



Obstrucció aguda del budell prim per limfangioma intestinal

**Ramon Vilallonga,^{1,2*} Eloi Espin,¹
Vicenç Martínez Vecina,² Manuel Armengol¹**

¹Servei de Cirurgia General i de l'Aparell Digestiu, Hospital de la Vall
d'Hebron, Barcelona. ²Societat Andorrana de Ciències, Andorra

*Correspondència: vilallongapuy@hotmail.com. Tel. 93-4890000. Fax 93-4894438

Els limfangiomes del tracte gastrointestinal són una entitat rara, més freqüents en nens. Presentem un cas inusual d'obstrucció del budell prim en una noia jove de 22 anys d'edat.

Cas clínic

Una pacient de 22 anys d'edat sense antecedents patològics d'interès va ser visitada a urgències per causa d'un dolor abdominal de tres dies d'evolució, de característiques còliques, difós i sense febre. A l'exploració física, destacava un abdomen distès i globulós amb percussió timpànica. Es va fer una radiografia de l'abdomen, per mitjà de la qual es van poder visualitzar les nanses de l'intestí prim pneumatitzades i dilatades, sense cap altra alteració patològica. A l'anàlisi general, la pacient presentava 12.200 leucòcits amb un 87,7% de neutròfils, i amb la resta de variables analítiques dins de la normalitat.

Es va realitzar una tomografia computada abdominal i s'hi va observar una obstrucció secundària del budell prim en una extensa invaginació ileal a la fossa ilíaca dreta, sense poder-se'n evidenciar la causa. De la mateixa manera, es va observar una compressió de la vena renal esquerra i de la

porció horitzontal del duodè, a l'alçada de la pinça aortomesentèrica. La resta de l'exploració va ser normal.

La pacient va ser intervinguda d'urgència per mitjà d'una laparotomia amb incissió a la fossa ilíaca dreta. En no poder-se fer la reducció del segment invaginat, es va realitzar una resecció intestinal segmentària d'aproximadament 30 cm, amb resecció del segment invaginat.

Es va fer una anastomosi jejuno-jejunal termino-terminal. La peça de resecció intestinal tenia una longitud de 50 cm, amb una superfície serosa hemorràgica. A l'obertura de la vora antimesentèrica s'observava, en 8 cm d'un dels marges quirúrgics, una tumoració polipoide multilogulada, groguenca, de $6 \times 4,5$ cm, que ocupava el 90% de la llum intestinal. La tumoració en el tall mostrava una consistència tova i una coloració blanca-groguenca d'aspecte hematós, que afectava aparentment la submucosa i preservava la part muscular pròpia subjacent. A la zona posttumoral, que comprenia una longitud de 18 cm, s'observava la zona corresponent a la invaginació hemorràgica de parets disminuïdes de gruix i marges mal delimitats d'aspecte isquèmic, amb àrees hemorràgiques. El terç distal de la peça quirúrgica mostrava un edema mucós, sense afectació isquèmica de la paret. Els dos marges de resecció estaven lliures d'afectació isquèmica.

Histològicament, s'observava una tumoració polipoide ben delimitada de la paret intestinal propera i constituïda per vasos limfàtics amb ètasi, que s'estenien predominantment a la submucosa, i cap a la mucosa, en la qual s'observaven glàndules aïllades respectades, amb criptes ocasionals i una afectació mínima de la paret muscular pròpia superficial. Les cadenes vasculars limfàtiques estaven tapissades per endoteli pla, amb prolongacions valvulars intraluminals i amb contingut discretament acidòfil intraluminal. La tumoració estava marcadament delimitada i localitzada, i no s'observava cap limfangiectasi intestinal a la resta de l'intestí estudiat. L'estudi histològic va correspondre a un limfangioma intestinal de 6 cm, amb enteritis aguda isquèmica, secundària a la invaginació.

En el postoperatori, la pacient va tenir una evolució favorable.

Discussió

L'etiologia probable dels limfangiomes és una malformació del sistema limfàtic. La incidència d'aquests tumors és molt rara i s'estima un marge d'un entre 30.000 i un entre 100.000 ingressos hospitalaris. Solen ser tumors trobats amb més freqüència en nens, i situats, generalment, a la

regió anatòmica del coll. Histològicament, es defineixen tres tipus de limfangiomes: simple, cavernós o cístic. A la superfície de la pell se sol trobar el tipus simple. L'estroma limfoide i els vasos limfàtics dilatats solen correspondre al tipus cavernós. Aquests vasos tenen connexió amb els limfàtics adjacents. El tipus cístic sol tenir diverses estructures cístiques de mides diferents i no es comunica amb els vasos limfàtics adjacents.

Els limfangiomes són més freqüents en nens i es presenten generalment abans dels cinc anys d'edat. La relació home-dona és de 3:1. El creixement d'aquests tumors sembla ser continu, amb alguns brots més aguts que poden portar al diagnòstic, però dels quals desconexim els factors desencadenants. La manifestació clínica que donen els limfangiomes és molt variable, i depèn, essencialment, de la seva localització, de la mida o de les complicacions. La presentació en nens sol ser d'obstrucció intestinal aguda. En adults, el dolor abdominal crònic és més usual. Aquests tumors es poden presentar amb vòlvuls, signes de torsió, de peritonitis localitzada o generalitzada, de compressió mecànica extrínseca o fins i tot ascites quilosa sobrevinguda després de la fissuració del tumor, de fistulació al còlon o infecció. En la nostra pacient, la tomografia computada no va poder determinar la presència del tumor. Així doncs, només va ser útil per al reconeixement del lloc del tumor. Hi ha estudis que descriuen l'aparença del limfangioma amb ultrasonografia.

L'exèresi quirúrgica del tumor s'imposa com a única conducta lògica.

Conclusió

Els limfangiomes intestinals són, doncs, tumors rars i més freqüents en nens. Aquests tumors es presenten amb clínica d'abdomen agut. En els adults la presentació clínica sol ser de dolor abdominal crònic i acaba en un abdomen agut, generalment per obstrucció intestinal. Se sol arribar al diagnòstic per la clínica del quadre i generalment amb alguna prova d'imatge, essent la tomografia computada la més adequada per al diagnòstic. El tractament d'elecció dels limfangiomes intestinals sol ser quirúrgic, per mitjà d'exèresi de la porció afectada.

Malgrat la consideració d'entitat rara que reben els limfangiomes intestinals, s'han de tenir sempre en compte en el diagnòstic diferencial dels tumors abdominals, particularment en el cas d'obstrucció intestinal aguda.

Bibliografia

- Bliss DP Jr, Coffin CM, Bower RJ, Stockmann PT, Ternberg JL (1994) Mesenteric cysts in children. *Surgery* 115:571-577
- Campbell WJ, Irwin ST, Biggar JD (1991) Benign lymphangioma of the jejunal mesentery: an unusual cause of small bowel obstruction. *Gut* 32:1568
- Daniel S, Lazarevic B, Attia A (1983) Lymphangioma of the mesentery of the jejunum: Report of a case and a brief review of the literature. *Am J Gastroenterol* 78:726-729
- Gimeno Aranguez M, Colomar Palmer P, González Mediero I, Ollero Caprani JM (1996). Aspectos clínicos y morfológicos de los linfangiomas infantiles: Revisión de 145 casos. *An Esp Pediatr* 45:25-28
- Hanagiri T, Baba M, Shimabukuro T, et al. (1992) Lymphangioma in the small intestine: Report of a case and review of the Japanese literature. *Surg Today* 22:363-367
- Hancock BJ, St Vil D, Luks FI, Di Lorenzo M, Blanchard H (1992) Complications of lymphangiomas in children. *J Pediatr Surg* 27:220-224
- Hardin WJ, Hardy JD (1970) Mesenteric cysts. *Am J Surg* 119:640-645
- Hitoshi S, Tadashi U et al. (1998) Lymphangioma of the jejunum and mesentery presenting with acute abdomen in an adult. *J Gastroenterol* 33:107-111
- Perrot M. de, Rostan O, Morel P, Le coultre C (1998) Abdominal lymphangioma in adults and children. *Br J Surg* 85:395-397
- Saint-Laurent R, Bastien G, Beauregard P, Forgues R (1966) Lymphangiomes intra-abdominaux. *Un Méd Canada* 95:36-40
- Rainford TS (1932) Tumors of the small intestine. *Arch Surg* 25:122-177
- River L, Silverstein J, Tope JW (1956) Benign neoplasms of small intestine. *Int Abst Surg* 102:1-38
- Walker AE, Putnam TC (1973) Omental, mesenteric and retroperitoneal cysts: A clinical study of 33 new cases. *Am Surg* 178:13-19