 15 meses) sem que se verificasse estenose inflamatória em nenhum.

Do exposto, conclui-se que a prótese *Poliflex* poderia ter sido uma opção a considerar inicialmente no nosso caso, na tentativa de encerramento da fístula. No entanto, o prognóstico reservado do doente nessa fase, condicionou a decisão terapêutica.

Pretendemos reflectir sobre a importância da avaliação da sobrevivência provável dos doentes com estenose e/ou fístula esofágica, já que nos parece que em situações de sobrevivência longa, deve ser ponderada a terapêutica cirúrgica ou colocação de prótese removível.

Correspondência:

Isabel Seves

Serviço de Gastrenterologia, Hospital Egas Moniz S.A.

R. da Junqueira, 126

1349-019 Lisboa

Tel.: 213 624 139

BIBLIOGRAFIA

1. Shim CS. Esophageal stenting in unusual situations. *Endoscopy*. 2003; 35: S14-S18.
2. Catnach S, Barrison I. Self-expanding metal stents for the treatment of benign esophageal strictures. *Gastrointestinal Endoscopy*. 2001; 54: 140.
3. Repici A, Romagnoli R, Reggio D, Salizzoni M, Barletti C, Juliani E et al. Successful closure of a postsurgical benign esophagogastric fistula by temporary placement of a polyester expandable stent: case report and review. *Gastrointestinal Endoscopy*. 2002; 56: 747-50.
4. Ackroyd R, Watson D, Devitt P, Jamieson G. Expandable metallic stents should not be used in the treatment of benign esophageal strictures. *Journal of Gastroenterology and Hepatology*. 2001; 16: 484-87.
5. Chen JS, Luh SP, Lee F, Tsai CI, Lee JM, Lee YC. Use of esophagectomy to treat recurrent hyperplastic tissue obstruction caused by multiple metallic stent insertion for corrosive stricture. *Endoscopy*. 2000; 32: 542-45.
6. Cheng YS, Li MH, Chen WX, Zhuang NW, Shang KZ. Follow-up evaluation for benign stricture of upper gastrointestinal tract with stent insertion. *World Journal of Gastroenterology*. 2003; 9: 2609-11.
7. Song HY, Jung HY, Park SI, Kim SB, Lee DH, Kang SG, et al. Covered retrievable expandable nitinol stents in patients with benign esophageal strictures: initial experience. *Radiology*. 2000; 217: 551-57.
8. Schubert D, Scheidbach H, Kuhn R, Wex C, Weiss G, Eder F, et al. Endoscopic treatment of thoracic esophageal anastomotic leaks by using silicone-covered self-expanding polyester stents. *Gastrointestinal Endoscopy*. 2005; 61: 891-96.
9. Langer FB, Wenzl E, Prager G, Salat A, Miholic J, Mang T, et al. Management of postoperative esophageal leaks with the Polyflex self-expanding covered plastic stent. *Annals of Thoracic Surgery*. 2005; 79: 398-403.
10. Gelbmann CM, Ratin NL, Rath HC, Rogler G, Lock G, Schölmerich J, et al. Use of self-expandable plastic stents for the treatment of esophageal perforations and symptomatic anastomotic leaks. *Endoscopy*. 2004; 36: 695-99.
11. Dormann AJ, Eisendrath P, Wiggighaus B, Huchzermeyer H, Devière J. Palliation of esophageal carcinoma with a new self-expanding plastic stent. *Endoscopy*. 2003; 35: 207-11.