Urol Colomb. 2016;xxx(xx):xxx–xxx

SCU Sociedad Colombiana de Urología®

REVISTA UROLOGÍA Colombiana

www.elsevier.es/uroco



REPORTE DE CASO

# Fístula pieloduodenal en paciente con pielonefritis xantogranulomatosa: primer reporte de caso en Latinoamérica

**Angie Puerto N.** [a,*], **Lynda Torres C.** [b], **José Gustavo Ramos U.** [c], **José Miguel Silva H.** [d], **Carlos Rueda T.** [e] y **Juan Guillermo Cataño C.** [d]

[a] *Médica y cirujana, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia*
[b] *Residente de segundo año de Urología, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia*
[c] *Urólogo, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia*
[d] *Urólogo, Hospital Universitario San Ignacio, docente posgrado de Urología, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia*
[e] *Médico general, Universidad Autónoma de Bucaramanga, Bucaramanga, Colombia*

Recibido el 23 de septiembre de 2016; aceptado el 13 de noviembre de 2016

**PALABRAS CLAVE**
Pielonefritis xantogranulomatosa;
Fístula urinaria;
Enfermedades femeninas urogenitales

**Resumen**
*Introducción:* La pielonefritis xantogranulomatosa es una infección bacteriana crónica del riñón determinada por la destrucción del parénquima renal asociado a granulomas, abscesos y colecciones de células espumosas, las cuales lo reemplazan. Constituye una entidad poco frecuente, representa el 0,6% de las variedades de pielonefritis y el 19,2% de las nefrectomías realizadas en pacientes con diagnóstico de pielonefritis. Dentro de las complicaciones descritas en la literatura se encuentran las fístulas y dentro de estas solo se encuentran descritos 2 casos de fístula pieloduodenal; el presente artículo constituye el primer caso descrito en Latinoamérica.
*Métodos:* Reporte de caso y revisión de la literatura.
*Caso:* Mujer de 40 años de edad, con sintomatología de 6 meses de evolución de dolor en el flanco derecho irradiado a la región dorsolumbar asociado a náuseas, picos febriles, y taquicardia. Con paraclínicos con leucocitosis, neutrofilia y anemia normocítica normocrómica. Imágenes indicativas de pielonefritis xantogranulomatosa derecha asociada a fístula pieloduodenal. Posteriormente, llevada a nefrectomía radical con rafia de fistula en 2 planos y colocación de parche de epiplón mayor.

* Autor para correspondencia.
*Correo electrónico:* puertoa@javeriana.edu.co (A. Puerto N.).

http://dx.doi.org/10.1016/j.uroco.2016.11.003
0120-789X/© 2016 Sociedad Colombiana de Urología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Cómo citar este artículo: Puerto N. A, et al. Fístula pieloduodenal en paciente con pielonefritis xantogranulomatosa: primer reporte de caso en Latinoamérica. Urol Colomb. 2016. http://dx.doi.org/10.1016/j.uroco.2016.11.003

*Conclusión:* El manejo quirúrgico debe incluir la nefrectomía para control de foco infeccioso y parche de epiplón para el cierre de fistula, dicho procedimiento debe ser realizado por un equipo multidisciplinario.
© 2016 Sociedad Colombiana de Urología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

**KEYWORDS**
Xanthogranulomatous pyelonephritis;
Urinary fistula;
Female urogenital diseases

**Pyeloduodenal fistula in a patient with xanthogranulomatous pyelonephritis: First case report in Latin America**

**Abstract**
*Introduction:* Xanthogranulomatous pyelonephritis is an atypical chronic infectious disease of the kidney. Essentially it is characterised by the destruction of the renal parenchyma, associated with multiple fluid-filled cavities that replace it. It is a rare entity, and represents 0.6% of the types of pyelonephritis, and 19.2% of nephrectomies performed in patients diagnosed with pyelonephritis. Among complications of xanthogranulomatous pyelonephritis described in the literature are fistulas, and within these only two cases of pyeloduodenal fistula are described. This article is the first case report described in Latin America.
*Methods:* Case report and literature review.
*Case:* A forty-year old woman with symptoms in the previous 6 months of right flank pain radiating to the thoracolumbar region, associated with nausea, fever and tachycardia. Laboratory tests show an elevated white blood count, increased percentage of neutrophils, and normochromic normocytic anaemia. Contrasted images revealed changes suggesting xanthogranulomatous pyelonephritis with a pyeloduodenal fistula. Later, the patient underwent a right radical nephrectomy and the primary closure of small intestine with omentum patch.
*Conclusion:* Spontaneous pyeloduodenal fistulas require a surgical management including nephrectomy, in order to control the infectious focus, and an omentum patch to close the fistula. This procedure must be performed by a multidisciplinary team.
© 2016 Sociedad Colombiana de Urología. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

## Introducción

La pielonefritis xantogranulomatosa es un proceso infeccioso crónico atípico del riñón; esencialmente se caracteriza por una destrucción del parénquima renal asociado a múltiples cavidades llenas de líquido que lo reemplazan[1]. Ocurre generalmente en mujeres de edad media, con una historia de infección de vías urinarias recurrentes, asociada a obstrucción urinaria. Constituye una entidad poco frecuente; representa el 0,6% de las variedades de pielonefritis y el 19,2% de las nefrectomías realizadas en pacientes con diagnóstico de pielonefritis[2]. Dentro de las complicaciones descritas en la literatura se encuentran las fístulas y dentro de estas solo se encuentran descritos 2 casos de fístula pieloduodenal[3]; el presente artículo constituye el primer caso descrito en Latinoamérica.

## Presentación del caso

Mujer de 40 años de edad, con sintomatología de 6 meses de evolución consistente en dolor en el flanco derecho irradiado a la región dorsolumbar asociado a náuseas, picos febriles y taquicardia, sin antecedentes personales ni familiares de importancia. Paraclínicos de ingreso que muestran hemograma con leucocitosis y neutrofilia asociado a anemia normocítica normocrómica; la urografía por tomografía computarizada (UroTAC) muestra un cálculo coraliforme que ocupa el grupo calicial medio del riñón derecho y la pelvis renal, el cual condiciona hidronefrosis, disminución del parénquima e imágenes multiquísticas con sedimento en su interior, siendo indicativa de pielonefritis xantogranulomatosa (fig. 1). Se realiza nefrostomía percutánea. La pielografía muestra un trayecto fistuloso que comunica la pelvis renal con un asa intestinal delgada.

Posteriormente, imágenes con medio de contraste demostraron cambios indicativos de pionefrosis y signos que confirman la presencia de fístula calicial polar inferior anteromedial con la tercera porción del duodeno (fig. 2).

Adicionalmente, la paciente cursa con cuadro severo de desnutrición proteico-calórica, lo que obliga a repleción nutricional.

Recibió manejo antibiótico de amplio espectro, se aisló en orina *Citrobacter freundii* inductor de *Ampc*, *Klebsiella pneumoniae* y bacteriemia por *Streptococcus anginosus* (proveniente del tracto gastrointestinal condicionado por fístula descrita), por esta razón se realizan estudios de ecocardiografía que descartan endocarditis. Presenta deterioro clínico progresivo, razón por la cual se escala espectro antimicrobiano y adicionalmente se documenta absceso hepático de $94 \times 65 \times 82$ mm en el segmento VII.

Cómo citar este artículo: Puerto N. A, et al. Fístula pieloduodenal en paciente con pielonefritis xantogranulomatosa: primer reporte de caso en Latinoamérica. Urol Colomb. 2016. http://dx.doi.org/10.1016/j.uroco.2016.11.003

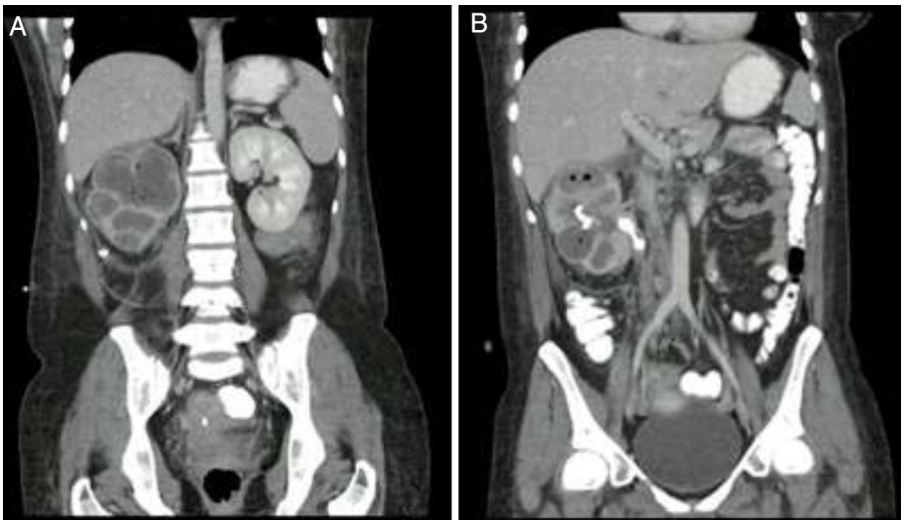



**Figura 1** A) Importante aumento en el tamaño del riñón derecho, el cual presenta severa dilatación de su sistema colector, con aumento en la densidad del líquido calicial intrarrenal así como gas. B) Cálculo coraliforme interpolar de aproximadamente 27 mm de diámetro mayor (670 UH). Cálculo en la unión pieloureteral de 31 mm de diámetro mayor (1.330 UH).



**Figura 2** En la pared lateral de la segunda porción del duodeno se observa un trayecto lineal que se dirige hacia el hilio renal, sin evidencia de colecciones ni aparente comunicación con el sistema colector.

Se realiza nefrectomía derecha con exploración retroperitoneal y rafia duodenal con cubrimiento de epiplón, a través de la incisión de laparotomía mediana supraumbilical. Durante el procedimiento se identifica una fístula pieloduodenal con orificio en la segunda porción duodenal de 3 mm posterior, a prueba con azul de metileno, gran engrosamiento de cápsula renal adherida firmemente a la vena cava inferior, con múltiples abscesos, proceso inflamatorio y cálculo piélico de 2 cm (fig. 3). Posteriormente, se realiza rafia de fístula en 2 planos, primero con vicryl y segundo con PDS, con la cual se fija el segmento de epiplón mayor cubriendo rafia. El resultado de la corrección quirúrgica fue exitoso y en la evolución posoperatoria la paciente no presentó ninguna complicación (fig. 4).

## Discusión

La pielonefritis xantogranulomatosa es una infección bacteriana crónica del riñón descrita por primera vez por Schlagenhaufer en 1916; está determinada por la destrucción del parénquima renal asociada a granulomas, abscesos y colecciones de células espumosas, las cuales lo reemplazan[4]. Las investigaciones clínicas, radiológicas y patológicas demostraron que esta entidad se desarrolla en el contexto de obstrucción urinaria (el 77,5% asociada a cálculos y el 17,5% a obstrucción pieloureteral). Se estima una incidencia de 1.4 casos por 100.000 habitantes por año, con edad media de presentación entre los 45 y 52,5 años y una frecuencia mayor en mujeres que hombres con una razón de 5:1, respectivamente[1].

La etiología exacta de la pielonefritis xantogranulomatosa es desconocida pero microorganismos como *Escherichia coli* y *Proteus mirabilis* se han encontrado en el urocultivo en el 72% de los casos, aunque se han identificado otros gérmenes, como *Pseudomonas* y *Enterococcus faecalis*[5,6].

Dentro de los factores predisponentes descritos en la literatura, llama la atención la aparición de cálculos renales en un 47-100%, alteraciones de la unión pieloureteral, tumor vesical y nefritis intersticial crónica. Condiciones como el embarazo, la diabetes mellitus, artritis reumatoide, hepatitis viral crónica C, cirrosis y obesidad están asociadas con la presentación de esta patología[1].

La presentación clínica de esta patología incluye dolor lumbar, fiebre, masa palpable y, con menos frecuencia, malestar general, dolor abdominal, anorexia, síntomas urinarios y pérdida de peso. Los hallazgos en los exámenes paraclínicos que con más frecuencia se reportan son: anemia, leucocitosis (50-79%), uroanálisis asociado a piuria (90%) y urocultivo positivo (50-80%)[3].

La TAC es el método diagnóstico de elección, debido a su capacidad para diagnosticar, determinar el compromiso del tejido perirrenal, como es el caso de las fístulas, y

Cómo citar este artículo: Puerto N. A, et al. Fístula pieloduodenal en paciente con pielonefritis xantogranulomatosa: primer reporte de caso en Latinoamérica. Urol Colomb. 2016. http://dx.doi.org/10.1016/j.uroco.2016.11.003

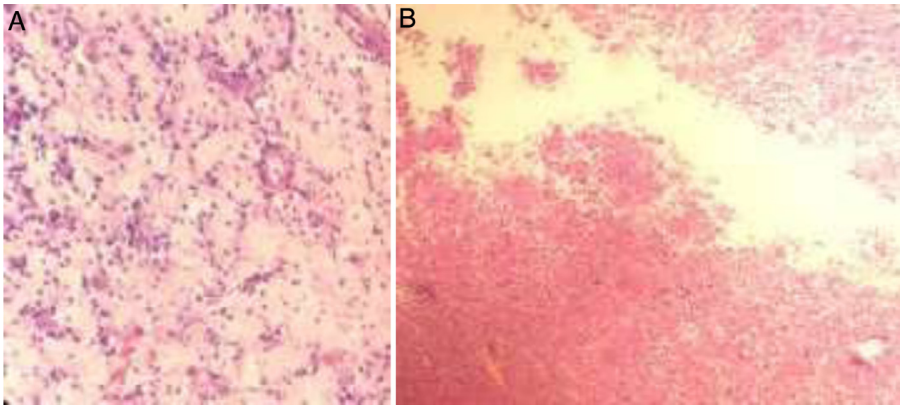



**Figura 3** Hallazgos histopatológicos. A) Acúmulo de histiocitos espumosos. B) Granuloma con centro necrótico.

planificar el tratamiento. Proporciona resultados acerca del reemplazo del tejido renal por áreas de baja densidad, la presencia de cálculos y los defectos en la excreción del medio de contraste[3,5].

Los principales hallazgos histopatológicos incluyen macrófagos cargados de lípidos que reciben el nombre de células xantoma; dichos macrófagos se entremezclan con una variedad de células inflamatorias, predominantemente linfocitos, células plasmáticas, neutrófilos y células gigantes multinucleadas[7]. Se han descrito 3 capas microscópicas. La zona interior consta de necrosis, leucocitos, linfocitos, células plasmáticas y macrófagos. La zona media contiene tejido de granulación vascularizado intercalados con glóbulos rojos. Las células inflamatorias son en gran parte los macrófagos cargados de lípidos. La parte más externa de la lesión se caracteriza por las células gigantes y hendiduras de colesterol[8].

En casos de enfermedad difusa o en estadio avanzado, la nefrectomía es el tratamiento de elección; para los casos de pielonefritis xantogranulomatosa focal se establece el tratamiento antibiótico[2].

Dentro del compromiso extrarrenal reportado en la literatura se encuentran descritas fístulas renales hacia colon, yeyuno, bronquios, piel, músculo psoas y las regiones de los glúteos. Dichas fístulas son inusuales, particularmente la presencia de fistula pielo-duodenal. Dentro de

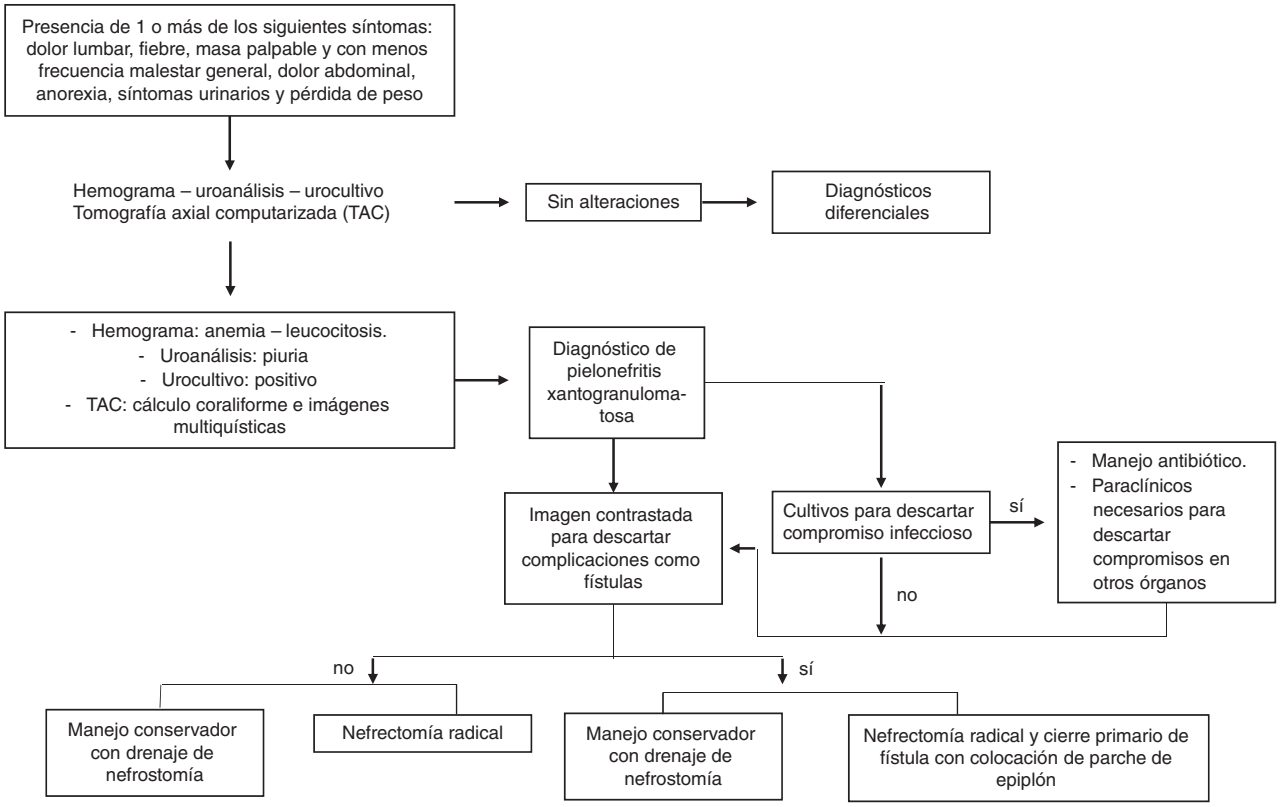



**Figura 4** Algoritmo de manejo en reporte de caso.

Cómo citar este artículo: Puerto N. A, et al. Fístula pieloduodenal en paciente con pielonefritis xantogranulomatosa: primer reporte de caso en Latinoamérica. Urol Colomb. 2016. http://dx.doi.org/10.1016/j.uroco.2016.11.003

las hipótesis utilizadas se encuentran descritas, traumatismo o perforación duodenal por la ingestión de un cuerpo extraño, instrumentación renal y erosión y perforación de la pared urinaria y el tracto digestivo secundaria al fenómeno infeccioso[3].

Al realizar la revisión de la literatura en las bases de datos de PubMed, Science Direct, Embase, se encuentran reportados 2 casos de pielonefritis xantogranulomatosa asociada a fístula pieloduodenal, confirmando la poca frecuencia de esta entidad.

Dentro de los tratamientos descritos se incluye la nefrectomía radical y el cierre primario del intestino delgado con colocación de parche de epiplón después del cierre y tratamiento conservador con drenaje de nefrostomía únicamente, ambas opciones reportadas con éxito[2]. En nuestro caso se realizó nefrectomía radical con rafia de fístula en 2 planos y colocación de parche de epiplón mayor cubriendo rafia, procedimiento llevado a cabo con éxito.

## Conclusión

Las fístulas pieloduodenales espontáneas constituyen una complicación muy poco frecuente, que requiere de manejo quirúrgico, el cual debe incluir la nefrectomía para control del foco infeccioso y parche de epiplón para el cierre de la fístula; dicho procedimiento debe ser realizado por un equipo multidisciplinario.

## Responsabilidades éticas

**Protección de personas y animales.** Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

**Confidencialidad de los datos.** Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

**Derecho a la privacidad y consentimiento informado.** Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

## Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

## Agradecimientos

Este trabajo fue realizado con el apoyo de la doctora Maddy Mejía Cortes.

## Bibliografía

1. Sallami S, Rhouma SB, Rebai S, Cherif K, Gargouri MM, Nouira Y, et al. Spontaneous pyeloduodenal fistula complicating a xanthogranulomatous pyelonephritis. Ibnosina Journal of Medicine and Biomedical Sciences. 2010;2:283–7.
2. Li L, Parwani AV. Xanthogranulomatous pyelonephritis. Archives of Pathology & Laboratory Medicine. 2011;135:671–4.
3. Chung SY, Nadler RB. Spontaneous nephroduodenal fistula in a 27-year-old woman. Urology. 2010;75:559–60.
4. Tsai KH, Lai MY, Shen SH, Yang AH, Su NW, Ng YY. Bilateral Xanthogranulomatous pyelonephritis. J Chin Med Assoc. 2008;71:310–4.
5. Parsons MA, Harris SC, Longstaff AJ, Grainger RG. Xanthogranulomatous pyelonephritis: A pathological, clinical and aetiological analysis of 87 cases. Diagn Histopathol. 1983;6(3-4):203–19.
6. Malek RS, Elder JS. Xanthogranulomatous pyelonephritis: A critical analysis of 26 cases and of the literatura. J Urol. 1978;119:589–93.
7. Zugora V, Schotta GE, Labanaris AP. Xanthogranulomatous pyelonephritis in childhood: A critical analysis of 10 cases and of the literature. Urology. 2007;70:157–60.
8. Zorzos I, Moutzouris V, Korakianitis G, Katsou G. Analysis of 39 cases of xanthogranulomatous pyelonephritis with emphasis on CT findings. Scand J Urol Nephrol. 2003;37:342–7.

Cómo citar este artículo: Puerto N. A, et al. Fístula pieloduodenal en paciente con pielonefritis xantogranulomatosa: primer reporte de caso en Latinoamérica. Urol Colomb. 2016. http://dx.doi.org/10.1016/j.uroco.2016.11.003