Úlcera solitaria de ciego como etiología poco frecuente de abdomen agudo inflamatorio quirúrgico

Solitary cecal ulcer as a rare cause of acute surgical abdomen

Alvar G. Rivera Romero , Sebastián A. Romero Núñez , Mariano Bulacio , Fernando D. Craievich

Servicio de Cirugía
General, Hospital
Misericordia del Nuevo
Siglo HMNS. Córdoba.
Argentina

Los autores declaran no
tener conflictos
de interés.

Conflicts of interest
None declared.

Correspondencia
Correspondence:
Alvar G. Rivera Romero
E-mail:
alvar.gastonrivera@
hotmail.com

RESUMEN

Las úlceras solitarias de ciego (USC) son infrecuentes y no se registran aún en la literatura de la Argentina. Existen informes de casos y pequeñas series en otros países. Son de etiología desconocida y diagnóstico diferencial amplio. En este caso se resolvió mediante una hemicolectomía derecha supra-selectiva por laparotomía de emergencia.

■ **Palabras clave:** *úlcera solitaria de ciego, úlcera inespecífica de colon, abdomen agudo inflamatorio, síndrome de fosa ilíaca derecha.*

ABSTRACT

Solitary cecal ulcers (SCUs) are rare and no cases have been published in Argentina. Few cases or series have been reported in other countries. The etiology is unknown and many other diseases must be ruled out before making the diagnosis. This case was solved with selective right hemicolectomy through laparotomy in an emergency basis.

■ **Keywords:** *solitary cecum ulcer, nonspecific colon ulcer, acute inflammatory abdomen, right iliac fossa syndrome*

Recibido | *Received*
06-07-20
Aceptado | *Accepted*
30-10-20

ID ORCID: Alvar G. Rivera Romero, 0000-0001-7028-8263; Sebastián A. Romero Núñez, 0000-0001-5062-4565; Mariano Bulacio, 0000-0002-0178-771X; Fernando D. Craievich, 0000-0003-0278-5924.

En 1832, precisamente en Limoges, Francia, el anatomista francés más destacado del siglo XIX, Jean Cruveilhier, a los 41 años describe por primera vez esta úlcera solitaria e inespecífica del colon que generalmente observaba en las necropsias¹. Barron también describió este tipo de úlceras en 1928 en su *Atlas d'anatomie et pathologie*².

La mayoría de los pacientes presentan clínicamente dolor en el cuadrante inferior derecho que simula una apendicitis aguda, como en nuestro caso³⁻⁵. Este tipo de USC puede imitar síntomas como apendicitis aguda, hemorragias digestivas, diverticulitis y carcinoma de colon; el diagnóstico por lo general se realiza por exclusión y la mayoría de las veces durante el acto quirúrgico^{6,16}.

Este artículo incorpora un análisis de datos obtenidos del estudio de una paciente del Servicio de Cirugía de nuestro hospital HMNS, que tenía USC en abril del año 2020.

Objetivos: evaluar el comportamiento actual

de una patología infrecuente del colon, a partir de un caso clínico.

Es un estudio observacional descriptivo y retrospectivo de una paciente que ha cursado un cuadro de abdomen agudo inflamatorio con una evolución de 72 horas, en el cual fue incluida una sola paciente 100% (n=1) y sus diagnósticos diferenciales. Se recogieron datos personales de la paciente: edad, antecedentes personales y familiares, tiempo de evolución del dolor, lateralidad, debido a que su diagnóstico es por exclusión. El seguimiento se realizó en consulta externa.

Paciente femenina de 57 años con antecedentes personales de hipotiroidismo, trastorno de ansiedad y cáncer de mama; consulta por dolor abdominal de 72 horas de evolución, el cual habría ido aumentando progresivamente de intensidad localizado en fosa ilíaca derecha sin correlación con su ingesta ni su hábito intestinal. Manifiesta no haberse automedicado.

Al examen físico presentaba una presión arterial en 110/60 mm Hg, frecuencia cardíaca (FC) en 100/

min, frecuencia respiratoria (FR) en 18/min, temperatura de 36,5 °C, saturación de oxígeno en 99%. Dolor localizado en fosa ilíaca derecha sin irradiación, de tipo punzante e intensidad 7/10 que aumenta a la palpación profunda. No se detectan masas ni signos de reacción peritoneal localizada o generalizada, solo signos positivos de Blumberg y Rovsing, acompañados de palidez generalizada, sin náuseas y ni vómitos.

Se realiza ecografía, objetivando en fosa ilíaca derecha (FID) dolor a la compresión, distensión de asa intestinal, de paredes edematosas, a peristáltica, con líquido libre escaso en FID y fondo de saco de Douglas (FSD). Laboratorio con ligero aumento de PCR (15,3) y una marcada disminución de hemoglobina (Hb) (9,5 g/dL) y hematocrito (Hto) (27,2%), sin leucocitosis.

La tomografía axial computarizada (TAC) multicorte abdominopélvica con contraste no se pudo realizar por falta de disponibilidad al momento del examen en nuestro hospital, en relación con un posible proceso inflamatorio. No se solicitó colonoscopia ni enema baritado para evitar complicaciones relacionadas con ambos métodos.

Se decide abordaje quirúrgico, laparotomía por incisión McBurney, en la cual se objetiva tumoración en ciego, por lo que se decide realizar colectomía derecha segmentaria con ileoascendeanastomosis laterolateral con sutura absorbible a mano de poliglactina 3-0. No se presentaron complicaciones en el acto operatorio.

Cursó el posoperatorio con buena evolución sin particularidades; alta hospitalaria al 5° día y posterior control ambulatorio. No hubo morbimortalidad en nuestro caso.

Los signos y síntomas de las UCS no son específicos, y la enfermedad no tiene signos patognomónicos, por lo que a menudo es erróneamente diagnosticada como apendicitis aguda y plastrón apendicular^{4,7}; patologías ginecológicas como endometriosis, embarazo ectópico y enfermedad pélvica inflamatoria (EPI). En el tiempo intraoperatorio es dificultoso diferenciar entre una enfermedad inflamatoria intestinal o un carcinoma de colon; por tal motivo se recomienda la resección supraselectiva de colon en este caso. De manera general se acepta que el diagnóstico preoperatorio es difícil ya que su expresión clínica sugiere más una apendicitis, neoplasia o perforación, por ser mucho más frecuentes; sin embargo, entendemos que –si es tenida en cuenta durante el ejercicio del diagnóstico diferencial a la cabecera del enfermo– en alguna ocasión se podría llegar a su diagnóstico preoperatorio. Así, vemos que en el pasado se recomendaba la hemicolectomía derecha como tratamiento que garantizara radicalidad oncológica en caso de cáncer, pero actualmente la tendencia es ser menos agresivo, realizando colectomía segmentaria selectiva, como ocurrió en esta enferma.

Se han descripto etiologías específicas de la ulceración cecal, como la infección por citomegalovirus, particularmente en individuos inmunodeprimidos, así como los medicamentos antiinflamatorios no esteroi-

des y los anticonceptivos orales⁴, y también la irritación colónica por contenido proveniente del intestino delgado y la vasculitis como causa primaria o por causa secundaria debido al uso de AINE o corticoides^{14,15}.

Además, el tratamiento quirúrgico está indicado en todos los casos en los que se encuentren signos de peritonitis, perforación o hemorragia incontrolable, así como en aquellos en los que no se pueda descartar la presencia de un carcinoma.

El estudio de anatomía patológica demuestra macroscópicamente una ulceración que se asemeja a una úlcera péptica que varía de tamaño entre 0,5 y 5 cm de diámetro, usualmente localizada en el borde antimesentérico y con una zona de transición entre el tejido sano y la zona ulcerada bien definida⁸. Los bordes son irregulares y levantados. Las úlceras crónicas se caracterizan por edema subseroso marcado que crea la apariencia de un pseudotumor y que en una etapa avanzada producen estrechez de la luz del colon. La gran mayoría de estas lesiones son solitarias, pero existen informes de lesiones múltiples. Microscópicamente, la úlcera muestra fibrosis, tejido necrótico y de granulación con abundante infiltrado inflamatorio que incluye linfocitos, células plasmáticas, fibroblastos y ocasionalmente eosinófilos. Se ha informado, en algunos casos, trombosis de la microcirculación.

En el estudio anatomopatológico se observa en ciego, adyacente a válvula ileocecal, una lesión bien delimitada, ulcerada a nivel central, de bordes sobreelevados, de 2,5 cm de diámetro por 1 cm de profundidad (Fig. 1). Al microscopio se objetivan marcado edema submucoso y de pared, con intenso infiltrado inflamatorio linfoplasmocitario, en sectores, en acúmulos, algunos esbozando centros germinales, abundantes polimorfonucleares (PMN) neutrófilos y eosinófilos; vasos sanguíneos congestivos, algunos dilatados, y extravasación eritrocitaria. Se reconocen, además, en áreas, ocasionales trombos en la microcirculación y, en sectores, hipertrofia de la capa muscular (Fig. 2).

Se observan hallazgos histomorfológicos vinculables a úlcera cecal solitaria con cambios inflamatorios agudos inespecíficos, límites quirúrgicos libres de lesión y apéndice cecal con cambios inflamatorios mínimos.

Esta patología idiopática no tiene predilección sexual, aunque en algunos estudios se ha descripto una preponderancia masculina de 2:1 y una aproximada del 50% de todas las úlceras colónicas solitarias¹⁴.

Las úlceras solitarias se localizan más frecuentemente en el ciego (44%) y en el colon transverso en un (25%)^{9,10}. Y la más alta incidencia en estos se encuentra entre los 40 y los 60 años¹⁹; sin embargo, puede presentarse a cualquier edad.

En conclusión, la úlcera benigna del ciego es una patología infrecuente, de difícil diagnóstico clínico y que en la mayoría de los casos requiere tratamiento quirúrgico^{17,18}. El recomendado ha sido la resección del segmento afectado o, en su defecto, una hemicolectomía en los casos más complicados¹¹⁻¹³.

■ FIGURA 1

A, B y C, lesión bien delimitada, ulcerada a nivel central, de bordes sobreelevados, de 2,5 cm de diámetro por 1 cm de profundidad (flecha).

■ FIGURA 2

Microfotografías de la pieza quirúrgica (5x, hematoxilina y eosina). A, vasos sanguíneos congestivos (flecha). B, vasos sanguíneos congestivos, algunos dilatados con trombos en su interior (flecha). C, marcado edema submucoso.

■ ENGLISH VERSION

In 1832, precisely in Limoges, France, Jean Cruveilhier, the most prominent French anatomist of the 19th century, described for the first time this solitary and non-specific ulcer of the colon which he usually observed in necropsies when he was 41 years old¹. Barron also described this type of ulcers in his *Atlas d'anatomie et pathologie* in 1928².

Most patients present right lower quadrant pain mimicking an acute appendicitis, as in our case³⁻⁵, or symptoms suggestive of gastrointestinal bleeding, diverticulitis and colorectal cancer. The diagnosis is usually made after excluding other diseases and during surgery^{6,16}.

In this article we analyze the case of a patient treated in the department of surgery of HMNS in April 2020.

Objective: to describe a case report and analyze the current status of an uncommon disease of the colon.

In this observational, descriptive and retrospective study we report the case of a patient with acute abdomen and symptoms suggestive of inflammation lasting 72 hours. The differential diagnoses are discussed. The patient's personal data collected were age, personal and family history, time of pain progression and laterality, since the diagnosis is made by exclusion. The patient was followed-up in the outpatient clinic.

A 57-year-old female patient with a history of hypothyroidism, anxiety disorder and breast cancer sought medical care due to abdominal pain in the right iliac fossa that started 72 hours before and became

progressively more severe. The pain was not associated with eating or bowel habits. She denied self-medication.

On physical examination blood pressure was 110/60 mm Hg, heart rate (HR) 100/min, respiratory rate (RR) 18/min, temperature 36.5°C, and oxygen saturation 99%. She had stabbing, non-radiating pain in the right iliac fossa 7/10 in intensity that increased on deep palpation. There were no masses or signs of rebound tenderness, and Blumberg sign and Rovsing sign were positive; she had generalized pallor but did not present nausea and vomiting.

The abdominal ultrasound showed a distended bowel loop with mural edema, loss of peristalsis and small amount of free fluid in the right iliac fossa (RIF) and Douglas' pouch. The laboratory tests revealed increased CRP levels (15.3), low hemoglobin (Hb) (9.5 g/dL) levels and hematocrit (27.2%), with normal white blood cell count.

Contrast-enhanced computed tomography (CT) scan was not available in our hospital at the time of consultation to rule out an inflammatory process. We did not order colonoscopy or lower gastrointestinal series to avoid the complications associated with both procedures.

We decided to perform laparotomy via McBurney's incision. As tumor was found in the cecum, we decided to proceed with segmental right colectomy with hand-sewn side-to-side ileocolostomy with absorbable polyglactin 3-0. There were no intraoperative complications.

The postoperative period was uneventful; the patient was discharged on postoperative day 5 and was followed-up in the outpatient clinic. There was no morbidity or mortality in our case.

The signs and symptoms of SCUs are nonspecific, and the disease has no pathognomonic signs. It is often misdiagnosed as acute appendicitis and appendiceal mass^{4,7}, and gynecologic disorders such as endometriosis, ectopic pregnancy, and pelvic inflammatory disease (PID). It is difficult to differentiate from inflammatory bowel disease and colorectal carcinoma intraoperatively; for this reason, selective segmental resection is recommended in this case. The preoperative diagnosis is usually difficult, since the clinical presentation suggests appendicitis, tumor or perforation, which are more common diseases. Nevertheless, we understand that if this condition is considered during the bedside differential diagnosis, a preoperative diagnosis may be possible on some occasions. In the past, right hemicolectomy was recommended to guarantee radical oncologic treatment in case of cancer, but nowadays the tendency is to be less aggressive and to perform selective segmental colectomy, as in the case of this patient.

Specific etiologies of cecal ulcers include cytomegalovirus infection, particularly

in immunocompromised individuals, use of non-steroidal anti-inflammatory drugs (NSAIDs) and oral contraceptives⁴, colon irritation cause by contents from the small intestine and primary or secondary vasculitis due to the use of NSAIDs or corticosteroids^{14,15}.

Surgery is indicated when there are signs of peritonitis, perforation or uncontrolled bleeding and when cancer cannot be ruled out.

On gross examination, the pathology test demonstrates an ulceration resembling a peptic ulcer with a variable size between 0.5 and 5 cm in diameter, usually located on the antimesenteric border and with a well-demarcated transition zone between the normal tissue and the ulcer⁸. Edges are irregular and raised. Chronic ulcers show marked subserosal edema creating a false tumor-like appearance. Older lesions produce narrowing of the lumen. Most lesions are solitary, but multiple ulcers have been reported. Microscopically the ulcer shows fibrosis, necrotic granulation tissue with underlying inflammatory cells including lymphocytes, plasma cells, fibroblasts and occasionally eosinophils. Thrombosis in the microcirculation has also been mentioned.

The resected specimen shows a well-demarcated lesion with central ulceration and raised edges, 2.5 cm in diameter and 1 cm deep, is observed in the cecum, adjacent to the ileocecal valve (Fig. 1). Microscopically, there is marked submucosal and mural edema, with foci of intense inflammatory infiltrate of lymphocytes and plasma cells in clusters, some forming germinal centers, with abundant polymorphonuclear neutrophils (PMN) and eosinophils; congestive blood vessels, some of them dilated, and extravasation of red blood cells. There are areas with thrombosis in the microcirculation and hypertrophy of the muscle layer (Fig. 2).

These findings are suggestive of solitary cecal ulcer with nonspecific acute inflammatory changes, surgical margins free of lesions and vermiform appendix with minimal inflammatory changes.

Solitary cecal ulcer is an idiopathic disease with no sex predilection, although some studies have reported a 2:1 male predominance and that approximately 50% of all colonic ulcers are solitary¹⁴.

Solitary ulcers are most commonly located in the cecum (44%) and in the transverse colon (25%)^{9,10}. The peak incidence is between 40 and 60 years¹⁹; but can occur at any age.

In conclusion, benign ulcer of the cecum is an uncommon condition that is difficult to diagnose clinically and in most cases requires surgical treatment^{17,18}. Segmental resection is the recommended approach but hemicolectomy may be indicated in more complicated cases¹¹⁻¹³.

■ FIGURE 1

A, B and C, well-demarcated lesion with central ulceration and raised edges, 2.5 cm in diameter and 1 cm in depth (arrow).

■ FIGURE 2

Microphotography of surgical specimen (5x, hematoxylin and eosin). A, congested blood vessels (arrow). B, congested blood vessels, some are dilated, with areas of thrombosis (arrow). C, marked submucosal edema.

Referencias bibliográficas /References

- Shallman RW, Kuehner M, Williams GH, Sajjad S, Sautter R. Benign cecal ulcers: spectrum of disease and selective management. *Dis Colon Rectum*. 1985; 28:732-7.
- Mark H, Ballinger W. Nonspecific ulcer of the colon. Report of a case and review of 51 cases from literature. *Am J Gastroenterol*. 1964; 41: 266-91.
- Ateş KB, Şahin T, Gürkaynak G, Boyacıoğlu S. İdiyopatik çekum ülseri. *Türkiye Klinikleri J Med Sci*. 1991; 11:77-80.
- Chi KD, Hanauer SB. Úlcera cecal solitaria benigna: reporte de un caso y revisión de la literatura. *Dig Dis Sci*. 2003; 48: 2207-12.
- Cha JM, Lee JI, Choe JW, Lee SH, Kim KY. Informe de un caso de úlcera cecal idiopática que imita el cáncer cecal. *Dig Dis Sci*. 2008; 53: 3259-62.
- Barlow D. Simple ulcers of the cecum, colon, and rectum. *Br J Surg*. 1941; 28: 575-81.
- Shah S, Sangwan P, Wongkar M, Patel N, Bajwa Q, Mehta P, y col. Úlcera cecal solitaria: un caso-informe y revisión de literatura. *Oncol Gastroenterol Hepatol Rep*. 2013; 2: 4-7.
- Ong J, Lim KH, Lim JF, Eu KW. Síndrome de úlcera cecal solitaria: nuestra experiencia con esta afección benigna. *Dis Colorrectal*. 2011; 13:786-90.
- Barlow D. Simple ulcers of the cecum, colon, and rectum. *Br J Surg*. 1941; 28: 575-81.
- Smithwick W, Anderson RP, Ballinger WF. Nonspecific ulcer of the colon. *Arch Surg*. 1968; 97:133-8.
- Ona FV, Allende HD, Vivenzio R, Zaky DA, Nadaraja N. Diagnosis and management of nonspecific colon ulcer. *Arch Surg*. 1982; 117: 888-94.
- Mahoney T, Bubrick MP, Hitchcock CR. Nonspecific ulcers of the colon. *Dis Colon Rectum*. 1978; 21: 623-6.
- Lipton S, Reisman E. Simple ulcer of the cecum. *Ann Surg*. 1951; 134:279-81.
- Poggi Machuca L, Tagle Arróspide M, Cedrón Cheng H, Ibarra Chirinos O, Camacho Zacarías, López Lasteros F. Úlcera cecal idiopática: reporte de un caso - Clínica Angloamericana. Lima, Perú. *Rev Gastroenterol (Perú)*. 2013; 33 (4). Lima oct./dic. 2013 versión impresa ISSN 1022-5129.
- Cohen GS, Shanahan C M. Benign Solitary Cecal Ulcer Syndrome *Am J Gastroenterol*. 2020; 115(3): 317. doi: 10.14309/ajg.0000000000000347.
- Bahar Büşra Özkan, Kadri Güleşçi , Nazan Aksoy, Yüksel Altnel. How Can We Diagnose Pre-malignant Solitary Cecal Ulcer? *Turk J Colorectal Dis*. 2018; 28:37-9. DOI: 10.4274/tjcd.96658.
- Sala C, Mariani P, Siboni S, Piga S, Tagliabue F, Spinelli L, Novellino L. Surgical diagnosis of idiopathic cecal ulcer: presentation of two clinical cases. *Int J Colorectal Dis*. 2016; 31:703-4. DOI 10.1007/s00384-015-2192-z.
- Bhattani MK, et al. Isolated Nonspecific Colonic Ulcer: A Case Report From a Tertiary Care Hospital in Pakistan. *Cureus* 2019; 11(7):e5255. DOI 10.7759/cureus.5255.
- Ong J, Lim KH, Lim JF, Eu KW. Síndrome de úlcera cecal solitaria: nuestra experiencia con esta enfermedad benigna. *Enfermedad Colorrectal*. 2011; 13:786-90.