

Síndrome de Wilkie secundario a hipertiroidismo exógeno en una paciente con hipotiroidismo primario autoinmune: reporte de un caso y revisión de la literatura

Wilkie's syndrome caused by exogenous hyperthyroidism in a patient with primary autoimmune hypothyroidism: a case report and literature review

Enrique Cervantes Pérez^{1,2}, Martha C. Martínez-Soto Holguín¹, Juan Pedro Díaz Juárez¹, Ana Luz del C. Reyes Ramírez¹

¹ Departamento de Nutriología Clínica, Instituto Nacional de Ciencias Médicas y Nutrición Salvador Zubirán. Ciudad de México, México.

² Departamento de Bienestar y Desarrollo Sustentable, Centro Universitario del Norte, Universidad de Guadalajara. Colotlán, Jalisco, México.

Recibido: 27/04/2020 - Aprobado: 17/08/2020

ORCID: Martha Martínez Soto Olguín: <https://orcid.org/0000-0002-4101-2310>, Juan Pedro Díaz Juárez: <https://orcid.org/0000-0001-5740-5664>, Ana Luz del C. Reyes Ramírez: <https://orcid.org/0000-0002-2584-0159>, Enrique Cervantes Pérez: <https://orcid.org/0000-0002-6333-9082>

RESUMEN

El síndrome de Wilkie o de arteria mesentérica superior es una causa poco común de obstrucción intestinal proximal, relacionada a pérdida de peso reciente. Reportamos el caso de una mujer de 19 años que se presenta a la clínica con pérdida de peso, dolor abdominal, náusea y vómito. Los exámenes de laboratorio reportaron anemia, hipoalbuminemia, hipomagnesemia y una hormona estimulante de la tiroides suprimida secundario al uso con levotiroxina. Se realizó una serie esofagogastroduodenal con datos compatibles con dilatación gástrica severa, gastroparesia y una tomografía axial computada reveló un ángulo aortomesentérico de 11,7°. Se inició manejo conservador a base de nutrición enteral y parenteral total, siendo este el tratamiento de elección. En casos refractarios, la cirugía es una opción segura y efectiva.

Palabras clave: Síndrome de Wilkie; Síndrome de la arteria mesentérica superior; Obstrucción intestinal; Terapia nutricional (fuente: DeCS BIREME).

ABSTRACT

Wilkie's syndrome or superior mesenteric artery syndrome is an unusual cause of proximal intestinal obstruction, primarily attributed to recent weight loss. We report the case of a 19-year-old woman comes to our clinic and reports weight loss, abdominal pain, nausea, and vomiting. Laboratory tests revealed anemia, hypoalbuminemia, hypomagnesemia, and a suppressed thyroid stimulating hormone secondary to levothyroxine. A barium swallow test showed gastric dilatation, delayed gastric emptying and an axial computed tomography revealed an aortomesenteric angle of 11.7°. Conservative management with total parenteral and enteral nutrition was initiated, being the first-line treatment. In refractory cases surgery is a safe and effective option.

Keywords: Wilkie syndrome; Superior mesenteric artery syndrome; Intestinal obstruction; Nutritional therapy (source: MeSH NLM).

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Wilkie es una causa poco común de obstrucción intestinal proximal. Se ha descrito también con otros nombres, como síndrome de la arteria mesentérica superior, síndrome de Cast, obstrucción duodenal aortomesentérica, e íleo duodenal crónico^(1,2). Se caracteriza por compresión intermitente de la tercera porción del duodeno secundario a estrechamiento del espacio entre la arteria mesentérica superior y la aorta (ángulo aortomesentérico), atribuido principalmente a la pérdida de tejido adiposo mesentérico. El manejo conservador incluye reanimación hídrica, corrección electrolítica, soporte nutricional enteral o parenteral y sonda nasogástrica para descompresión gástrica⁽³⁾. Sin embargo, generalmente falla, siendo la duodenoyeyunostomía laparoscópica un tratamiento definitivo, seguro y efectivo.

CASO CLÍNICO

Presentamos el caso de una mujer joven de 19 años con antecedentes familiares de cáncer de colon, que consultó por pérdida de peso no intencionada de 15 kilogramos en 3 meses, así como dolor abdominal asociado a náusea y vómito postprandial. Se estableció el diagnóstico de hipotiroidismo primario autoinmune 6 meses previos, por lo que se inició tratamiento con Levotiroxina a dosis de 50 microgramos cada 24 horas, causando hipertiroidismo exógeno. En la exploración física destacaba caquexia, distensión abdominal difusa, peso de 32,1 kg e índice de masa corporal de 12,5 kg/m² (talla 1,60 metros). En los exámenes de laboratorio se identificó la presencia de anemia microcítica hipocrómica con hemoglobina de 8,5 g/dl, reportándose la cinética del hierro con transferrina de 229 mg/dl (200-360), hierro sérico 79 µg/dL (50-

Citar como: Cervantes Pérez E, Martínez-Soto Holguín MC, Díaz Juárez JP, Reyes Ramírez AL. Síndrome de Wilkie secundario a hipertiroidismo exógeno en una paciente con hipotiroidismo primario autoinmune: reporte de un caso y revisión de la literatura. Rev Gastroenterol Peru. 2020;40(3):274-7

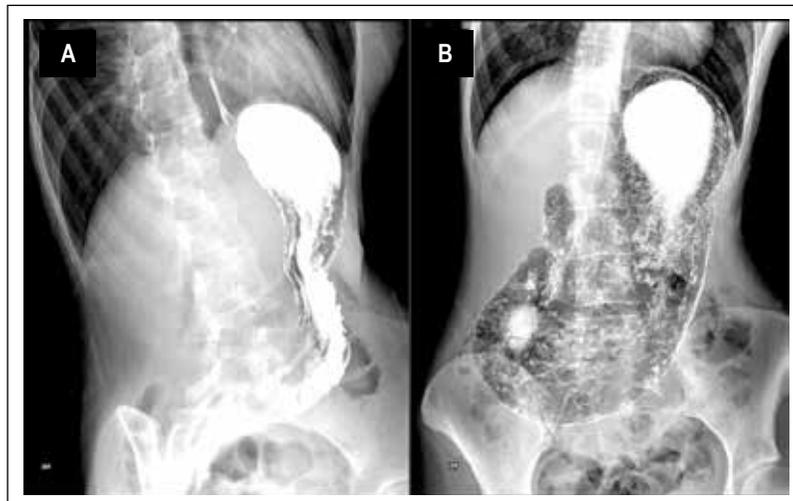


Figura 1. Serie esofagogastroduodenal con dilatación severa de la cámara gástrica (A), con presencia de material de contraste 45 min después del inicio del estudio, lo que sugiere retraso en el vaciamiento gástrico (B).

212), capacidad insaturada de fijación 227 $\mu\text{g}/\text{dL}$ (155-355), capacidad total de fijación 306 $\mu\text{g}/\text{dL}$ (250-425), índice de saturación de transferrina 26% (14-50) que corresponde a anemia de enfermedad crónica. También se identificó la presencia de hipoalbuminemia, hipomagnesemia y una Hormona estimulante de la tiroides (TSH) en $<0,1$ mUI/ml. Se realizó una serie esofagogastroduodenal que reportó una cámara gástrica dilatada de manera severa, y datos de retraso en el vaciamiento gástrico (Figura 1). Por lo anterior, se decide realizar endoscopia gastrointestinal alta que reporta esófago de forma, situación, distensibilidad y vascularidad normales, cámara gástrica con forma en "J" por angulación acentuada del antro gástrico con píloro central y sin deformidades, permitiendo el paso

adecuado del endoscopio hacia bulbo duodenal y segunda porción de duodeno donde no se observaron alteraciones. La tomografía computada reveló un ángulo aortomesentérico de $11,7^\circ$ (Figura 2), compatible con síndrome de la arteria mesentérica superior (SAMS). Además de la suspensión de la levotiroxina, se inició manejo conservador a base de nutrición parenteral total durante la primera semana, y posteriormente se realiza colocación de sonda nasoyeyunal vía endoscópica, con inicio de nutrición enteral sin complicaciones. 7 días después del tratamiento, se observó aumento de 2 kilogramos (peso de 34,1 kg), y disminución parcial de los síntomas, por lo que se retira nutrición parenteral total. Se decide egresar para seguimiento ambulatorio, así como determinación en consulta de hormonas tiroideas. Un mes posterior a su egreso, se decide retiro de sonda de alimentación e inicio de alimentación exclusiva por vía oral. En el seguimiento a 1, 3 y 6 meses, la paciente mostró aumento ponderal de peso, remitiendo por completo la sintomatología (Tabla 1). Una determinación de TSH en la consulta

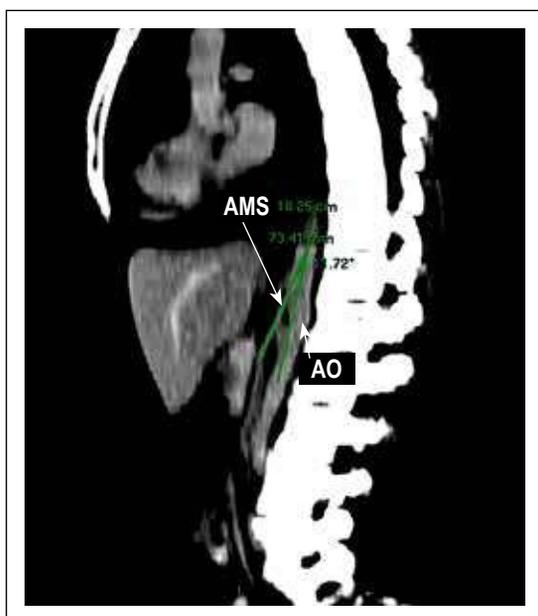


Figura 2. Imagen de la tomografía computada en corte sagital donde se observa la salida de la arteria mesentérica superior (AMS) con un ángulo de $11,7^\circ$ en relación con la aorta (AO).

Tabla 1. Valoración y seguimiento en consulta.

	Mes 1	Mes 3	Mes 6
Peso corporal	40,5 kg	47,1 kg	54,0 kg
Índice de Masa corporal (IMC) Kg/m ²	15,8 kg/m ²	18,35 kg/m ²	21,09 kg/m ²
Signos y síntomas	Leve-moderados (nausea y dolor abdominal leve)	Leves (nausea ocasional)	Asintomática
Terapia nutricional	Retiro de sonda nasoyeyunal de alimentación e inicio de vía oral exclusiva	Alimentación vía oral	Alimentación vía oral

IMC: Índice de masa corporal.

de seguimiento reveló un valor de 6,59 mUI/ml, por lo que se reinició el manejo con levotiroxina a dosis de 25 microgramos al día.

DISCUSIÓN

El síndrome de Wilkie es una de las causas poco comunes de obstrucción intestinal. La tercera parte del duodeno se comprime entre la arteria mesentérica superior en su origen con la aorta abdominal debido a la disminución de la angulación, lo que causa obstrucción parcial o completa⁽⁴⁾. La incidencia de este síndrome oscila entre 0,0024% a 0,34 en la población general⁽⁵⁾, siendo más comúnmente afectadas las mujeres de entre 10 y 40 años⁽⁶⁾. El ángulo aortomesentérico en población sana se ha reportado de entre 25 y 60°, mientras que en personas con síndrome de Wilkie es de entre 6 y 22°⁽⁷⁻⁹⁾. Una gran cantidad de factores puede alterar la angulación aortomesentérica. Entre las más comunes se encuentra la pérdida de peso, lo que lleva a pérdida de la grasa retroperitoneal y posteriormente a obstrucción. Se ha relacionado a diferentes entidades crónicas como cáncer, síndromes malabsortivos, síndrome de inmunodeficiencia adquirida, trauma, quemaduras y en algunos casos, eventos quirúrgicos que involucran la modificación de estructuras anatómicas⁽¹⁰⁻¹²⁾. La presentación clínica en la mayoría de los pacientes son síntomas agudos de obstrucción intestinal, o también de manera crónica con distensión y dolor abdominal, sensación de plenitud postprandial o saciedad temprana. Se ha reportado que ciertas posiciones pueden agravar la sintomatología como lo es el decúbito supino⁽¹³⁾. El diagnóstico se basa en la interpretación de signos y síntomas, así como estudios de imagen que confirman la sospecha diagnóstica. Existen varios estudios de imagen tales como la radiografía simple de abdomen, estudios baritados, endoscopia gastrointestinal, tomografía axial computada (TAC), ultrasonido Doppler y resonancia magnética. Los estudios baritados pueden mostrar dilatación gástrica y duodenal con enlentecimiento del tránsito gastroduodenal. Tanto la TAC contrastada como la resonancia magnética, permiten la adecuada visualización de la compresión vascular duodenal y la medición del ángulo aortomesentérico, lo cual permite establecer el diagnóstico y pautar el tratamiento, ya sea médico o quirúrgico. El manejo conservador siempre es la opción de primera línea, e incluye nutrición parenteral total o nutrición enteral total a través de sondas de alimentación nasoyeyunales, lo anterior con el objetivo de aumentar la cantidad de grasa retroperitoneal y restablecer el ángulo aortomesentérico y por consecuencia, la resolución de los síntomas. En casos refractarios, la cirugía es una opción, siendo la duodenoyeyunostomía laparoscópica el procedimiento de elección con tasas de éxito de hasta 90%^(10-12,14).

En conclusión, el síndrome de Wilkie debe ser considerado como una de las causas poco comunes

de obstrucción intestinal en pacientes jóvenes con dolor abdominal y vómitos asociado a pérdida de peso importante. Existen diversas entidades que también se han relacionado a dicho síndrome, y es de suma importancia descartar otras causas de obstrucción intestinal mecánica a través de estudios de imagen endoscópicos. La TAC doblemente contrastada es actualmente una herramienta de utilidad no solo para establecer el diagnóstico sino también para pautar el tratamiento. En casos en donde el manejo conservador falle, la cirugía es una opción con tasas de éxito altas.

Agradecimientos

Los autores del manuscrito agradecen al Departamento de Nutriología Clínica del Instituto Nacional de Ciencias Médicas y Nutrición Salvador Zubirán por su valioso apoyo.

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 sus centros de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflictos de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de interés.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Dorph MH. The cast syndrome; review of the literature and report of a case. *N Engl J Med.* 1950;243:440.
2. Wilkie DP. Chronic duodenal ileus. *Br J Surg.* 1921;9:204.
3. Cienfuegos JA, Estevez MG, Ruiz-Canela M, Pardo F, Díez-Caballero A, Vivas I, et al. Laparoscopic Treatment of Median Arcuate Ligament Syndrome: Analysis of Long-Term Outcomes and Predictive Factors. *J Gastrointest Surg.* 2018;22(4):713-721.
4. Biswas A, Babu AA, Neelakantan S, Sarkar PS. Superior mesenteric artery syndrome: CT findings. *BMJ Case Reports.* 2016;2016:bcr2016215885.
5. Lee CS, Mangla JC. Superior mesenteric artery compression syndrome. *Am J Gastroenterol.* 1978;70:141-50.
6. Zaraket V, Deeb L. Wilkie's syndrome or superior mesenteric artery syndrome: fact or fantasy? *Case Rep Gastroenterol.* 2015;9:194-9.
7. Unal B, Aktaş A, Kemal G, Bilgili Y, Güliter S, Daphan C, Aydinuraz K. Superior mesenteric artery syndrome: CT and ultrasonography findings. *Diagn Interv Radiol.* 2005;11:90-95.
8. Record JL, Morris BG, Adolph VR. Resolution of refractory superior mesenteric artery syndrome with laparoscopic

- duodenojejunostomy: pediatric case series with spectrum of clinical imaging. *Ochsner J.* 2015;15:74-78.
9. Pillay Y. Superior mesenteric artery syndrome: a case report of two surgical options, duodenal derotation and duodenojejunostomy. *Case Rep Vasc Med.* 2016;2016:8301025.
 10. Ganss A, Rampado S, Savarino E, Bardini R. Superior Mesenteric Artery Syndrome: a Prospective Study in a Single Institution. *J Gastrointest Surg.* 2019;23(5):997-1005.
 11. Silva G, Moreira-Silva H, Tavares M. Iatrogenic superior mesenteric artery syndrome. *Rev Esp Enferm Dig.* 2018;110(11):742-743.
 12. Young A, Kinnear N, Hennessey D, Kanhere H, Trochsler M. Intermittent superior mesenteric artery syndrome in a patient with multiple sclerosis. *Radiol Case Rep.* 2018;13(6):1108-1111.
 13. Merrett ND, Wilson RB, Cosman P, Biankin AV. Superior mesenteric artery syndrome: diagnosis and treatment strategies. *J Gastrointest Surg.* 2009;13:287-92.
 14. Welsch T, Büchler MW, Kienle P. Recalling superior mesenteric artery syndrome. *Dig Surg.* 2007;24:149-56.

Correspondencia:

Enrique Cervantes Pérez

E-mail: enrique.cervantes@academico.udg.mx