

## Obstrucción intestinal por intususcepción como primera manifestación de enfermedad celíaca en un adulto

Francisco Dodds B<sup>1,a</sup>, Iván Aguancha S<sup>2</sup>,  
Mario Santamarina R<sup>3</sup>, Jorge Vega S<sup>1,2</sup>.

### *Celiac disease presenting as an intestinal intussusception. Report of one case*

*The usual form of presentation of celiac disease is chronic diarrhoea and deficiencies of vitamin D, vitamin K, iron and vitamin B12, due to malabsorption. Intestinal obstruction secondary to an intussusception is rare in adults and usually is a complication of carcinoma of the colon or post operative adhesions. We report a 45 year-old female consulting for diarrhoea and vomiting lasting one week and progressive abdominal bloating. A plain abdominal X ray showed air fluid levels in the small bowel and a CT scan showed an intussusception. She was operated and discharged but continued with diarrhoea. She was admitted again and a new CT scan showed three intussusceptions that were resolved with the administration of oral contrast media. Antiendomysial antibodies were positive and a celiac disease was diagnosed. After one year with a gluten free diet, the patient remains asymptomatic (Rev Méd Chile 2008; 136: 1179-82).*

**(Key words:** Celiac disease; Intestinal obstruction; Intussusception)

Recibido el 15 de mayo, 2007. Aceptado el 16 de enero, 2008.

<sup>1</sup>Cátedra de Medicina, Escuela de Medicina, Universidad de Valparaíso. <sup>2</sup>Servicios de Medicina Interna y de <sup>3</sup>Radiología, Hospital Naval Almirante Nef, Viña del Mar, Chile.

<sup>a</sup>Becado en Medicina Interna, Escuela de Medicina, Universidad de Valparaíso

La enfermedad celíaca (EC) es el trastorno inmunológico gastrointestinal más común en países occidentales<sup>1</sup>. En los adultos habitualmente se presenta como diarrea crónica, esteatorrea, meteorismo y flatulencia, debidos a la digestión bacteriana de los nutrientes no absorbidos<sup>2-5</sup>. Estos síntomas pueden asociarse a pérdida de peso, anemia, desórdenes neurológicos por defi-

ciencia de vitamina B12 y osteopenia por reducción de la absorción de vitamina D y calcio<sup>2-5</sup>.

En los niños, la EC puede debutar con una intususcepción intestinal, la cual consiste en la invaginación de la pared del intestino y su mesenterio en el lumen de un segmento de intestino adyacente<sup>6-8</sup>. En adultos la intususcepción es una patología muy infrecuente y muy rara vez es causada por EC<sup>9-11</sup>.

En este manuscrito comunicamos el caso de un adulto cuya primera manifestación clínica de EC fue una intususcepción intestinal.

*Correspondencia a:* Dr. Francisco Dodds. San Martín 540, Depto 31 B. Viña del Mar. Teléfono: 56-32-2682223. E mail: franciscododds@gmail.com

CASO CLÍNICO

Mujer de 45 años sin antecedentes mórbidos importantes. Consultó por vómitos y diarrea, sin sangre ni mucosidades, de una semana de evolución. Al examen físico destacó la presencia de ruidos hidroaéreos aumentados. Se diagnosticó una diarrea infecciosa y se prescribió ciprofloxacina oral. Cuatro días más tarde la enferma continuó con diarrea, se quejó de dolor abdominal y al examen abdominal había ruidos hidroaéreos aumentados y bazuqueo, por lo que fue hospitalizada. Evolucionó con distensión abdominal progresiva. Una radiografía simple de abdomen mostró niveles hidroaéreos en intestino delgado y una tomografía computada evidenció una doble intususcepción intestinal (Figuras 1 y 2). Fue intervenida quirúrgicamente encontrándose solamente una adherencia retrombilical, la que se seccionó. No hubo resección intestinal ni biopsias. Posterior a la cirugía cedió la diarrea y el dolor abdominal, egresando del hospital en buenas condiciones.

Días después recurrió el dolor abdominal y la diarrea, la que se acompañó de hematoquezia, por lo que fue hospitalizada nuevamente. De los exámenes de laboratorio destacó hipoalbuminemia de 26 g/L, fosfatasas alcalinas elevadas 269 U/L (VN: 50-136), hipoprotrombinemia y tiempo parcial de tromboplastina activada prolongado. Una enteroclasia realizada durante una tomografía computada mostró 3 intususcepciones, 2 proximales y una distal, que se resolvieron con la administración del medio de contraste enteral. Se sospechó una enfermedad celíaca. Los anticuerpos antiendomiso (inmunofluorescencia indirecta) fueron positivos y los anticuerpos de tipo IgA antitransglutaminasa, determinados por enzimoimmunoanálisis, fueron también positivos a un valor 21,5 AU/ml (*kit* Eurositall, valor de referencia <7,1). Una panendoscopia mostró una mucosa en empedrado en la segunda porción del duodeno. La biopsia de ella evidenció distorsión de la arquitectura con aplanamiento completo de las vellosidades intestinales, la lámina propia se encontró expandida por un infiltrado linfoplasmocitario con extensa infiltración linfocí-



Figura 1. Tomografía computada sin contraste endovenoso previo a la instilación del contraste enteral. Imagen longitudinal de la invaginación distal íleo-ileal (flecha negra). Dilatación con contenido líquido del asa ileal proximal a la invaginación (flecha blanca).



Figura 2. Tomografía computada sin contraste endovenoso previo a la instilación del contraste enteral. Imagen axial de la invaginación yeyuno-yeyunal distal. Se aprecian las paredes del asa aceptora de la invaginación (flechas blancas pequeñas), con presencia de aire en luz. En su interior, se observa presencia del asa invaginada (cabeza de flecha negra), y su mesenterio (asterisco). Se observa además, dilatación del asa proximal a la dilatación, con contenido hidroaéreo (flecha blanca grande).

taria del epitelio de revestimiento (60 linfocitos por 100 enterocitos), catalogándose en etapa IIIC según la clasificación de Marsh (Figura 3). Se prescribió dieta sin gluten y hasta la fecha, un año después, la paciente permanece asintomática. En su familia no conocen miembros afectados por esta condición.

#### DISCUSIÓN

La EC es un trastorno que habitualmente debuta en la niñez, sin embargo, en el último tiempo la frecuencia de su diagnóstico en adultos ha aumentado en forma importante. En la actualidad hasta 20% de los casos se diagnostica después de los 60 años<sup>3</sup>. Algunos enfermos han tenido síntomas desde su infancia, sin embargo la mayoría no los ha sufrido hasta cercano al momento de su diagnóstico. Las formas de presentación más frecuentes son la diarrea y la anemia por deficiencia de hierro<sup>2,3</sup>. Puede presentarse también como una anemia macrocítica por déficit de vitamina B12, coagulopatías por reducción en la disponibilidad de vitamina K, hipocalcemia por deficiencia de vitamina D y osteoporosis<sup>2,3</sup>. La EC también puede presentarse como un abdomen agudo cuando existe una perforación intestinal, complicación de un linfoma asociado, un vólvulo colónico o una intususcepción<sup>11,12</sup>. Esta última presentación con la obstrucción intestinal secundaria a ella es extremadamente infrecuente en adultos<sup>9,10,13,14</sup>. A menudo la obstrucción es intermitente<sup>13</sup>. En 9.829 ecotomografías practicadas en sujetos por sospecha de patología intestinal se encontró intususcepción en solo 32 (0,3%). De ellos solo 3 tenían una EC<sup>13</sup>. La invaginación intestinal en los adultos se observa habitualmente en pacientes con neoplasias intestinales, siendo la más frecuente el cáncer de colon y los lipomas<sup>9</sup>. Entre las causas no neoplásicas destacan las adherencias postoperatorias, enfermedad de Crohn, colitis ulcerosa y el divertículo de Meckel<sup>9,13</sup>. Una proporción cercana a 40% son idiopáticas<sup>13</sup>. Hace algunos años se asoció la intususcepción al empleo de una vacuna oral para el rotavirus (Rotashield®) en niños, lo que motivó su retiro definitivo<sup>15</sup>.

La tomografía computada permite diagnosticar las invaginaciones intestinales con facilidad, por lo

que su presencia ha dejado de ser un hallazgo exclusivo del intraoperatorio. Lo característico es la presencia de una masa de partes blandas, heterogénea, con forma de tablero de tiro al blanco o de salchicha, con un componente graso en su interior<sup>1,16</sup>. La resonancia nuclear magnética (RNM) se ha utilizado también en el diagnóstico de la EC. En un estudio practicado en 31 pacientes con EC demostrada histológicamente se encontró dilatación intestinal en 61%, aumento en el número de pliegues en 48%, anormalidad en el patrón de los pliegues en 39%, linfadenopatías en 42%, cambios en la vasculatura mesentérica en 23%, aumento en el grosor de la pared en 16% y estenosis duodenal o ascitis en 6,5%. Sólo 13% de los pacientes no tuvieron alguna anormalidad en la RNM. Al aumento en el número de los pliegues asociado a anormalidades en su patrón se le ha asignado una elevada especificidad diagnóstica<sup>17</sup>.

La paciente que comunicamos es una mujer que no tenía síntomas previos de enfermedad celiaca ni antecedentes familiares de la misma. El hallazgo inexplicado de hipoalbuminemia, alteraciones de la coagulación y fosfatasas alcalinas elevadas en una mujer delgada hizo sospechar la presencia de una patología intestinal previa favorecedora de invaginaciones intestinales múltiples. Ello motivó la determinación de marcadores serológicos y la realización de una panendoscopia con obtención de una muestra de mucosa duodenal que confirmó el diagnóstico. Recientemente se ha utilizado la cápsula endoscópica en pacientes con sospecha de enfermedad celiaca complicada (sospecha de neoplasia, dolor crónico, sangrado y deficiencia de hierro). Esta técnica ha mostrado hallazgos consistentes con enfermedad celiaca en 87% de ellos. Los más frecuentes son atrofia, fisuras y un patrón en mosaico de la mucosa<sup>18</sup>. El diagnóstico definitivo de EC clásicamente se realiza con una biopsia de duodeno en su segunda o tercera porción, que muestra alteraciones características como la ausencia de vellosidades, presencia de criptas hiperplásticas y un aumento del número de linfocitos y células plasmáticas en la lámina propia<sup>2-5</sup>. Esta paciente, que en la actualidad está asintomática, permanece en control en el policlínico de gastroenterología. Dado su mayor riesgo de neoplasias intestinales (linfoma), de presentarse alguna de las complicaciones mencionadas previamente, podrá beneficiarse de las

nuevas técnicas diagnósticas para la exploración del intestino delgado como la enteroscopia de doble balón o una endoscopia con cápsula.

Comunicamos este caso porque creemos que dada la mayor prevalencia real de esta enfermedad en la población adulta, diagnosticable fácil-

mente con marcadores serológicos de fácil obtención (anticuerpos de tipo IgA antiendomiso y antitrasglutaminasa)<sup>19,20</sup> y una alta sensibilidad y especificidad, debe pensarse en ella en los adultos con invaginación intestinal de causa no neoplásica.

#### REFERENCIAS

1. TOMEI E, DIACINTI D, MARINI M, MASTROPASQUA M, DI TOLA M, SABATELLA L ET AL. Abdominal CT findings may suggest coeliac disease. *Dig Liver Dis* 2005; 37: 402-6.
2. SHAMIR R. Advances in Celiac Disease. *Gastroenterol Clin N Am* 2003; 32: 931-47.
3. RICHARD F, CIARÁN K. Celiac sprue. *N Engl J Med* 2002; 346: 180-8.
4. JONES R, ROBINS G, HOWDLE P. Advances in celiac disease. *Curr Opin Gastroenterol* 2006; 22: 117-23.
5. GREEN P, JABRI B. Celiac disease. *Annu Rev Med* 2006; 57: 207-21.
6. FURAIKH S, ZABEN A. Recurrent small bowel intussusceptions: an uncommon presentation of celiac disease in an Arab child. *Trop Gastroenterol* 2005; 26: 38-9.
7. LÓPEZ J, GONZÁLEZ C, CARA A, FERNÁNDEZ J, ORTEGA L. Recurrent bowel intussusception and celiac disease. *An Esp Pediatr* 2000; 52: 580-2.
8. CHAK R, KEYNES W, SCHILLER K. Gluten-induced enteropathy and stagnant loop syndrome in the same patient: case report with a view. *Ann Surg* 1969; 169: 429-36.
9. HUANG B, WARSHAUER D. Adult intussusception: diagnosis and clinical relevance. *Radiol Clin N Am* 2003; 41: 1137-51.
10. COHEN M, LINTOTT D. Transient small bowel intussusception in adult celiac disease. *Clin Radiol* 1978; 29: 529-34.
11. MAKAY O, KAZIMI M, DOGANAVSARGIL B, OSMANOGLU N, YILMAZ M. Acute abdomen in adult celiac disease: An intestinal intussusception case. *Turk J Gastroenterol* 2007; 18: 103-6.
12. KOZIOL K, PRICE L. Colonic volvulus as a complication of celiac sprue. *J Clin Gastroenterol* 1990; 12: 633-5.
13. MACONI G, RADICE E, GRECO S, BEZZIO C, BIANCHI PORRO G. Transient small-bowel intussusception in adults: significance of ultrasonographic detection. *Clin Radiol* 2007; 62: 792-7.
14. COHEN M, LINTOTT D. Transient small bowel intussusception in adult coeliac disease. *Clin Radiol* 1978; 29: 529-34.
15. MUÑOZ A, ABARCA K, LUCHSINGER V, VALENZUELA T, JIMÉNEZ J. Declaración del Comité Consultivo de Inmunizaciones de la Sociedad Chilena de Infectología respecto a vacuna anti-rotavirus. *Rev Chil Infect* 2006; 23: 124-7.
16. GAYER G, APTER S, HOFMANN C, NASS S, AMITAI M, ZISSIN R ET AL. Intussusception in adults: CT diagnosis. *Clin Radiol* 1998; 53: 53-7.
17. TOMEI E, SEMELKA R, BRAGA L, LAGHI A, PAOLANTONIO P, MARINI M ET AL. Adult celiac disease: what is the role of MRI? *J Magn Reson Imaging* 2006; 24: 625-9.
18. CULLIFORD A, DALY J, DIAMOND B, RUBIN M, GREEN P. The value of wireless capsule endoscopy in patients with complicated celiac disease. *Gastrointest Endosc* 2005; 62: 55-61.
19. DIETERICH W, LAAG E, SCHOPPER H, VOLTA U, FERGUSON A, GILLETT H ET AL. Autoantibodies to tissue transglutaminase as predictors of celiac disease. *Gastroenterology* 1998; 115: 1317-21.
20. ROSTAMI K, KERCHAERT J, TIEMESSEN R. Sensitivity of antiendomysium and antigliadin antibodies in untreated celiac disease: Disappointing in clinical practice. *Am J Gastroenterol* 1999; 94: 888-94.