



## **Un singolare quadro di pleurite:il caso di Maddalena**

Silvia Di Stasi, Thomas Galasso, Serena Benzo, Lucietta Ratta

*Clinica delle Malattie dell'Apparato Respiratorio, Fondazione IRCCS Policlinico San Matteo,  
Università degli Studi di Pavia, Pavia, Italia*

---

### ***Un singolare quadro di pleurite:il caso di Maddalena***

La pleurite irritativa, dovuta alla presenza di bile in cavità pleurica, è un'entità patologica di non frequente riscontro. Descriviamo qui il caso insorto in una donna di 49 anni, caratterizzato dal passaggio di bile nella cavità pleurica in presenza di tragitto fistoloso trans diaframmatico. La donna giunse alla nostra osservazione con una sintomatologia caratterizzata da *poussè* di febbre, brividi, tosse e toracoalgia. Si ipotizzò quindi una pleurite ad eziologia infettiva. Tuttavia, una toracentesi esplorativa evidenziò liquido pleurico limpido color citrino che escludeva la possibile natura batterica della patologia. Pertanto, data la natura non infettiva del versamento, si suppose una possibile comunicazione tra la pleura e la voluminosa cisti epatica semplice sotto-diaframmatica dell'ottavo segmento epatico, già nota in anamnesi. In accordo con tale ipotesi furono dosati gli acidi biliari nel liquido pleurico che risultarono presenti. Quindi si effettuò una ecografia addominale che non evidenziò la presenza di un evidente tragitto fistoloso ed una scintigrafia epato-biliare con 99m Tc-TMBIDA, che mostrò un passaggio di contrasto dalle vie biliari in cavo pleurico destro. Inoltre, la nostra ipotesi di pleurite irritativa era sostenuta dalla progressiva regressione degli episodi febbrili, del dolore toracico, della tosse stizzosa e dal miglioramento degli scambi gassosi con la terapia corticosteroidica sistemica.

Tre settimane dopo la dimissione la paziente fu sottoposta ad ecografia addominale che evidenziò una comunicazione del diametro di 4 mm circa tra il cavo pleurico e la cisti epatica.

Questo è, a nostra conoscenza, il primo caso di fistola bilio-pleurica spontanea riportato in letteratura.

### ***An unusual case of pleurisy***

Irritative pleurisy due to the presence of bile in the pleural cavity is a disease not frequently found. Here we describe a case of irritative pleurisy which arose in a 49-years old woman due to the passage of bile in the pleural cavity through a trans-diaphragmatic fistula. This case, clinically characterized by symptoms of fever with chills, cough and chest pain, came to our observation with the suspect of an infectious pleurisy. However an exploratory thoracentesis revealed a clear, citrine-colored pleural fluid which excluded a bacterial disease. Therefore, given the not infectious nature of the pleural effusion, we hypothesized a possible communication between the pleura and a large, simple, subdiaphragmatic hepatic cyst in the eighth segment (already known in history). In agreement with this hypothesis we measured bile acids in the pleural fluid that were present. An abdominal ultrasound showed no evident trans-diaphragmatic fistula but an hepatobiliary scintigraphy with Tc-99m TMBIDA showed the passage of contrast from bile ducts to the right pleural cavity. Moreover our hypothesis of irritative pleurisy was corroborated by the gradual regression of the febrile episodes, of chest pain, cough and improvement of gas exchange with systemic corticosteroid therapy.

Three weeks after discharge, the patient repeated an abdominal ultrasound which finally showed a communication of 4 mm in diameter between the liver cyst and the pleural space.

This is, to our knowledge, the first case of spontaneous bilio-pleural fistula reported in the literature.

---

## Introduzione

La pleurite, processo infiammatorio della membrana sierosa che riveste il polmone, può decorrere isolatamente o, più comunemente, nel corso di un analogo interessamento polmonare e può essere associata o meno a un versamento pleurico [1]. L'eziopatogenesi è estremamente variabile e riconducibile a tre principali fattori causali: infettivi, immunologici e irritativi. Le pleuriti infettive sono nella maggior parte dei casi sostenute da microorganismi di natura batterica e non di rado si sviluppano come complicanze di un processo bronco-pneumonico. Le pleuriti causate da processi immunitari sono piuttosto rare e spesso insorgono in un quadro di polisierosite. Infine tra le pleuriti su base irritativa troviamo un eterogeneo gruppo di condizioni patologiche di cui fanno parte per esempio, le pleuriti su base traumatica, quelle in corso di infarto polmonare o ancora quelle causate da una neoplasia broncopolmonare che per continuità abbia interessato il cavo pleurico. Rientrano in quest'ultimo gruppo quelle causate dall'ingresso diretto nello spazio pleurico di sostanze irritanti per: rottura esofagea, empiema amebico, pancreatite o in corso di patologie biliari [2]. Presentiamo quindi il caso di una paziente affetta da pleurite irritativa dovuta ad un passaggio di bile, sostanza fortemente irritante per la sierosa pleurica, attraverso un tramite fistoloso spontaneo bilio-pleurico. In letteratura sono riportati solo alcuni casi di pleurite biliare secondaria a manovre operative sulle vie biliari [3], a traumi toracoaddominali o a colecistiti ma nessun caso simile al nostro.

## Caso clinico

Maddalena, donna di 49 anni. In anamnesi la paziente presentava pregresso tabagismo, miastenia gravis in remissione clinica dopo timectomia, steatosi epatica da dislipidemia familiare, cisti epatiche di cui quella di maggiori dimensioni era situata in corrispondenza dell'VIII segmento epatico di 8 cm di diametro ed angiomi epatici; inoltre MRGE in ernia jatale da scivolamento, artrite sieronegativa, ipertensione arteriosa in trattamento e anamnesi familiare positiva per TBC. Da fine dicembre 2010, dopo una sindrome da raffreddamento con tosse non produttiva trattata con farmaci sintomatici e Rx torace negativo per lesioni pleuro-parenchimali in atto, la paziente riferiva tosse stizzosa persistente ed insorgenza di dispnea per sforzi importanti. Successivamente a metà febbraio, compariva febbre a *poussè* (37,5°C) con brividi e dolore riferito al fianco destro durante inspirazioni profonde. Alla paziente, recatasi presso il nostro DH pneumologico per la prima visita, si consigliava aerosolterapia con beclometasone, broncodilatatori ed amoxicillina per os. L'Rx del torace eseguita qualche giorno dopo documentava la comparsa di versamento pleurico destro in assenza di focolai in atto. Successivamente, per peggioramento della tosse stizzosa e persistenza della febbre intermittente veniva sostituito l'amoxicillina con tiamfenicolo. In assenza di benefici la paziente si recava in PS. All'EGA in aria ambiente risultava ipossiemia (pO<sub>2</sub> 68 mmHg) ed ipocapnica (pCO<sub>2</sub> 32 mmHg). Nel sospetto di embolia polmonare è stato dosato il D-dimero (risultato elevato) e si eseguiva Tc torace-addome superiore con e senza mezzo di contrasto, risultata però negativa per una TEP. Si confermava invece un ampio versamento pleurico destro con tendenza alla formazione di raccolte saccate in corrispondenza dei settori dorsali del segmento posteriore del LSD e nella pala superiore della grande scissura (reperi

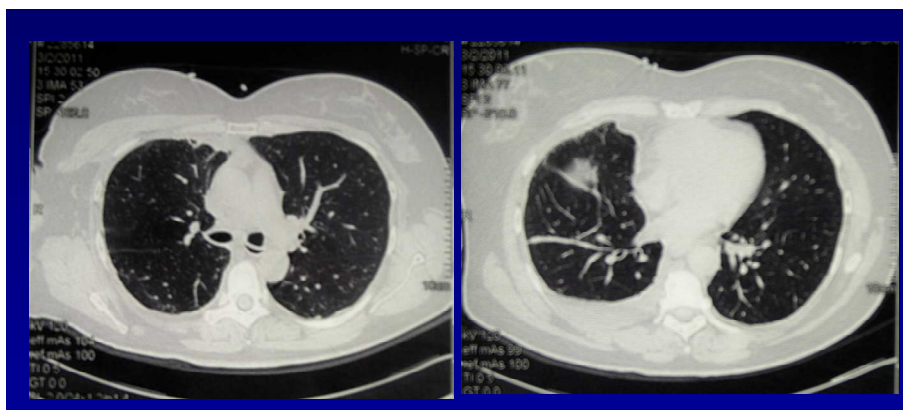
compatibili con versamento complicato/empiema); venivano evidenziati inoltre due piccoli addensamenti flogistici, ormai in evoluzione carnificata (uno nel LM, l'altro nel segmento posteriore del LIS) e vari ispessimenti fibrotici reattivi nel LID. Il fegato appariva di dimensioni nettamente aumentate, a struttura iperdensa come da epatopatia steatosica, con sopraelevazione dell'emidiaframma destro; nei segmenti superiori del lobo epatico destro era presente voluminosa cisti biliare, con diametro massimo di 8-9 cm, già nota in anamnesi, con irregolare ispessimento della parete in sede postero craniale (Figura 1-2). La paziente veniva quindi ricoverata presso il nostro reparto. All'ingresso appariva vigile, modicamente febbrile (37,7°C), con dispnea da sforzo di moderata entità, tosse stizzosa, dolenzia in ipocondrio destro e dolore tipo puntorio alla base toracica destra. All'esame obiettivo si segnalava dolore alla palpazione superficiale in ipocondrio destro e RR ridotto alla base polmonare destra; gli esami ematochimici mostravano una leucocitosi neutrofila (WBC 11700/mm<sup>3</sup>; N 86%), piastrinosi (PLT 572000/mm<sup>3</sup>), elevazione degli indici di flogosi (PCR 3,6 mg/dl; VES 97mm/h). L'EGA in aria ambiente riportava valori di PO<sub>2</sub> 66,2 mmHg; PCO<sub>2</sub> 38,2 mmHg; pH 7,43; saturazione O<sub>2</sub> Hb 98,1 %. L'ECG risultava nei limiti. Le prime indagini diagnostiche poste in atto erano tese ad individuare un'eziologia di tipo infettivo del versamento pleurico; per questo si procedeva immediatamente ad una toracentesi esplorativa, con evacuazione di circa 80 cc di liquido pleurico chiaro, color citrino. Escluso il sospetto di empiema, nell'ipotesi di una possibile comunicazione tra la voluminosa cisti epatica sottodiaframmatica e la pleura, si decideva di eseguire sul liquido pleurico un profilo biochimico, citologico e batteriologico includendo il dosaggio degli acidi biliari. Le caratteristiche biochimiche del versamento (pH 7,1; amilasi 80 mU/ml; bilirubina totale 0,51 mg/dl; glucosio 14 mg/dl; GPT 10 mU/ml; LDH 3289 mU/ml) risultavano compatibili con un essudato. Nel frattempo, senza intraprendere alcuna terapia specifica, si eseguivano le seguenti indagini: antigeni urinari per legionella e pneumococco, sierologia per microorganismi atipici, emocolture seriate, ricerca di *mycobacterium tuberculosis* (quantiferon), urinocoltura, tampone nasale per lo *screening* dei virus respiratori e autoimmunità, tutti risultati negativi. Si effettuava quindi il dosaggio degli acidi biliari nel liquido pleurico che mostrava una concentrazione 3 volte superiore rispetto ai rispettivi valori sierici (20 vs 6 µmol/L). A sostegno quindi dell'ipotesi di una possibile comunicazione tra la cisti epatica sottodiaframmatica e la pleura si effettuava un'ecografia addominale che però non individuava sicure immagini riferibili a tramiti fistolosi trans-diaframmatici mentre alla scintigrafia epato-biliare con 99m Tc-TMBIDA, la voluminosa cisti biliare non si iniettava mai per tutta la durata dell'indagine ma, pur non dimostrando presenza di una fistola bilio-pleurica, si attestava comunque un passaggio di contrasto dalle vie biliari in cavo pleurico pleura destro. Durante la degenza la paziente presentava febbre intermittente a *poussè* (<38,5°C) con brividi accompagnata a simultanea riacutizzazione del dolore alla base toracica dx e a tosse stizzosa. Si impostava terapia antibiotica empirica con ceftazidime poi sospesa dopo qualche giorno per reazione allergica. I controlli radiologici del torace dimostrarono una modesta falda residua di versamento pleurico basale destro, in via di organizzazione. Si effettuava una seconda toracentesi che risultò non diagnostica. Nell'ipotesi di pleurite irritativa da passaggio spontaneo di bile nel cavo pleurico si iniziò terapia corticosteroidica sistemica con progressiva regressione degli episodi febbrili, del dolore toracico e della tosse stizzosa e con miglioramento degli scambi gassosi. La terapia steroidea veniva proseguita al domicilio ancora per una settimana e poi sospesa, senza ricomparsa della sintomatologia.

Tre settimane dopo la dimissione la paziente è stata sottoposta a nuova ecografia addominale che ha confermato la natura non parassitaria della cisti epatica dell'VIII segmento (doppia parete) e nel tratto adiacente al diaframma si poteva apprezzare una comunicazione con il versamento pleurico del diametro di 4 mm circa, verosimile tragitto fistoloso (Figura 3). La paziente è stata valutata dal chirurgo generale che in considerazione sia dell'aspetto ecografico non complicato della cisti, sia dell'assenza di sintomi, non ha posto indicazione all'intervento chirurgico.

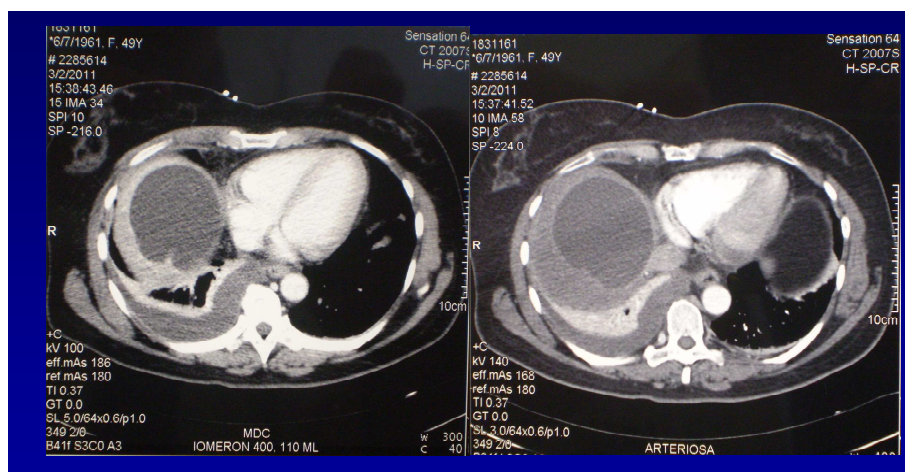
## Discussione

Alla luce dei reperti clinico-strumentali è lecito concludere che la paziente abbia sviluppato una pleurite irritativa conseguente a passaggio di liquido biliare nel cavo pleurico dx. Esclusa una fistola diretta ed evidente tra la cisti epatica dell' VIII segmento ed il cavo pleurico destro è ipotizzabile che la cisti già nota da tempo, sia aumentata di volume e abbia causato una compressione/distorsione delle vie biliari intraepatiche con secondaria diffusione di bile nello spazio pleurico. Stante l'andamento oscillante della sintomatologia (*poussè* di febbre con brividi, tosse, toracoalgia) è verosimile che questo passaggio di liquido dalle vie biliari sia avvenuto ad intermittenza ed in modesta quantità.

## Tabelle e figure



**Figura 1.** La Tc mostra un ampio versamento pleurico destro con tendenza alla formazione di raccolte saccate in corrispondenza dei settori dorsali del segmento posteriore del LSD e nella pala superiore della grande scissura (reperti compatibili con versamento complicato/empiema). Evidenziati inoltre due piccoli addensamenti flogistici, ormai in evoluzione carnificata (uno nel LM, l'altro nel segmento posteriore del LIS) e vari ispessimenti fibrotici reattivi nel LID.



**Figura 2.** La Tc evidenzia un fegato di dimensioni nettamente aumentate, a struttura ipodensa da epatopatia steatosica, condizionante sopraelevazione dell'emidiaframma destro. Nei segmenti superiori del lobo epatico destro si nota la voluminosa formazione cistica biliare, con diametri massimi di 8-9 cm, con irregolare ispessimento della parete in sede postero craniale.



**Figura 3.** All'ecografia toraco-addominale, nel tratto adiacente al diaframma, si apprezza comunicazione con il versamento pleurico del diametro di 4 mm circa.

### Bibliografia

1. Malattie dell'apparato respiratorio. *Cortina Libreria*, Milano 1980.
2. Alonso JC. Pleural effusion in liver disease. *Semin Respir Crit Care Med* 2010;31:698-705.
3. McGrath EE, Anderson PB. Diagnosis of pleural effusion: a systematic approach. *Am J Crit Care* 2011;20:119-127.