

Intususcepción apendicular por foco endometriósico. Un caso clínico

Matias Pruzzo G.^{1,2}, Alejandro Readí V.^{1,2}, Ignacio Robles G.^{1,2} y Gonzalo Campaña V.^{1,2}

Appendiceal intussusception caused by endometriosis. A clinical case

Objective: To report the case of a patient with appendicular intussusception (AI), an infrequent condition secondary to a focus of endometriosis, a pathology that has increased incidence in recent years. **Material and Method:** Clinical case, history and images obtained from the clinical file and intraoperative records with the consent of the patient. **Results:** A 35-year-old woman with abdominal pain. Colonoscopy study showing a 15 x 8 mm lesion in the appendicular ostium intussuscepted to the cecal lumen, and a computerized tomography (CT) enteroclysis confirming AI. A laparoscopic ileocecal resection is performed, demonstrating invagination of the appendix secondary to an endometrioma focus. **Discussion:** AI is a rare condition, with an incidence close to 0.01% in the general population. Benign pathologies are the main cause (77%), endometriosis being the most frequent cause. **Conclusion:** AI due to endometriosis is anecdotal, with unspecific symptoms. The available studies can adequately guide the presence of AI, however, on some occasions it can be confused with neoplastic pathologies, where surgery is important to elucidate the etiology.

Key words: appendiceal surgery; endometriosis, endometrioma; intussusception; appendicular invagination.

Resumen

Objetivo: Reportar el caso de una paciente con intususcepción apendicular (IA), condición infrecuente, secundario a foco de endometriosis, patología que en los últimos años ha presentado un aumento en su incidencia. **Material y Método:** Historia clínica, imágenes preoperatorias e intraoperatorias obtenidas de la ficha clínica. **Resultados:** Mujer de 35 años con dolor abdominal crónico de 4 meses de evolución. Se realiza estudio colonoscópico evidenciando lesión de 15 x 8 mm en ostium apendicular intususceptada al lumen cecal, y enteroclis por tomografía axial computarizada (TC) que confirma IA. Se realiza una resección ileocecal laparoscópica demostrando la invaginación del apéndice con biopsia que muestra un foco de endometrioma. **Discusión:** La IA es una condición infrecuente con una incidencia cercana al 0,01% en la población general. Las patologías benignas son la principal causa (77%), siendo la endometriosis la causa más frecuente. **Conclusión:** La IA por endometriosis es anecdótica, con sintomatología poco específica. Los estudios disponibles pueden orientar adecuadamente la presencia de IA, sin embargo, en algunas ocasiones puede confundirse con patologías neoplásicas, donde cobra importancia la cirugía para dilucidar la etiología.

Palabras clave: cirugía de apéndice; endometriosis; endometrioma; intususcepción; invaginación apendicular.

Introducción

La intususcepción del apéndice cecal es una condición en extremo rara en la medicina, con estimaciones de incidencia variadas en la población gene-

ral, lo más aceptado es una cifra cercana al 0,01%¹. Las patologías benignas son la principal causa de intususcepción apendicular (77%)², dentro de este grupo la patología más frecuente es la endometriosis, dando origen a casi un tercio de los casos³. La

¹Unidad de Coloproctología. Clínica INDISA. Santiago, Chile.

²Universidad Andrés Bello, Campus Clínico INDISA, Facultad de Medicina. Santiago, Chile.

Recibido el 2021-12-09 y aceptado para publicación el 2022-02-15

Correspondencia a:

Dr. Gonzalo Campaña V.
gonzalo.campana@indisa.cl

CASOS CLÍNICOS

Figura 1. Tomografía computada con contraste, corte abdominal. Engrosamiento concéntrico de ciego e ileon terminal (flecha).

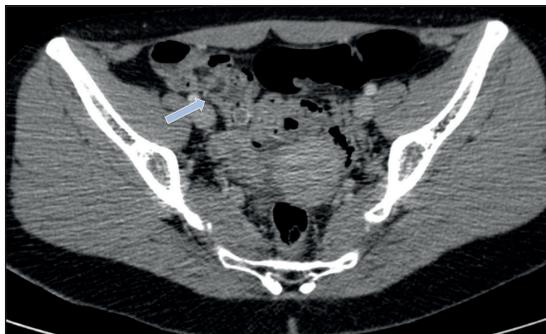


Figura 2. Imagen colonoscópica del ostium apendicular con lesión intususceptada hacia el ciego.

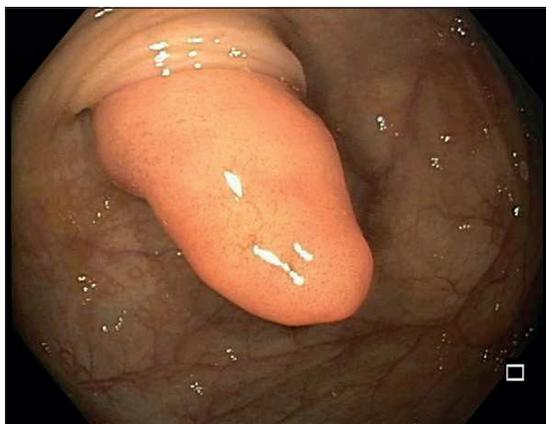
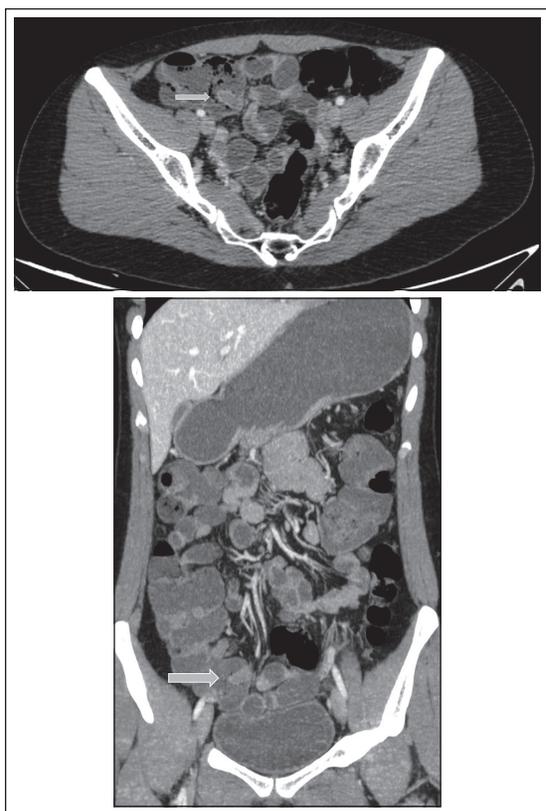


Figura 3. Enteroclis por TC, se observa apéndice cecal invaginado hacia lumen cecal (flecha).



presentación clínica es variada, pudiendo simular cuadros de apendicitis aguda, apendicitis crónica, obstrucción intestinal, dolor abdominal inespecífico y cuadros sospechosos de neoplasia^{4,5}.

Caso Clínico

Paciente femenina de 35 años, con antecedentes de síndrome ansioso, cefalea y trombosis venosa profunda de extremidad inferior derecha 8 años atrás (se descarta trombofilia), sin cirugías previas. Inicialmente, consulta por cuadro de 24 h de dolor abdominal localizado, principalmente, en región epigástrica con irradiación a zona lumbar asociado a deposiciones líquidas. Al examen físico destacaba afebril, hemodinamia normal, abdomen con dolor difuso sin signos de irritación peritoneal. En el estudio de laboratorio destaca una proteína C reactiva de 3,8 mg/dl (VN: 1,0), hemograma y sedimento de orina normales. Se estudia con tomografía computada de abdomen y pelvis contrastada que evidenció engrosamiento concéntrico y edema submucoso en íleon y polo cecal, asociado a dilatación de vasos mesentéricos y linfonodos mesentéricos de 6 mm, concluyendo como hipótesis diagnóstica un cuadro de enterocolitis (Figura 1). Se realiza manejo con ciprofloxacino, AINES, antiespasmódicos y probióticos, logrando remisión parcial de sintomatología.

Por persistir con dolor abdominal constante de predominio en fosa iliaca derecha, 4 meses después de la consulta inicial, se solicita estudio colonoscópico que muestra una lesión de 15 x 8 mm en ostium apendicular intususceptada hacia el ciego, con mucosa normal (Figura 2) y endoscopia digestiva alta que resulta normal. Un nuevo control imagenológico realizado mediante enteroclis por tomografía axial computarizada (TC) evidenció remisión de las alteraciones descritas en estudio previo y logra identificar una imagen tubular proyectada hacia el lumen colónico de 22 x 9mm en el polo cecal, sugerente de invaginación apendicular (Figura 3).

Se discuten las opciones terapéuticas con la paciente, decidiendo la extirpación de la lesión para estudio histopatológico. Se realiza una resección ileocecal laparoscópica con ileoascenso anastomosis, evidenciando en el polo cecal del colon la ausencia de apéndice cecal (Figuras 4 y 5a) y la presencia de tejido inflamatorio circundante y adenopatías mesentéricas de hasta 1cm de diámetro. Al abrir la pieza operatoria se observó la misma lesión descrita en la colonoscopia (Figura 5b), intususceptada en el lumen cecal. La paciente fue dada de alta al 4to día posoperatorio y requirió reingresar durante 3 días

para el manejo de colecciones en lecho operatorio y en pelvis resuelto mediante terapia antibiótica, sin necesidad de reintervención.

El estudio histopatológico de la pieza operatoria informó una intususcepción de apéndice cecal debido a foco de endometriosis de la pared apendicular que comprometía las capas subserosa, muscular y submucosa de la pared apendicular (Figura 7), todos los linfonodos resecaados con hiperplasia reactiva. Sin focos de neoplasia en el estudio.

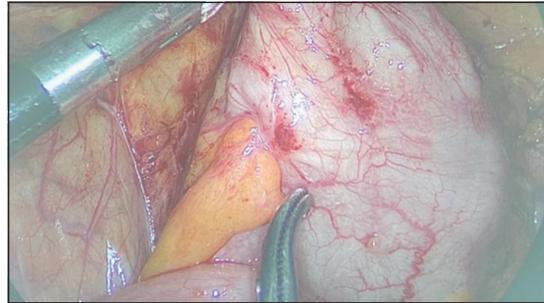


Figura 4. Visión laparoscópica del polo cecal sin presencia de apéndice cecal.

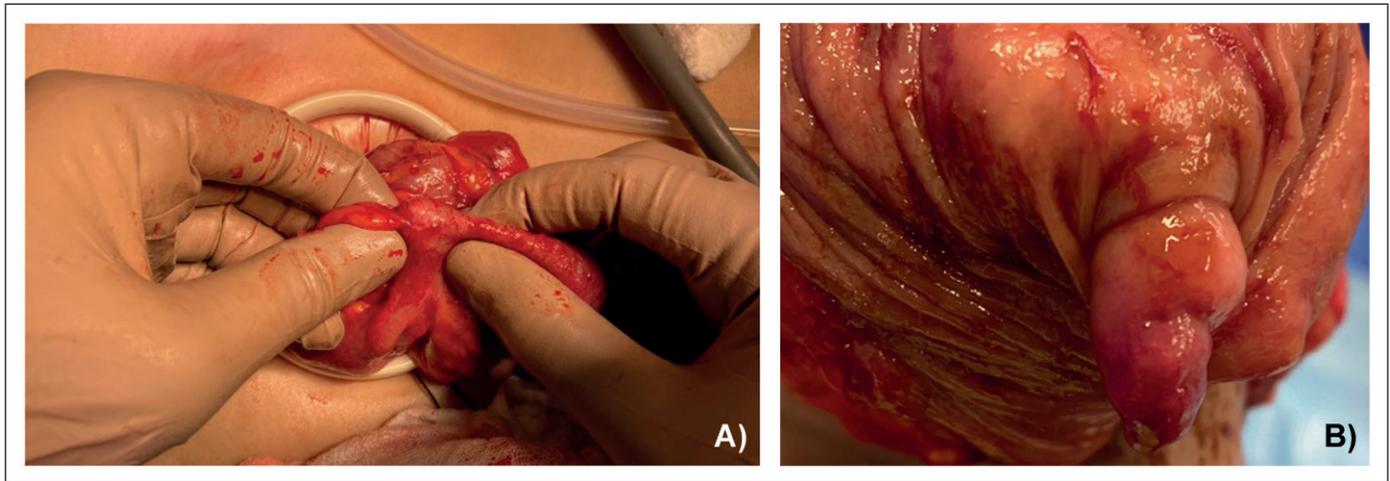


Figura 5. A: Exteriorización de colon derecho. **B:** Ciego abierto en eje longitudinal luego de extracción vía laparoscópica y visión directa de intususcepción de apéndice cecal.

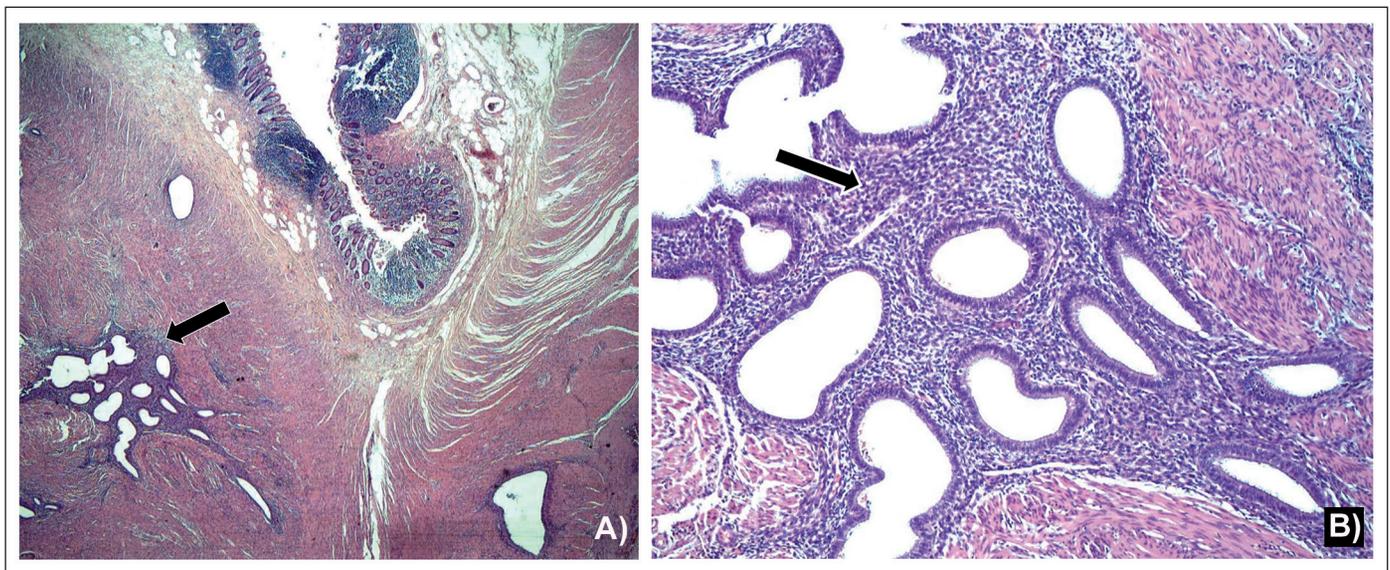


Figura 6. A: Imagen a bajo aumento (20x) con tinción HE que muestra al centro arriba, lumen apendicular con recubrimiento mucoso de tipo colónico, de aspecto normal. Abajo a la izquierda, foco endometriósico con glándulas y estroma endometrial, reemplazando pared apendicular. **B:** Imagen a mediano aumento (100x) con tinción HE que muestra foco de endometriosis con glándulas algo dilatadas y estroma endometrial (área más azul señalada con flecha), reemplazando haces de musculatura lisa de la pared apendicular cecal (área más rosada en cuadrante superior derecho de imagen).

Discusión

La intususcepción de las vísceras huecas corresponde a la invaginación del segmento proximal del intestino dentro del segmento distal adyacente de la misma porción de intestino¹. Cerca del 95% de todos los casos de intususcepción ocurre dentro de la población pediátrica, describiendo hasta un 5% de presentación en adultos, pudiendo encontrar alguna lesión orgánica como etiología en el 90% de los casos⁶.

El mecanismo exacto por el cual se produce la intususcepción no está del todo claro¹, sin embargo, se postula que lesiones o masas alojadas en la pared del intestino podría interferir en la propagación normal de la onda peristáltica de ese segmento intestinal, separando a dos segmentos intestinales contiguos en dos fases distintas de la peristalsis, manteniendo una fase de contracción proximal a la lesión y otra de relajación distal a ésta. Esto favorecería la intususcepción del segmento proximal al ser propulsado por la fase de contracción dentro del distal que se encuentra relajado^{1,6}.

Los sitios más frecuentes donde ocurren intususcepción son en las uniones entre los segmentos intestinales libres y los segmentos fijos al retroperitoneo o por adherencias², existiendo así 4 categorías¹: intususcepción entero-entéricas (involucra intestino delgado solamente), colo-colónica (solo participa colon), ileo-colónica (prolapso del íleon terminal dentro del colon ascendente) e ileo-cecal (cuando la válvula ileocecal es el punto que origina la intususcepción).

La presentación clínica es variada y dependerá del tiempo de evolución de la patología. Los síntomas más frecuentes son la presencia de dolor abdominal intermitente (75%-78% de los casos), náuseas y vómitos (68%-78%). Al examen físico se puede encontrar sensibilidad abdominal aumentada en 60% de los pacientes, distensión abdominal 45% y masa abdominal variando entre 7% a 50% de los casos^{1,6}.

La intususcepción del apéndice es una condición en extremo rara, en reportes de autopsias se ha descrito una aparición de 0,01% de las series de autopsias¹ y en estudios antiguos de apendicectomías hablan de una prevalencia del 0,1%⁷. Se conocen diversas etiologías y condiciones del apéndice como causales de intususcepción apendicular^{8,9}, tales como tumores (pólipos, cistoadenomas, cistoadenocarcinoma, carcinoides y del estroma gastrointestinal), patologías inflamatorias, endometriosis, parasitosis, fibrosis quística, peristaltismo apendicular anormal, fecalitos y cuerpos extraños.

Si bien la causa más frecuente de intususcepción apendicular es la endometriosis del apéndice¹⁰, es

una patología muy poco frecuente, existiendo solo publicaciones de series, no del todo actualizadas, con escasa casuística¹¹.

Existe una clasificación de intususcepción apendicular modificada por McSwain¹² basada en la porción del apéndice que se invagina:

- Tipo I: La punta del apéndice se invagina dentro de la parte proximal del apéndice.
- Tipo II: Se invagina algún punto del apéndice, telescopándose tejido adyacente en conjunto con el apéndice hacia su lumen.
- Tipo III: La invaginación ocurre en la unión del apéndice con el ciego, telescopando el apéndice hacia el lumen cecal.
- Tipo IV: Corresponde a una intususcepción retrograda del apéndice, invaginándose un segmento proximal del apéndice hacia la parte distal de su propio lumen.
- Tipo V: invaginación completa del apéndice en el ciego por progresión de los tipos I, II o III.

La endometriosis corresponde a la presencia de glándulas y estroma endometrial fuera de la cavidad uterina¹³. Sampson¹⁴ propuso la teoría de la menstruación retrograda como el factor etiológico principal en su génesis.

Se estima que afecta entre un 8% y un 15% de las mujeres en edad reproductiva¹⁵ y entre 5% a 37% con compromiso intestinal¹⁶. La endometriosis ubicada en el apéndice fue descrita por primera vez en 1860 por von Rokitansky¹⁷. Existen estimaciones acerca de la incidencia de endometriosis apendicular que se obtuvieron en base a estudios patológicos aleatorios de apéndices cecales, calculando una prevalencia de 0,054%¹⁸. Revisiones más actuales sitúan la frecuencia de endometriosis apendicular en 0,4% de la población general y estiman que el 2,8% de las pacientes con endometriosis tiene compromiso apendicular⁴.

La endometriosis apendicular pueden originar síntomas relacionados a un cuadro de apendicitis aguda como de apendicitis crónica⁴. De igual manera, los pacientes pueden presentar dolor abdominal cíclico crónico y agudo en el hemiabdomen inferior derecho, melena, hemorragia digestiva baja, intususcepción cecal, y perforación intestinal⁴. En escenarios más avanzados puede presentar cierta similitud con patología neoplásica o polipoidea de ciego⁵.

El diagnóstico de la intususcepción apendicular es una tarea difícil y a pesar de los avances en la tecnología sigue siendo un desafío¹⁰. En la actualidad, el estudio preoperatorio combinado de tomografía computada de abdomen y pelvis, asociado a la colonoscopia, entregan herramientas para realizar el diagnóstico. El éxito en el diagnóstico tomográfico

se basa en lograr la visualización de la estructura apendicular dentro del lumen cecal el que debe estar adecuadamente distendido. De no encontrarse distendido, se pueden observar imágenes de donuts o dianas producto de las sumas de las circunferencias de las paredes tanto del apéndice como del ciego en los distintos tipos de invaginación¹⁰. El estudio endoscópico permite la visualización directa del apéndice invaginado hacia el lumen cecal distendido por la propia insuflación del procedimiento observando la imagen característica descrita como una lesión polipoídea con un orificio o punto deprimido central en la ubicación en que se debiera observar el *ostium* apendicular, sin embargo, en algunas ocasiones se puede confundir con lesiones polipoídea o tumorales del ciego¹⁹.

No existe consenso claro sobre el manejo adecuado de la intususcepción del apéndice y las alternativas utilizadas son variadas, desde la reducción mediante enemas (con alta recurrencia), pasando por la apendicectomía endoscópica o, definitivamente, la resección quirúrgica¹⁰. El abordaje quirúrgico parecería representar la alternativa que nos permitiría reducir en mayor medida la recurrencia y otorga la posibilidad de realizar una etapificación en caso de tratarse de una etiología maligna. Dentro de las posi-

bilidades quirúrgicas la opción más utilizada es realizar una apendicetomía clásica¹⁰, siempre y cuando la lesión no comprometa el borde de sección, de lo contrario, es recomendable realizar una tíflectomía. En aquellos escenarios con sospecha de neoplasia se recomienda realizar una colectomía derecha¹⁹.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que en este manuscrito no se han realizado experimentos en seres humanos ni animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Este estudio se apega a las normas éticas requeridas por la Revista de Cirugía, preservando la anonimización de los datos sensibles, obteniendo la firma del paciente en el Consentimiento Informado y la autorización del Comité de Ética Clínico de Clínica INDISA el que está acreditado por la autoridad sanitaria.

Financiación: Ninguna.

Conflictos de interés: Ninguno.

Bibliografía

- Feliu F, Rueda JC, Escuder J, Gris F, Jiménez A, Vicente V. Adult intususception of appendicular mucinous cystoadenoma. *Int Surg.* 2013;98:392-8.
- Yakan S, Caliskan C, Makay O, Denecli AG, Korkut MA. Intususception in adults: Clinical characteristics, diagnosis and operative strategies. *World J Gastroenterol.* 2009;15:1985-9.
- Tseng P, Lee Y, Chiu H, Wu M. Appendiceal Intususception Diagnosed with Endoscopic Sonography. *J Clin Ultrasound* 2006;34:348-51.
- Gustofson RL, Kim N, Liu S, Stratton P. Endometriosis and the appendix: a case series and comprehensive review of the literature. *Fertil Steril.* 2006;86:298-303.
- Mehmood S, Phair A, Sahely S, Ong A, Law A, Onwudike M, et al. Appendiceal intususception caused by endometriosis. *Lancet [Internet].* 2012;380(9848):1202. Available from: [http://dx.doi.org/10.1016/S0140-6736\(12\)60819-8](http://dx.doi.org/10.1016/S0140-6736(12)60819-8).
- Almutawe A, Saeed MF, Nassar AMM. Adult intususception. *Bahrain Med Bull.* 2016;38:245-6.
- Collins DC. 71,000 human appendix specimens. A final report, summarizing forty years' study. *Am J Proctol.* 1963 Dec;14:265-81.
- Seddik H, Rabhi M. Two cases of appendiceal intususception: A rare diagnostic pitfall in colonoscopy. *Diagn Ther Endosc.* 2011;2011(Figure 1):20-2.
- Butte JM, Torres J, Henríquez IM, Pinedo G. Appendicular Mucosal Intususception into the Cecum Secondary to an Intramural Mucinous Cystoadenoma of the Appendix. *J Am Coll Surg.* 2007;204:510.
- Chaar CIO, Wexelman B, Zuckerman K, Longo W. Intususception of the appendix: comprehensive review of the literature. *Am J Surg [Internet].* 2009;198:122-8. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.amjsurg.2008.08.023>
- Collins DC. Endometriosis of the vermiform appendix. *AMA Arch Surg.* 1951;63:617-22.
- McSwain B. Intususception of the appendix. *South Med J.* 1941;34:263-71.
- Olive DL, Schwartz LB. Endometriosis. *N Engl J Med.* 1983;328:1759-69.
- Sampson JA. Perforating Hemorrhagic (Chocolate) Cysts of the Ovary. their importance and especially their relation to pelvic adenomas of endometrial type uterus, rectovaginal septum, sigmoid, etc. *Arch Surg.* 1921;3:245.
- Moradi P, Barakate M, Gill A, Farrow G. Intususception of the vermiform appendix due to endometriosis presenting as acute appendicitis. *ANZ J Surg.* 2007;77:758-60.
- Sung Bin Park, MD M, Jeong Kon Kim, MD M, Kyoung-Sik Cho, MD P. Sonography of Endometriosis in Infrequent Sites. *J Clin Ultrasound* 2008;36:91-7.
- Rokitansky, Karl F von. Ueber Uterusdrüsen-Neubildung in Uterus- und Ovarial-Sarcomen / von C. Rokitansky. *Contributors.* 1860;16:577.
- Collins DC. A study of 50,000 specimens of the human vermiform appendix. *Surg Gynecol Obstet.* 1955 Oct;101:437-45.
- Suazo C, Burdiles P, Larach A. Invaginación apendicular. *Rev Chil Cir.* 2012;64:76-8.