

## Enterocolitis necrotizante del adulto, ¿una presentación atípica de la isquemia mesentérica?

Adult necrotizing enterocolitis, an atypical presentation of mesenteric ischemia?

Javier Lucas Ramos<sup>1</sup>, Diego Benavent Nuñez<sup>2</sup>, Elisa Fernández Fernández<sup>3</sup>, Alvaro Pezzella Risueño<sup>4</sup>, Rosa Mayayo Alvira<sup>4</sup>

<sup>1</sup> Servicio de Reumatología, Hospital Universitario La Paz. Madrid, España.

<sup>2</sup> Servicio de Aparato Digestivo, Hospital Universitario La Paz. Madrid, España.

<sup>3</sup> Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Universitario La Paz. Madrid, España.

<sup>4</sup> Servicio de Urgencias, Hospital Universitario La Paz. Madrid, España.

### RESUMEN

La enterocolitis necrosante en adultos (ECNA) es una enfermedad de etiología incierta, muy infrecuente, con apenas casos descritos en la literatura y con elevada mortalidad. Existe una fuerte correlación entre eventos vasculares e infecciosos implicados en la patogenia de necrosis intestinal masiva en esta entidad.

**Palabras clave:** Enterocolitis necrotizante; Isquemia mesentérica; Neumatosis (fuente: DeCS BIREME).

### ABSTRACT

Necrotizing enterocolitis in adults (ECNA) is a disease of uncertain etiology, very rare, with very few cases described in the literature and with high mortality. There is a strong correlation between vascular and infectious events involved in the pathogenesis of massive intestinal necrosis in this entity.

**Keywords:** Enterocolitis, necrotizing; Mesenteric ischemia; Pneumatosis (source: MeSH NLM).

## INTRODUCCIÓN

La enterocolitis necrosante en adultos (ANEC) es una enfermedad con elevada mortalidad, de origen multifactorial, que se caracteriza por una afectación necrótica segmentaria del intestino delgado y colon. Es considerada una enfermedad rara y hay pocos casos descritos en la literatura. La isquemia mesentérica no oclusiva (NOMI) es otra causa infrecuente de necrosis intestinal, con imágenes radiológicas y presentación clínica similar a la ANEC y una patogenia no del todo esclarecida. Ambas entidades son causas poco frecuentes de abdomen agudo en adultos.

## CASO CLÍNICO

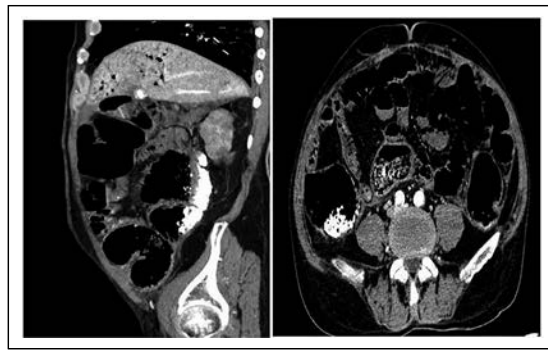
Presentamos el caso de un varón de 64 años con antecedentes de diabetes mellitus tipo 1 de larga evolución, asociada a una insuficiencia renal crónica secundaria a nefropatía diabética en tratamiento con hemodiálisis, así como una ateromatosis sistémica severa de predominio aortoiliaco. También padecía de

pancreatitis crónica y de un probable enolismo crónico. En 2012 sufrió una hemorragia intraparenquimatosa talámica izquierda, con hemiparesia derecha residual, por lo que se desplaza en silla de ruedas y requiere de ayuda para las actividades diarias. Como antecedentes quirúrgicos se le había practicado una apendicetomía sin complicaciones años antes.

El paciente fue atendido en el servicio de urgencias por dolor abdominal súbito de unas 3 horas de evolución, lancinante, localizado en flanco izquierdo con irradiación a espalda, acompañado de vómitos alimenticios. Asoció también dos episodios sincopales con recuperación espontánea, que relacionó con el dolor. No había presentado alteraciones en el ritmo deposicional en días previos, ni episodios de sangrado gastrointestinal. Tampoco síntomas urinarios y se mantuvo afebril en todo momento.

A la exploración, mal aspecto general, con livideces en, tronco y extremidades. Tensión arterial de 65/34 con una, frecuencia cardíaca de 100 latidos por minuto

Citar como: Lucas Ramos J, Benavent Nuñez D, Fernández Fernández E, Pezzella Risueño A, Mayayo Alvira R. Enterocolitis necrotizante del adulto, ¿una presentación atípica de la isquemia mesentérica? Rev Gastroenterol Peru. 2019;39(4):370-3



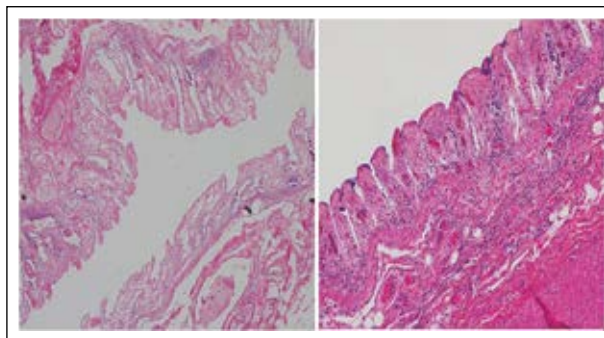
**Figura 1.** TC abdominal corte sagital y corte axial. Dilatación de asas de intestino delgado y colon con contenido hidroaéreo, con ausencia de realce parietal en asas de intestino delgado y colon con neumatosis intestinal masiva desde esófago distal hasta íleon distal. Neumatosis portomesentérica masiva con líquido libre perihepático, periesplénico compatible con hemoperitoneo.

y una saturación de  $O_2$  del 78% basal. El abdomen se encontraba distendido, timpánico, duro y poco depresible y con intenso dolor de forma generalizada, así como peritonismo. Dificultad para la palpación de pulso a nivel ilíaco izquierdo, por lo que se sospecha disección de aorta abdominal.

En la primera analítica destacan una Hb de 16 g/dl, 10 300 leucocitos, PCR de 84,9 mg/L, amilasa 132 UI/L, 273 U/L, creatinina 7,20 mg/dl, urea 104 mg/dL, potasio 3,0 mmol/L, pH de 7,20,  $PCO_2$  de 29,5 mmHg y bicarbonato de 11,4 mmol/L. Se realizó una tomografía (TAC) toracoabdominal, previa estabilización del paciente, que descartó patología aórtica aguda así como perforación intestinal, pero evidenció un fecaloma gigante con distensión de cámara gástrica y esófago torácico con contenido líquido. Se procedió a desimpactación manual del fecaloma y se mantuvo sueroterapia con reposición de potasio y bicarbonato. El paciente presenta buena respuesta clínica y hemodinámica inicial. A las seis horas, presentó nuevo episodio de deterioro general con disminución del nivel de conciencia, inestabilidad hemodinámica

refractaria a fluidoterapia intensa y reaparición del dolor abdominal intenso y de las livideces generalizadas. En la nueva analítica destacaban un pH de 6,90, Bicarbonato de 10,3 mmol/L y un lactato de 9,80, PCR de 156 mg/dl, PCT 139,12 ng/ml,  $K^+$  6 mmol/L y función renal estable. Se solicitó una nueva TAC abdominal, que mostró distensión de asas de intestino delgado, neumatosis intestinal masiva desde esófago distal hasta íleon, neumatosis colónica, neumatosis portomesentérica masiva y líquido libre generalizado compatible con hemoperitoneo. Además, afectación pulmonar bilateral compatible con broncoaspiración. Ante estos hallazgos, compatibles con isquemia y necrosis intestinal masiva con afectación transmural y hemoperitoneo y dada la situación basal del paciente se desestiman procedimientos invasivos y se inician medidas de confort de acuerdo con la familia del paciente.

En escasas dos horas, el paciente fallece. Se solicita necropsia clínica, que muestra enterocolitis hemorrágica con necrosis completa desde, descartando trombosis mesentérica.



**Figura 2.** Anatomía patológica. Enterocolitis hemorrágica intensa, con marcada congestión mucosa intestinal, que focalmente alcanzan la submucosa, acompañado de otros cambios isquémicos como hialinización de la lámina propia y fibrosis.



**Figura 3.** TC abdomen corte axial. Neumatosis portomesentérica masiva con líquido libre perihepático compatible con hemoperitoneo. Dilatación de asas de intestino delgado y colon con contenido hidroaéreo, con ausencia de realce parietal en asas de intestino delgado y colon con neumatosis intestinal.

## DISCUSIÓN

La isquemia mesentérica aguda se produce cuando el flujo sanguíneo del territorio mesentérico es interrumpido de forma súbita, mostrándose insuficiente para satisfacer los requerimientos del intestino, por lo que se compromete la viabilidad intestinal, conllevando una alta mortalidad que se encuentra entre el 59-93%. En pacientes que han sufrido necrosis incompleta en NOMI, se produce daño mucoso y aumento de la permeabilidad capilar, que favorece el daño en la pared intestinal y consecuentemente la aparición de gas en el sistema portal<sup>(1)</sup>. Esto se produce por varios mecanismos<sup>(2)</sup>, entre los que destacamos la liberación de radicales libres debido a la isquemia-reperusión, el aumento de la presión intraluminal, y la sepsis abdominal, produciéndose acúmulos de gas en las venas mesentéricas a través de las paredes intestinales<sup>(3)</sup>. La presencia de gas en territorio portal es un hallazgo infrecuente pero bastante sugestivo de isquemia intestinal, presentándose en 43-70% de los casos<sup>(4)</sup>. La prueba de elección para el diagnóstico etiológico en caso de hallazgo de gas en territorio portal es la tomografía computarizada<sup>(5)</sup>.

El término enterocolitis necrotizante en adultos (ANEC) se usa para describir patrones de necrosis intestinal similares a los hallados en recién nacidos. Se puede postular que la etiología primaria de ANEC es probablemente diferente de la enterocolitis necrosante neonatal (NNEC), en la que niños con sistemas de defensa pobremente desarrollados sufren un evento infeccioso intestinal que conduce a isquemia secundaria<sup>(6)</sup>. Diferentes estudios ponen de manifiesto la relación entre causas vasculares e infecciosas en la patogenia de la ANEC aunque la etiología exacta es incierta. Como posibles factores destacan agentes infecciosos como

bacterias (*Klebsiella*, *Escherichia coli*, *Enterobacter*, *Pseudomonas*, *Clostridium perfringens* y *Staphylococcus epidermidis*) y virus (Coronavirus y Rotavirus)<sup>(6)</sup>; mediadores inflamatorios y trastornos vasculares. Otro mecanismo sugerido es la lesión por hipoxia-reperusión debido a la reducción del flujo sanguíneo mesentérico como evento inicial, lo que resulta en la liberación de radicales libres de oxígeno conduciendo a la pérdida de la integridad celular del intestino, resultando en necrosis intestinal, con translocación bacteriana como evento secundario. La alteración en la flora colónica producida por isquemia resulta en un incremento de los organismos anaeróbicos<sup>(7)</sup>.

Se ha postulado el estreñimiento crónico como posible mecanismo contribuyente, como ocurre en nuestro paciente que presenta un gran fecaloma rectal; en tales casos se relaciona con hipomotilidad gastrointestinal prolongada que favorece la isquemia, al aumentar la presión intraluminal y la compresión de los vasos de la mucosa<sup>(8)</sup>.

El diagnóstico de ANEC se realiza por las manifestaciones clínicas (estadios de Bell), que en estadios iniciales incluyen distensión abdominal, dolor abdominal, vómitos y diarrea sanguinolenta y que pueden conducir a situaciones de shock, peritonismo y perforación intestinal; por las manifestaciones radiológicas, destacando la neumatosis intestinal y el gas portal como hallazgos más característicos, dilatación de asas intestinales, ascitis y edema de pared intestinal, (signos frecuentes pero menos específicos); y por datos de laboratorio, aunque ningún parámetro analítico es específico de NEC, destacan la acidosis metabólica y la hiponatremia como signos persistentes<sup>(9)</sup>. Dado que los hallazgos clínicos, radiológicos, de laboratorio y las características histopatológicas pueden ser poco específicos es esencial un alto índice de sospecha clínica para el diagnóstico<sup>(10)</sup>.

Como ya hemos mencionado, la presencia de gas en el sistema porta intrahepático es un hallazgo radiológico característico pero poco frecuente. En el 50% de los casos se asocia a neumatosis intestinal, por lo que se ha sugerido que son estadios progresivos del mismo proceso<sup>(11)</sup>. Se presume que la neumatosis intestinal asciende a través de las venas mesentéricas y se condensa en el sistema porta intrahepático, situación que se presenta en nuestro paciente, con neumatosis intestinal y gas portal.

En nuestro paciente, el diagnóstico clínico de sepsis y los hallazgos radiológicos de neumatosis intestinal y gas en el sistema porta intrahepático, sin observarse en TC abdominal obstrucción vascular, son característicos de la enterocolitis necrotizante, que ha sido reportada en adultos con inmunosupresión o enfermedad vascular avanzada. Nuestro caso ilustra a un paciente

con enfermedad ateromatosa severa involucrando a los principales vasos, que, durante su estancia en urgencias presenta cuadro de abdomen agudo, siendo diagnosticado post mortem de ANEC. No se obtuvieron muestras microbiológicas positivas en este paciente sugiriendo que la etiopatogenia de su enfermedad es principalmente isquémica, como ha demostrado el examen post mortem. La histopatología del paciente se caracteriza a nivel hepático, por marcada congestión de los sinusoides hepáticos perivenulares dilatados y repletos de hemáties, y a nivel intestinal por destacada congestión mucosa del intestino delgado y grueso con la fibrosis, hialinización de la lámina propia, criptas atróficas y presencia de hemorragia compatible con isquemia.

En cuanto al manejo de esta entidad, el abordaje es tanto médico como quirúrgico. El tratamiento consiste en intentar producir vasodilatación local siempre que sea posible y resección quirúrgica del segmento intestinal afectado<sup>(12)</sup>. Sin embargo, en casos avanzados las opciones quirúrgicas son limitadas y el desenlace puede ser fatal, como lo fue en este caso.

En conclusión, la enterocolitis necrotizante es una entidad rara en adultos con etiología incierta. Existe una fuerte correlación entre eventos vasculares e infecciosos implicados en la patogenia de necrosis intestinal masiva en ANEC. Los hallazgos clínicos, radiológicos, de laboratorio, y las características histopatológicas pueden ser poco específicos de la enfermedad, siendo necesario un alto índice de sospecha clínico para el diagnóstico.

**Conflicto de intereses:** Los autores confirman que no exista ninguna relación financiera o personal con otras personas u organizaciones y que pudieran dar lugar a un conflicto de intereses en relación con el artículo que se remite para publicación.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Paladino NC, Inviati A, Di Paola V, Busuito G, Amodio E, Bonventre S, et al. Predictive factors of mortality in patients with acute mesenteric ischemia. A retrospective study. *Ann Ital Chir.* 2014;5(3):265-70.
2. Morimoto Y, Yamakawa T, Tanaka Y, Hiranaka T, Kim M. Recurrent hepatic portal venous gas in a patient with hemodialysis-dependent chronic renal failure. *J Hepatobiliary Pancreat Surg.* 2001;8(3):274-8
3. Rossi UG, Petrocelli F, Seitun S, Ferro C. Nonocclusive mesenteric ischemia in a dialysis patient with extensive vascular calcification. *Am J Kidney Dis.* 2012;60(5):843-6.
4. McElvanna K, Campbell A, Diamond T. Hepatic portal venous gas—three non-fatal cases and review of the literature. *Ulster Med J.* 2012;81(2):74-8.
5. Nelson AL, Millington TM, Sahani D, Chung RT, Bauer C, Hertl M, et al. Hepatic portal venous gas: the ABCs of management. *Arch Surg.* 2009;144(6):575-81.
6. Zachariah SK. Adult necrotizing enterocolitis and non occlusive mesenteric ischemia. *J Emerg Trauma Shock.* 2011;4(3):430-2.
7. Bennion RS, Wilson SE, Williams RA. Early portal anaerobic bacteremia in mesenteric ischemia. *Arch Surg.* 1984;119(2):151-5.
8. Saleh M, Pauquet P, Thévenin D. Fatal adult necrotizing enterocolitis associated with fecal impaction case presentation and short review. *Surg Curr Res.* 2014;4(1):1000156.
9. Mitchell T, Christie E, Syed H, Koulaouzidis A, Tan WC. Adult ischemic necrotizing enterocolitis. *J Coll Physicians Surg Pakistan.* 2010;20(6):412-3.
10. Katara AN, Chandiramani VA, Soman R, Bhaduri A, Desai DC. Necrotizing enterocolitis in adults : A study of four cases. *Indian J Surg.* 2004;66(2):115-8.
11. González-Fisher R, Flores Valenzuela ME, López-Velarde Valdéz G. Neumatosis de la vena porta. *An Med (Mex).* 2015;60(4):291-5.
12. Gupta M, Goyal S, Verma M, Goyal R. Adult necrotising enterocolitis: a rare entity. *Acta Med Indones.* 2014;46(4):330-2.

### Correspondencia:

Javier Lucas Ramos

c/ Estebán Calderón n7 4 B Madrid, España, 675108289

Email: jlucasr77@gmail.com