

Tumor miofibroblástico inflamatorio que causa obstrucción intestinal en adulto mayor por intususcepción intestinal: Reporte de caso

Inflammatory myofibroblastic tumor causing intestinal obstruction in older adults due to intestinal intussusception: Case report

Montes-Arcón, Pablo Salomón ¹ ; Redondo de Oro, Katherine Tatiana ² ; Cantero-Romero, Kevin ³ ; Blanco-Pertuz, Paola María ⁴ ; Pérez-Mingan, Gloria Caterine ⁴ 

¹ Estudiante de segundo año, postgrado de Patología, Universidad de Cartagena. Colombia.

² Médica patóloga. Departamento de Patología. Grupo de Investigación: Histopatología, Facultad de Medicina, Universidad de Cartagena, Colombia.

³ Médico general, E.S.E Hospital universitario del Caribe. Cartagena, Colombia.

⁴ Residente de segundo año, postgrado de Medicina interna, Universidad de Cartagena, Colombia.

Recibido: 16/05/2022 - Aprobado: 12/01/2023

RESUMEN

La intususcepción intestinal en pacientes adultos es una entidad infrecuente, la cual corresponde alrededor del 5% de todas las causas de obstrucción intestinal. Su diagnóstico no es fácil, dado lo poco específico de los síntomas de los pacientes que la presentan; este se sustenta principalmente en los hallazgos de los estudios de imagen. El manejo quirúrgico es la piedra angular del tratamiento de esta patología, y su éxito va a estar determinado por el diagnóstico oportuno y la experticia del cirujano tratante. En este artículo se presenta el caso de un paciente masculino de 62 años, que consulta por cuadro de dolor abdominal inespecífico y síntomas urinarios irritativos, el cual por persistencia del dolor abdominal pese al manejo médico es llevado a cirugía, donde se diagnostica de manera intraoperatoria una invaginación intestinal a nivel de íleon distal.

Palabras clave: *Intususcepción; Obstrucción intestinal; Diagnóstico diferencial; Tomografía Computarizada por Rayos X (fuente: DeCS Bireme).*

ABSTRACT

Intestinal intussusception in adult patients is a rare entity, which corresponds to about 5% of all causes of intestinal obstruction, its diagnosis is not easy given the lack of specific symptoms of patients who present it. This is mainly based on the findings of imaging studies, surgical management is the cornerstone of treatment of this pathology and its success will be determined by timely diagnosis as well as by the expertise of the treating surgeon. This article presents the case of a 62-year-old male patient who consults due to nonspecific abdominal pain and irritative urinary symptoms, who due to persistence of abdominal pain despite medical management is taken to surgery where it is diagnosed intraoperatively. an intestinal intussusception at the level of the distal ileum.

Keywords: *Intussusception; Intestinal obstruction; Diagnosis, Differential; Tomography, X-Ray Computed (source: MeSH NLM).*

INTRODUCCIÓN

El término intususcepción o invaginación intestinal, hace referencia a la introducción de un segmento intestinal en la luz de un segmento adyacente, lo cual ocasiona obstrucción intestinal de carácter mecánico. ⁽¹⁾ Esta entidad a su vez va a tener una clasificación de acuerdo con su localización anatómica, en cuatro tipos: cólica, cuando hay compromiso del colon; entérica, si existe afectación de solo el intestino delgado; ileocecal, cuando la válvula ileocecal actúa como sitio de la invaginación; e ileocólica,

si el íleon terminal se invagina hacia el colon a través de la válvula ileocecal. ⁽²⁾

Epidemiológicamente es la emergencia quirúrgica de origen abdominal más frecuente durante la infancia, principalmente en pacientes menores de 2 años, y su incidencia es de 1-4/1000 niños aproximadamente, con mayor frecuencia entre los 3 y 12 meses de edad, con una ligera preponderancia por los varones con una relación niño:niña 1.2:1 y 2.4:1. ⁽³⁾ Alrededor del 60% de los casos ocurre en menores de 1 año; en el 90% de los casos,

Citar como: Montes-Arcón PS, Redondo de Oro KT, Cantero-Romero K, Blanco-Pertuz PM, et al. Tumor miofibroblástico inflamatorio que causa obstrucción intestinal en adulto mayor por intususcepción intestinal: Reporte de caso. *Rev Gastroenterol Peru.* 2023;43(1):69-73. doi: 10.47892/rgp.2023.431.1364

es idiopática y los puntos de referencia patológicos se identifican en sólo el 25% de los casos pediátricos. (4)

La invaginación intestinal en adultos es mucho menos frecuente, con una incidencia global de 2-3 casos/1.000.000 de habitantes/año, representa el 5% de todas las intususcepciones, el 1% de todas las obstrucciones intestinales, el 0,08% de todas las cirugías abdominales y el 0,003-0,02% de todos los ingresos hospitalarios. (5)

Clínicamente las manifestaciones son inespecíficas, y en un elevado número de casos no hay presencia de signos de irritación peritoneal; en un estudio retrospectivo publicado por la Clínica Mayo en 2012, que incluyó un total de 148 pacientes, los principales síntomas referidos fueron, en orden descendente: dolor abdominal (94%), náuseas (76%), vómito (65%), diarrea (30%) y deposiciones con sangre (15%), con un 2% de pacientes asintomáticos. (6)

Debido a la poca frecuencia de la intususcepción en pacientes adultos y por la importancia clínica de la misma, se presenta a continuación un caso clínico, en el cual se concluyó como causa de dolor abdominal en un paciente, que requirió manejo por el grupo de cirugía general.

Presentación del caso

Paciente masculino de 62 años con antecedentes de hipertensión arterial, quien ingresó por cuadro clínico de 6 días de evolución, consistente en dolor tipo cólico localizado en hemiabdomen inferior de predominio en fosa iliaca derecha, irradiado a región lumbar derecha. Asociada a episodio emético en cantidad de 1; niega fiebre, diarrea u otra sintomatología asociada. A la exploración, abdomen blando, distendido, doloroso a la palpación superficial y profunda en fosa iliaca derecha. Sin signos de irritación peritoneal, no masas, no megalias.

Debido a los hallazgos del examen físico y la sintomatología referida, se indicaron analgesia y paraclínicos de extensión; los estudios reportaron leucocitosis a expensas de neutrófilos, prueba de función

Tabla 1. Resultados de los paraclínicos de ingreso del paciente.

Paraclínicos de ingreso	Valores de referencia	Unidad de medida	Valores del paciente
Leucocitos	4,0-11,0	x10 ³ /mm ³	14,29
Neutrófilos %	45,0-75,0	%	82,8
Recuento de neutrófilos	4,5-7,0	x10 ³ /mm ³	11,83
Linfocitos %	20,0-45,0	%	13,1
Recuento de linfocitos	1,5-4,5	x10 ³ /mm ³	1,87
Monocitos %	1,0-8,0	%	1,6
Recuento de monocitos	0,0-0,8	x10 ³ /mm ³	2,30
Eosinófilos %	1,0-6,0	%	2,3
Recuento de eosinófilos	0,0-0,45	x10 ³ /mm ³	3,30
Basófilos %	0,0-1,0	%	0,2
Recuento de basófilos	0,0-5,00	x10 ³ /mm ³	0,03
Recuento de eritrocitos	4,0-4,8	x10 ⁶ /mm ³	4,23
Hemoglobina	12,0-16,0	gr/dl	13,7
Hematocrito	36,0-48,0	%	40,2
Volumen corpuscular medio	80-100	um ³	95
Hemoglobina corpuscular media	26,5-32,0	Pg	32,3
Recuento plaquetario	150-450	x10 ³ /mm ³	459
Volumen plaquetario medio	6,5-11,0	um ³	5,5
Nitrógeno ureico en sangre	7,0-18	mg/dl	14
Creatinina sérica	0,7-1,30	mg/dl	1,49
Proteína C reactiva	0,00-32,3	mg/dl	2,1

renal alterada, proteína C reactiva (PCR) no significativa, uroanálisis con hematuria microscópica y ecografía de abdomen total que reporta hepatomegalia más esteatosis hepática leve, quistes simples renales y meteorismo intestinal (Tabla 1).

El paciente continuó sintomático luego del manejo instaurado, por lo cual se decide indicar la realización de una tomografía computarizada de abdomen simple y contrastada, la cual tuvo como hallazgo evidencia de dilatación de asas en yeyuno e íleon, con zona de transición hacia íleon distal por probable obstrucción (Figura 1). Posteriormente presentó distensión abdominal progresiva; por lo cual al tener en cuenta el cuadro clínico de ingreso y hallazgos imagenológicos, se indicó realización de laparotomía exploratoria.

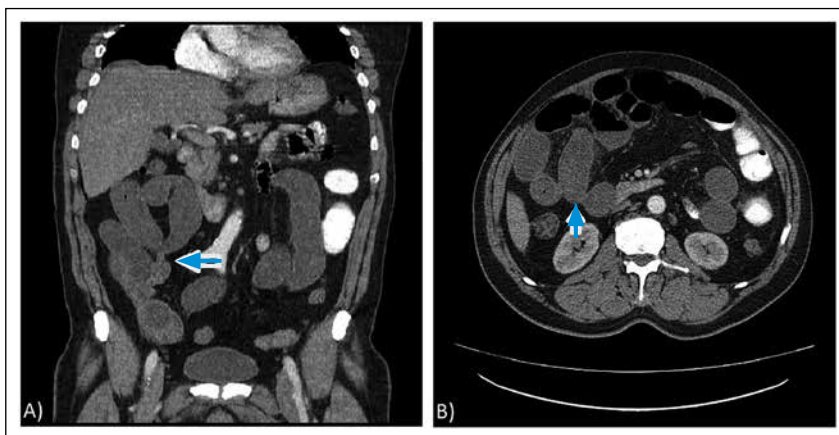


Figura 1. Tomografía computarizada de abdomen contrastada donde se visualiza en los cortes coronal (A) y axial (B) la presencia de un área de invaginación intestinal a nivel del íleon distal (Flechas azules).

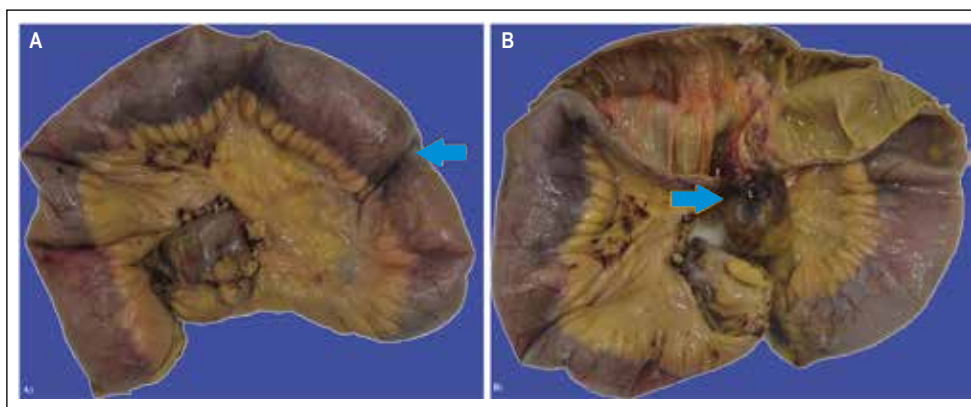


Figura 2. Pieza quirúrgica obtenida, en la cual superficialmente se visualiza un área invaginada del íleon distal (A, flecha azul); al corte del segmento de íleon por su borde anti mesentérico, se observó la invaginación intestinal y una lesión polipoide de 6.5 x 3 cm en relación al área invaginada (B, flecha azul).

Como hallazgos intraoperatorios, llamó la atención la presencia de intususcepción de íleon distal, con presencia de una masa a nivel de este a 30 cm de válvula ileocecal, líquido peritoneal cetrino de aproximadamente 400 cc, lesiones hepáticas nodulares menores a 1 cm y apéndice cecal sana (Figura 2). Se realizó resección del segmento afectado, con una longitud de 50 cm, posterior a lo cual se realizó anastomosis íleo-ileal con sutura mecánica y reforzamiento con sutura manual. El diagnóstico definitivo de anatomía patológica concluyó la presencia de intususcepción a nivel del íleon distal, secundaria a un tumor miofibroblástico inflamatorio, confirmado mediante tinción de hematoxilina/eosina y estudios de inmunohistoquímica (Figura 3). El paciente egresó tras 9 días de estancia hospitalaria luego de la mejoría progresiva del cuadro clínico, la tolerancia a la vía oral y la presencia de deposiciones espontáneas; a la fecha persiste asintomático.

DISCUSIÓN

La invaginación intestinal fue descrita por primera vez por Paul Barbette en 1674 y representa una forma rara de obstrucción intestinal en el adulto, definida

como la dilatación de un segmento proximal del tracto gastrointestinal (GI), llamado intususceptum, en la luz del segmento distal adyacente del tracto GI, llamado intususciens.⁽⁷⁾ En los adultos, la presentación puede ser tan grave que puede llevar al desarrollo de obstrucción intestinal y exponer al paciente al riesgo de isquemia parietal, perforación y peritonitis.⁽⁸⁾ Las principales causas de intususcepción en adultos incluyen carcinomas, pólipos, estenosis, tumores benignos, divertículo de Meckel y divertículo colónico. A menudo se clasifica según su ubicación en enteroentérico (limitado al intestino delgado), colo-cólico (limitado al intestino grueso), ileocólico (cuando el íleon terminal prolapsa hacia el colon ascendente) e íleo-cecal (Cuando la válvula ileocecal es el punto principal de la intususcepción).⁽⁹⁾

Las intususcepciones también se han clasificado según su etiología en benignas, malignas o idiopáticas. En el intestino delgado, una intususcepción puede ser secundaria a la presencia de lesiones intraluminales o extraluminales en las que se destacan las lesiones inflamatorias, divertículo de Meckel, adherencias postoperatorias, lipoma, pólipos adenomatosos, linfoma, metástasis o iatrogénica.⁽¹⁰⁾

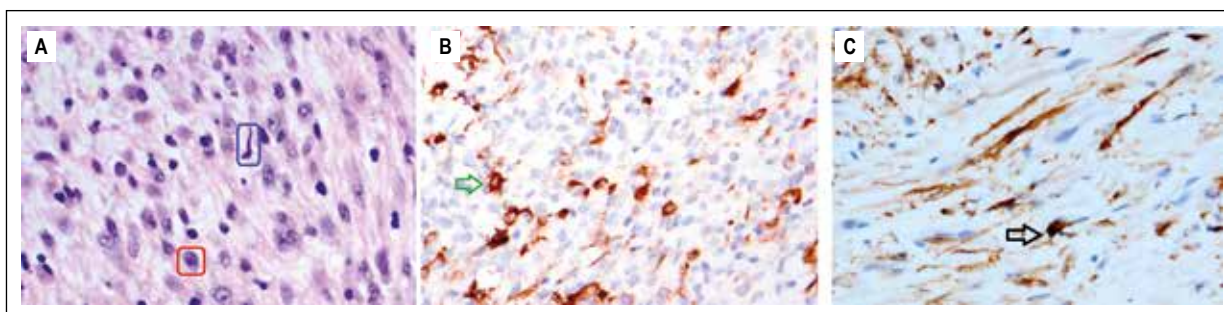


Figura 3. Las microfotografías de la muestra evaluada mostraron en las tinciones: (A) Hematoxilina/Eosina 400x una lesión tumoral compuesta por células fusiformes (Recuadro azul) y epitelioides (Recuadro rojo), dispuestas en un patrón nodular, con actividad mitótica baja; La población celular fue positiva en los estudios de inmunohistoquímica para los marcadores ALK (B) y para actina del músculo liso (C). Lo que concluyó el diagnóstico de tumor miofibroblástico inflamatorio.

Respecto al tumor miofibroblástico inflamatorio, este es una neoplasia de células fusiformes miofibroblásticas histológicamente distintiva, de malignidad limítrofe, clásicamente con una mezcla de células plasmáticas y linfocitos; clínicamente los pacientes pueden presentar síntomas constitucionales (fiebre, sudores nocturnos, pérdida de peso), epidemiológicamente afecta a distintos grupos etarios, pero es más común en niños y adultos jóvenes, sin predilección por algún sexo. ⁽¹¹⁾

El diagnóstico diferencial incluye otras lesiones de tejidos blandos que incluyen el tumor del estroma gastrointestinal (GIST), leiomioma, schwannoma, perineuroma intestinal, y otros tumores benignos de la vaina nerviosa; por lo cual son mandatorios los estudios de inmunohistoquímica que permitan una adecuada caracterización, los cuales incluyen tinción positiva para vimentina (difusa y fuerte), actina de músculo liso, actina específica de músculo, calponina, desmina (variable), queratina (40-70%) y ALK1 (citoplasmática difusa 40 - 60%). ⁽¹²⁾

El diagnóstico suele ser incidental tras una vaga sintomatología que varía de acuerdo al sitio de afectación; los estudios radiológicos son inespecíficos, la ecografía puede mostrar masas hipocóicas o hiperecóicas con bordes mal o bien definidos, aumento de la vascularización en los estudios Doppler; mientras que la TC puede mostrar una lesión homogénea o heterogénea con realce variable en las adquisiciones tardías debido a la fibrosis, calcificación en el 15-25% de las lesiones pulmonares en niños, mientras que es rara en pacientes adultos; la resonancia magnética muestra una intensidad de señal baja en las secuencias ponderadas en T1 y T2. ⁽¹³⁾

El tratamiento es principalmente quirúrgico, la resección en bloque de la lesión con márgenes negativos es el principal objetivo, sin embargo, existen tratamientos alternativos para pacientes no candidatos a manejo quirúrgico primario por comorbilidades, tamaño tumoral excesivo, enfermedad recurrente o presencia de metástasis, los cuales incluyen inhibidores específicos de la tirosina cinasa, como crizotinib. ⁽¹⁴⁾

El pronóstico de estos pacientes posterior al tratamiento generalmente es bueno, pero hasta un 35% puede recurrir y se han informado casos raros de metástasis a distancia; los factores adversos incluyen localización intraabdominal, variante epiteloide, tamaño tumoral mayor a 8 cm; la presencia de contenido intercelular mixoide, células ganglionares y células gigantes, la aparición de necrosis e invasión linfovascular, la alta actividad mitótica, el aumento de la celularidad y el borde infiltrante, que empeoran el pronóstico después de la resección del tumor; sin embargo, la mutación de la ALK confiere un menor riesgo de reaparecer y presenta un comportamiento menos agresivo. ⁽¹⁵⁾

CONCLUSIONES

En el contexto de un cuadro clínico de dolor abdominal asociado a síntomas gastrointestinales obstructivos, el

enfoque en pacientes de edad avanzada debe basarse en la sospecha diagnóstica, en la cual siempre deben considerarse las causas de origen neoplásico, hacer un adecuado algoritmo en el que se utilicen adecuadamente los estudios de imagen y los exámenes de laboratorio.

El tratamiento va a basarse en la causa subyacente y este puede ser de tipo expectante, médico o quirúrgico; en caso de una etiología neoplásica, el manejo de elección es el quirúrgico, se recomienda la resección completa de la lesión, con márgenes negativos, y de ser necesario realizar un adecuado vaciamiento ganglionar.

Conflicto de intereses: Los autores no declaran conflicto de intereses.

Financiación: La presente investigación no recibió becas específicas provenientes de agencias del sector público, del sector comercial o sin ánimo de lucro.

Responsabilidades éticas: 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 declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

REFERENCIAS

1. Lu T, Chng YM. Adult intussusception. *Perm J*. 2015; 19 (1): 79-81. DOI: 10.7812/TPP/14-125
2. Arslan E, Çağlayan K, Sipahi M, Banlı O, Gündoğdu F, Şahin S. Intussusception of the bowel in adults: two different cases. *Turk J Surg*. 2015; 33 (3): 217-219. DOI: 10.5152/UCD.2015.3001
3. Yehouenou Tessi RT, El Haddad S, Oze KR, et al. A Child's Acute Intestinal Intussusception and Literature Review. *Glob Pediatr Health*. 2021; 8: 2333794X211059110. DOI: 10.1177/2333794X211059110
4. de Lambert G, Guerin F, Franchi-Abella S, Boubnova J, Martelli H. Invaginación intestinal aguda en lactantes y niños. *EMC – Pediatría*. 2014; 49 (3): 1-10. Doi:10.1016/s1245-1789(14)68094-x
5. Potts J, Al Samaraee A, El-Hakeem A. Small bowel intussusception in adults. *Ann R Coll Surg Engl*. 2014; 96 (1): 11-14. DOI: 10.1308/003588414X13824511650579
6. Lindor RA, Bellolio MF, Sadosty AT, Earnest F 4th, Cabrera D. Adult intussusception: presentation, management, and outcomes of 148 patients. *J Emerg Med*. 2012; 43 (1): 1-6. DOI: 10.1016/j.jemermed.2011.05.098
7. Kouladouros K, Gärtner D, Münch S, Paul M, Schön MR. Recurrent intussusception as initial manifestation of primary intestinal melanoma: Case report and literature review. *World J Gastroenterol*. 2015; 21 (10): 3114-3120. DOI: 10.3748/wjg.v21.i10.3114
8. Honjo H, Mike M, Kusanagi H, Kano N. Adult intussusception: a retrospective review. *World J Surg*. 2015; 39 (1): 134-138. DOI: 10.1007/s00268-014-2759-9

9. Panzera F, Di Venere B, Rizzi M, et al. Bowel intussusception in adult: Prevalence, diagnostic tools and therapy. *World J Methodol.* 2021; 11 (3): 81-87. DOI: 10.5662/wjm.v11.i3.81
10. Shenoy S. Adult intussusception: A case series and review. *World J Gastrointest Endosc.* 2017; 9 (5): 220-227. DOI: 10.4253/wjge.v9.i5.220
11. Andrade NN, Mathai PC, Kamil R, Aggarwal N. Inflammatory myofibroblastic tumour: A case report and a clinical update. *J Oral Biol Craniofac Res.* 2017; 7 (3): 219-222. DOI: 10.1016/j.jobcr.2017.09.005
12. Oeconomopoulou A, de Verney Y, Kanavaki K, Stefanaki K, Pavlakis K, Salakos C. Inflammatory myofibroblastic tumor of the small intestine mimicking acute appendicitis: a case report and review of the literature. *J Med Case Rep.* 2016; 10: 100. DOI: 10.1186/s13256-016-0880-0
13. Cantera JE, Alfaro MP, Rafart DC, Zalazar R, Muruzabal MM, Barquín PG, Pérez IV. Inflammatory myofibroblastic tumours: a pictorial review. *Insights Imaging.* 2015; 6 (1): 85-96. DOI: 10.1007/s13244-014-0370-0.
14. Ogata M, Hatachi Y, Ogata T, Satake H, Imai Y, Yasui H. Effectiveness of Crizotinib for Inflammatory Myofibroblastic Tumor with ALK mutation. *Intern Med.* 2019; 58 (7): 1029-1032. DOI: 10.2169/internalmedicine.1640-18
15. Siemion K, Reszec-Gielazyn J, Kisluk J, Roszkowiak L, Zak J, Korzynska A. What do we know about inflammatory myofibroblastic tumors? – A systematic review. *Advances in Medical Sciences.* 2022; 67: 129–138. DOI: 10.1016/j.advms.2022.02.002

Correspondencia:

Pablo Salomón Montes-Arcón,
Universidad de Cartagena. Cartagena, Colombia.
Teléfono de contacto: +57 3104550310.
Dirección postal: Manzana B Lote 21 Urbanización Villa Sandra
2; Cartagena, Bolívar; Cod. postal 13004
E-mail: pmontesarcon@gmail.com