

ACUTE ACALCULOUS CHOLECYSTITIS WITH GALLBLADDER PERFORATION IN CHILDREN – CASE REPORT

Assist. Prof. PhD MD Iulia Straticiu Ciongradi^{1,2};
Assist. Prof. PhD MD Laura Trandafir^{1,3}; MD. Doina Mihaila⁴;
Assoc. Prof PhD MD S.G. Aprodu^{1,2}

¹University of Medicine and Pharmacy, “Grigore T. Popa”, Iasi

²Department of Pediatric Surgery, Hospital for children “Sf. Maria”, Iasi

³IIIrd Department of Pediatrics, Hospital for children “Sf. Maria”, Iasi

⁴Department of Morphopathology, Hospital for children “Sf. Maria”, Iasi

ABSTRACT

Although relatively common in adult pathology, acute acalculous cholecystitis with gallbladder perforation is a rather infrequent entity in pediatric practice. In many cases, its unspecific clinical symptoms and the often inconclusive medical imaging results lead to the diagnosis of acute acalculous cholecystitis being set intraoperatively. Nevertheless, this condition should be considered when setting the differential diagnosis of a peritonitis syndrome in children.

Key words: acute acalculous cholecystitis, peritonitis

INTRODUCTION

Spontaneous gallbladder perforation is extremely rare in pediatric practice, as it is an exclusive complication of acute cholecystitis or of gallbladder inflammation, accompanied or not by gallstones spillage. Notwithstanding the above, gallbladder perforation should be considered when setting the differential diagnosis of an acute abdomen. The gallbladder perforation diagnosis is extremely hard to set, as its clinical examination, biological specimens and imaging explorations are unspecific. This usually delays the diagnosis, which is most of the times set intraoperatively.

Case report

Here is the case of a 2-year-old male patient, with no significant pathological history, who comes to the authors' clinic complaining of altered general state, anorexia, abdominal pains and constipation

(intestinal transit present only for gases, and no stool for 5 days). The onset of the condition dates about 14 days back, when due to several episodes of fever the patient was diagnosed with bilateral presuppurative otitis media. The patient underwent intravenous antibiotic therapy (cephalosporin), further to which his ENT condition improved. While recovering from his otitis, about 7 days after the disease onset, the patient complained of abdominal pain, vomiting and diarrheic stools (which were initially aqueous but later became semi-consistent). We decided to hospitalize the child, to start his symptomatic therapy and to attempt the restoration of his fluid and electrolytic balance. His intravenous antibiotic therapy was continued and 48 hours later his diarrheic stools disappeared. However, the patient's general state was still altered, as he refused to eat, abdominal meteorism and constipation set in. The abdominal ultrasound scan performed at the beginning of the diarrheic episode reveals a

Corresponding author:

Assist. Prof. PhD MD Iulia Straticiu Ciongradi, University of Medicine and Pharmacy, “Grigore T. Popa”, Str. Vasile Lupu 62-64, Iasi
e-mail: drpediatrie@yahoo.com

much relaxed, dysmorphic and acalculous gallbladder and no fluid in the peritoneal cavity.

The clinical examination conducted when the patient came to the surgical department revealed his altered overall health status, abdominal meteorism, very painful abdomen both at rest and on palpation, whereas the digital rectal examination performed revealed an empty rectal ampulla and no traces of feces. The biological specimens revealed no significant changes, except a slight neutrophilia.

We suspected a peritonitis syndrome and therefore recommended a thoracic-abdominal X-ray, which revealed no pathological changes, as well as an abdominal ultrasound scan, which revealed a homogeneous echostructure of the liver, a very distended folded acalculous gallbladder and downward biliary sludge. The ultrasonography also identified some fluid in the peritoneal cavity, including around the gallbladder. Since we still suspected peritonitis, possibly of appendiceal etiology, we decided to transfer the patient to the pediatric surgery department.

The surgical procedure was performed under general anesthesia and consisted of a medial laparotomic approach. In his peritoneal cavity we identified a significant amount of what seemed to be biliary fluid, an inflamed gallbladder, a consider-

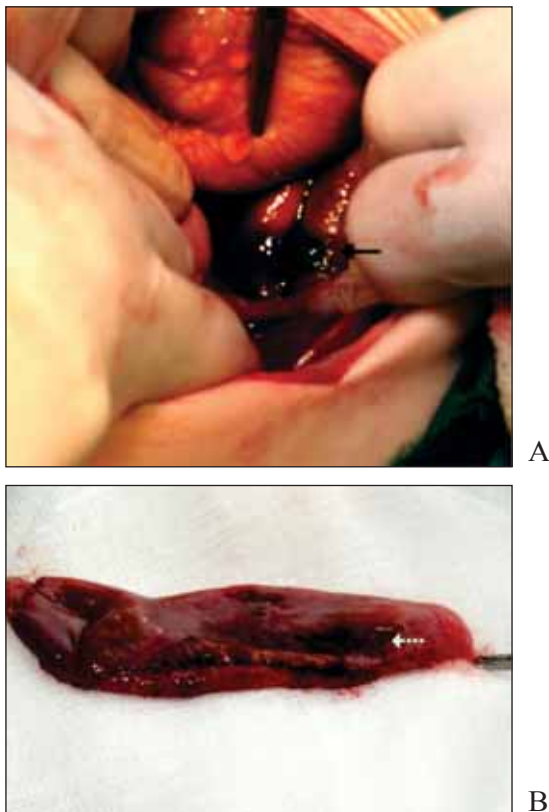


FIGURE 1. Gallbladder perforation – (A) intraoperative appearance (black arrow) and (B) excised specimen (white arrow)

able wall edema, as well as a perforated area located close to the gallbladder fundus (Fig. 1). The appendix had a normal appearance. Given the current condition of the patient, who was diagnosed with biliary peritonitis due to acute acalculous cholecystitis with gallbladder perforation, we decided to perform the necessary cholecystectomy, accompanied by the thorough irrigation of the peritoneal cavity, as well as the insertion of a subhepatic drain tube.

We applied an absorbable fibrin sealant patch designed to achieve hemostasis and to protect the remaining gallbladder or hepatic bed (Fig. 2). The patient's postoperative evolution was positive, the drain tube could be removed 72 hours after the surgery and the patient was discharged 6 days after the surgery.



FIGURE 2. Hepatic gallbladder bed with absorbable fibrin sealant patch – intraoperative appearance

The pathology findings of the excised specimen enabled us to set the diagnosis of acute phlegmonous cholecystitis, as the microscopic examination revealed an inflamed gallbladder wall with stasis and hemoragica and large area of mucosa ulcerations. We also found, in one specimen, an area of transperitonal perforation, covered by a layer of necrotico-leukocytic detritus (Fig. 3, Fig. 4).

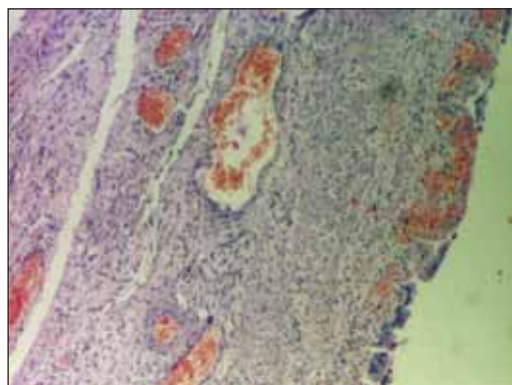


FIGURE 3. Phlegmonous cholecystitis – stasis and hemoragica

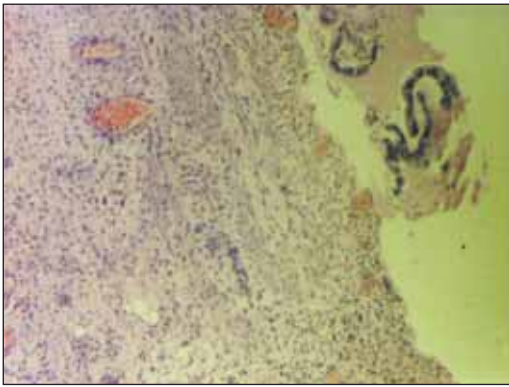


FIGURE 4. *Phlegmonous cholecystitis – border of the perforation*

The child was subsequently followed up for 18 months, during which time he was on a specific diet. The patient is now completely asymptomatic.

DISCUSSIONS

Acquired gallbladder conditions are much more infrequent in children than in adults, as for every 1,000 cases of cholecystitis in adults reported in literature there are only 1.3 such cases in children. Acute acalculous cholecystitis makes up about 5-10% of acute cholecystitis in adults, and it is even less common in pediatric pathology. About 30-50% of acute cholecystitis cases in children, defined by gallbladder wall inflammation, are acalculous, as compared to 2-17% in adult pathology (1). At the same time, gallbladder perforation is almost exclusively a complication of acute cholecystitis, with or without gallstones spillage.

According to literature data, gallbladder wall inflammation may evolve to ischemia, necrosis and then perforation (2) in 2-11% of the cases of acute cholecystitis. The perforation is located mostly in the gallbladder fundus, as this is a poorly vascularized area.

In 1934, Niemeier (3) classified cholecystitis with gallbladder perforation in three categories:

- Type 1 or acute – acute perforation with generalized biliary peritonitis;
- Type 2 or subacute – pericholecystic abscess;
- Type 3 or chronic – cholecystoenteric fistula.

Just like most of the cases reported in literature, the case described above belongs to the first type of gallbladder perforation.

The causes of acute acalculous cholecystitis include: sepsis, severe burns, injuries, different types

of infections (pneumonia, giardiasis, otitis, malaria, etc) (4), yet there have been reported cases of apparently perfectly healthy children who suffered from this condition (5). The most common germs involved in acute acalculous pediatric cholecystitis etiology are: streptococci (groups A and B), gram-negative germs (especially *Salmonella*), hepatitis A virus, Epstein Barr virus and different parasites (6). In the case of our patient, we consider gallbladder inflammation secondary to and associated with the fit of acute enterocolitis. No germ was identified in the peritoneal fluid cultures.

The gallbladder perforation symptoms are extremely unspecific especially in babies and include abdominal pain, meteorism, vomiting, which are characteristic of any peritonitis syndrome in children and which were also revealed in our patient.

As concerns medical imaging diagnosis, it relies especially on ultrasound scanning, although there is no clearly set criterion in literature to define acute acalculous cholecystitis by ultrasonographic means. Thus, the diagnosis is positive in case of: gallbladder wall thickness exceeding 3 mm, globular gallbladder distension, fluid present around the gallbladder, striated gallbladder wall and sludge in the gallbladder, although none of these signs proved pathognomonic (7,8). Nevertheless, the association of 2 or more of these signs is highly suggestive of a diagnosis of acute cholecystitis. In the case of our patient, we identified retrospectively the presence of three signs: fluid around the gallbladder, distended gallbladder and sludge in the gallbladder. However, this diagnosis was not considered before the surgery.

CONCLUSIONS

Although rare, acute acalculous cholecystitis with gallbladder perforation is an entity that should be considered when dealing with a patient with acute surgical abdomen. The association between a peritonitis syndrome with gallbladder distension and fluid present around the gallbladder revealed by ultrasonographic means are highly suggestive of this diagnosis. Early diagnosis and surgical procedure are important for a positive evolution of these cases.

REFERENCES

1. **D.E. Tsakayannis, H.P. Kozakewich, C.W. Lillehei** Acalculous cholecystitis in children *J Pediatr Surg*, 31 (1) (1996), pp. 127-130
2. **A. Bedirli, O. Sakrak, E.M. Sozuer et al.** Factors effecting the complications in the natural history of acute cholecystitis *Hepatogastroenterology*, 48 (2001), pp. 1275-1278
3. **Niemeier O.W.** Acute free perforation of the gall bladder. *Ann Surg* 1934; 99:922-4
4. **L.E. Pelinka, R. Schmidhammer, L. Hamid et al.** Acute acalculous cholecystitis after trauma: a prospective study *J Trauma*, 55 (2) (2003), pp. 323-329
5. **D. Croteau, R.D. Signer, M.S. Chaet** Acalculous cholecystitis in a two year old. *JSLs* Apr-Jun, 5 (2) (2001), pp. 183-185
6. **F.J. Suchy Diseases of the gallbladder R.E. Behrman, R.M. Kliegman, H.B. Jenson** (Eds.), Nelson textbook of pediatrics (16th ed.), W.B. Saunders Company, Philadelphia (2000), pp. 1223-1224
7. **M. Imamoglu, H. Sarihan, A. Sari et al.** Acute acalculous cholecystitis in children: diagnosis and treatment *J Pediatr Surg*, 37 (2002), pp. 36-39
8. **R.H. Cohan, B.S. Mahony, J.D. Bowie et al.** Striated intramural gallbladder lucencies on US studies: predictors of acute cholecystitis *Radiology*, 164 (1987), pp. 31-35

COLECISTITA ACUTĂ ALITIAZICĂ LA COPIL – PREZENTARE DE CAZ

Asist. Univ. Dr. Iulia Straticiuc Ciongradi^{1,2}, Asist. Univ. Dr. Laura Trandafir^{1,3},
Dr. Doina Mihăilă⁴, Conf. Dr. S.G. Aprodu^{1,2}

¹Universitatea de Medicină și Farmacie „Grigore T. Popa“, Iași

²Clinica de Chirurgie și Ortopedie pediatrică, Spitalul de copii „Sf. Maria“, Iași

³Clinica III Pediatrie, Spitalul de copii „Sf. Maria“, Iași

⁴Departamentul de anatomie patologică, Spitalul de copii „Sf. Maria“, Iași

REZUMAT

Colecistita acută perforată alitiazică, frecventă la adult, este o entitate rar întâlnită la copil. Simptomatologia clinică necaracteristică, aspectele imagistice frecvent neconcludente, fac ca diagnosticul de colecistită acută alitiazică să fie deseori stabilit intraoperator. Această condiție trebuie totuși să fie evocată în cadrul diagnosticului diferențial al unui sindrom peritonitic la copil.

Cuvinte cheie: colecistită acută alitiazică, peritonită

INTRODUCERE

Perforația spontană a veziculei biliare este extrem de rar întâlnită în practica pediatrică, fiind o complicație exclusivă a colecistitei acute, inflamație a veziculei biliare, asociind sau nu litiază veziculară. Cu toate acestea, perforația veziculei biliare trebuie avută în vedere în cadrul diagnosticului diferențial al unui abdomen acut. Diagnosticul colecistitei perforate este extrem de greu de stabilit, examenul clinic, probele biologice și explorările imagistice, fiind nespecifice. Se produce astfel o întârziere de diagnostic, acesta fiind de cele mai multe ori stabilit intraoperator.

PREZENTARE DE CAZ

Prezentăm cazul unui pacient de sex masculin, în vârstă de 2 ani, fără antecedente patologice semnificative, care se prezintă în clinica autorilor pentru alterarea stării generale, anorexie, dureri abdominale și constipație (prezența tranzitului intestinal doar pentru gaze, cu absența scaunului de 5 zile). Din istoric, reținem debutul afecțiunii în urmă cu

circa 14 zile, când, în urma unor episoade febrile, pacientul a fost diagnosticat cu otită medie presupurativă, bilaterală. S-a inițiat tratament antibiotic intravenos (cefalosporină), cu evoluție favorabilă a afecțiunii din sfera ORL. În evoluție, la circa 7 zile, apar dureri abdominale, vărsături și scaune diareice (inițial apoase, ulterior semiconsistente). Se decide spitalizarea, inițiindu-se tratamentul simptomatic, reechilibrare hidroelectrolitică și se continuă antibioterapie intravenoasă, sub care scaunele diareice se remit, după circa 48 de ore, însă starea generală alterată se menține, cu refuzul alimentației, apariția meteorismului abdominal și instalarea constipației. Ecografia abdominală, efectuată la debutul episodului diareic, relevă colecist mult destins, dismorfic, alitiazic, absența lichidului în cavitatea peritoneală.

La consultul chirurgical se constată la examenul clinic stare generală influențată, meteorism abdominal, durere abdominală intensă difuză, spontană și la palpare, iar la tușeul rectal ampulă rectală goală, fără urme de materii fecale. Probele biologice nu au evidențiat modificări semnificative, cu excepția unei ușoare neutrofilii.

Adresa de corespondență:

Asist. Univ. Dr. Laura Trandafir, Spitalul de copii „Sf. Maria“, Str. Vasile Lupu nr. 62-64, Iași
e-mail: drpediatrie@yahoo.com

Se suspicionează un sindrom peritonic, astfel încât se efectuează radiografie toraco-abdominală, ce nu relevă modificări patologice, precum și o nouă ecografie abdominală, care identifică ficat cu ecostructură omogenă, colecist mult destins, ciudat, cu depozit biliar decliv prezent, alitiazic.

Se identifică, de asemenea, și o cantitate medie de lichid prezent în cavitatea peritoneală, inclusiv pericolecistic. Deoarece se menține suspiciunea unei peritonite, probabil de etiologie apendiculară, se decide transferul pacientului în departamentul de chirurgie pediatrică.

Se intervine chirurgical, sub anestezie generală, cu abord prin laparotomie mediană. În cavitatea peritoneală se identifică o cantitate importantă de lichid cu aspect biliar, vezicula biliară inflamată, cu important edem de perete, precum și o zonă de perforație, localizată în apropierea fundusului colecistului (Fig. 1). Apendicele a fost identificat ca fiind de aspect normal. În acest context, cu diagnosticul de peritonită biliară secundară unei colecistite acute alitiazice perforate, se decide efectuarea colecistectomiei de necesitate, asociată cu lavajul abundent al cavității peritoneale, precum și plasarea unui tub de dren subhepatic.

În vederea realizării hemostazei și pentru a proteja patul colecistic hepatic restant, se plasează

la acest nivel o folie absorbabilă de fibrină (Fig. 2). Evoluția postoperatorie a fost favorabilă, cu extragerea tubului de dren la 72 de ore postoperator și externarea pacientului la 6 zile postoperator.



FIGURA 2. Patul hepatic al colecistului cu folie de fibrină – aspect intraoperator

Examenul anatomopatologic al piesei rezecate a relevat diagnosticul de colecistită acută flegmonoasă, aspectul microscopic fiind de perete de colecist cu infiltrat inflamator polimorf în toate păturile, stază și focare hemoragice, ulceratii întinse ale mucoasei. Pe un fragment apare o arie de ulceratie transparietală acoperită cu detritus necrotico-leucocitar (perforația) (Fig. 3, Fig. 4).



A



B

FIGURA 1. Perforația colecistului – (A) aspect intraoperator (săgeată neagră) și (B) piesă de excizie (săgeata albă)

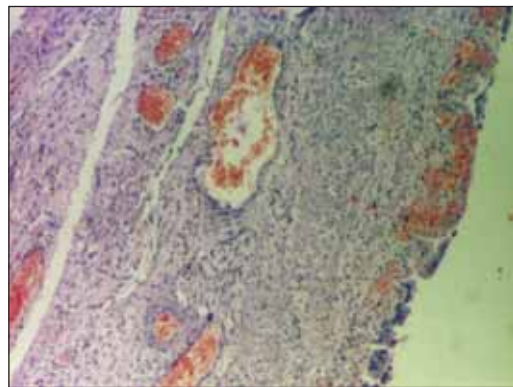


FIGURA 3. Colecistita flegmonoasă – stază și hemoragii

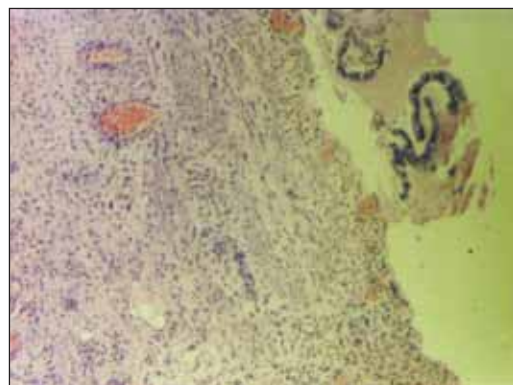


FIGURA 4. Colecistita flegmonoasă – marginea perforației

Supravegherea copilului s-a realizat ulterior pe o perioadă de 18 luni, cu menținerea regimului alimentar specific, pacientul fiind în acest interval complet asimptomatic.

DISCUȚII

Afecțiunile dobândite ale veziculei biliare la copil sunt mult mai rare decât cele ale adultului, pentru fiecare 1.000 de cazuri de adulți cu afectare colecistică raportate în literatură corespunzând doar 1,3 cazuri pediatrice. Colecistita acută alitiatică reprezintă circa 5-10% dintre colecistitele acute ale adultului, fiind însă și mai rar întâlnită în patologia pediatrică. Dintre colecistitele acute ale copilului, definite de inflamația peretelui colecistic, circa 30-50% sunt alitiatice, spre deosebire de 2-17% în patologia adultului (1).

În aceleași timp, perforația veziculei biliare este aproape exclusiv o complicație a colecistitei acute, asociind sau nu litiaza veziculară.

Datele din literatură relevă faptul că în 2-11% dintre cazurile de colecistită acută inflamația peretelui colecistic poate evolua spre ischemie, necroză și ulterior perforație (2), perforație localizată cel mai frecvent la nivelul fundusului vezicular, zonă cu vascularizație precară.

În 1934, Niemeier (3) a realizat o clasificare a colecistitelor perforate, definind trei tipuri ale afecțiunii:

- Tipul 1 sau acut – perforația acută cu peritonită biliară generalizată;
- Tipul 2 sau subacut – abcesul pericolecistic;
- Tipul 3 sau cronic – fistula colecistenterică.

Cazul de față, ca și marea majoritate a celor raportate în literatură, se încadrează în tipul 1 de perforație colecistică.

Cauzele colecistitei acute alitiatice includ: sepsisul, arsurile grave, traumatismele, diferite tipuri de infecții (pneumonia, giardiaza, otitele, malaria, etc.) (4), dar au fost raportate cazuri și apărute la copii, în plină stare de sănătate (5). Dintre germenii implicați în etiologia colecistitei acute alitiatice la

copil, cei mai frecvenți sunt: streptococii (grup A și B), germenii gram negativi (mai ales Salmonella), virusul hepatitic A, virusul Epstein-Barr și diferiți paraziți (6). În cazul prezentat, considerăm inflamația veziculei biliare secundară și asociată puseului de enterocolită acută. Nu am identificat nici un germeni în culturile lichidului peritoneal.

Simptomatologia perforației de veziculă biliară este extrem de necharacteristică, în special la copilul mic, și include durere abdominală, meteorism, vărsături, elemente comune pentru orice sindrom peritonitic la vârstă pediatrică, aspect clinic pe care l-am identificat și în cazul de față.

În ceea ce privește diagnosticul imagistic, acesta se bazează mai ales pe aspectele ecografice, deși în literatură nu există nici un criteriu clar stabilit pentru a defini ultrasonografic colecistita acută alitiatică. Astfel, pentru diagnosticul pozitiv sunt evocate: grosimea peretelui vezicular de peste 3 mm, distensia globulară a veziculei biliare, prezența de lichid pericolecistic, aspectul striat al peretelui vezicular, prezența de „sludge“ intravezicular, deși niciunul dintre aceste semne nu s-a dovedit a fi patognomic (7,8). Cu toate acestea, se consideră că asocierea a 2 sau mai multe dintre aceste semne este înalt sugestivă pentru diagnosticul de colecistită acută. În cazul de față am identificat retrospectiv asocierea lichidului pericolecistic, a distensiei veziculei biliare, precum și prezența de „sludge“ intracolecistic, în ciuda acestor elemente, diagnosticul nefiind evocat preoperator.

CONCLUZII

Colecistita acută alitiatică perforată, deși este o entitate rară la copil, trebuie evocată în fața unui pacient cu abdomen acut chirurgical. Asocierea sindromului peritonitic cu distensia veziculei biliare și prezența lichidului pericolecistic, identificate ecografic sunt înalt sugestive pentru acest diagnostic. Diagnosticul și intervenția chirurgicală precoce sunt importante pentru evoluția favorabilă a acestor cazuri.