

6. Cheung AN, Ng IO. Cytomegalovirus infection of the gastrointestinal tract in non-AIDS patients. *Am J Gastroenterol.* 1993;88:1882–6.
7. Keates J, Lagahee S, Crilley P, Haber M, Kowalski TCMV. enteritis causing segmental ischemia and massive intestinal hemorrhage. *Gastrointest Endosc.* 2014;53:355–9.
8. Fry L, Carey E, Shiff A, Heigh R, Sharma V, Post J, et al. The yield of capsule endoscopy in patients with abdominal pain or diarrhea. *Endoscopy.* 2006;38:498–502.
9. May A, Manner H, Schneider M, Ipsen A, Ell C. Prospective multicenter trial of capsule endoscopy in patients with chronic abdominal pain, diarrhea and other signs and symptoms (CEDAP-Plus Study). *Endoscopy.* 2007;39:606–12.

Pedro Magalhães-Costa^{*1}, Miguel Bispo, Cristina Chagas

Gastroenterology Department, Hospital Egas Moniz, Centro Hospitalar Lisboa Ocidental, Rua da Junqueira 126, 1349-019 Lisboa, Portugal

* Corresponding author.

E-mail address: pmagalhaescosta@gmail.com (P. Magalhães-Costa).

¹ Pedro Magalhães-Costa is the author guarantor.

<http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2015.04.004>

Pioderma gangrenoso periestomal tras adenocarcinoma de recto en el contexto de enfermedad de Crohn de localización colónica y perianal compleja



Peristomal pyoderma gangrenosum after rectal adenocarcinoma in the context of colonic and complex perianal Crohn's disease

El pioderma gangrenoso (PG) representa la segunda manifestación extraintestinal cutánea más frecuente de la enfermedad inflamatoria intestinal (EII) (1-3% de casos). Más frecuente en colitis ulcerosa (CU) (5-12%), que en enfermedad de Crohn (EC) (1-2%), 2 recientes trabajos multicéntricos retrospectivos italiano y español parecen señalar un cambio de tendencia^{1,2}. La variante periestomal (PGP), es sin duda una de las complicaciones más temidas de cuantas afectan a un estoma quirúrgico. Probablemente infradiagnosticado, supone un 10-15% del total de localizaciones de pioderma. Su rápido reconocimiento es clave para implementar de forma precoz medidas terapéuticas en un contexto multidisciplinar. Notificamos un caso de difícil y peculiar manejo por un doble motivo: su gravedad y refractariedad, y la contextualización en un ámbito de neoplasia reciente que ocasionó un dilema terapéutico.

Mujer de 43 años de edad actual diagnosticada en 1993 de EC de localización colónica (afectación de recto y colon izquierdo) y perianal según criterios estandarizados (A2L2B1p). Desde el año 2000 inicia inmunosupresión con azatioprina por corticodependencia. A partir de 2004 la enfermedad perianal se torna compleja (fistula rectovaginal más varias fistulas transesfinterianas altas), por lo que a inicios de 2005 se asocia infliximab según pauta de inducción y mantenimiento habitual precisando intensificación máxima (acortamiento de intervalo a 4 semanas) a partir del segundo año de tratamiento. El tratamiento médico se combina con múltiples intervenciones quirúrgicas (drenaje de abscesos, sedalización de trayectos fistulosos y colgajos de avance para la fistula rectovaginal). La evolución no es satisfactoria con limitación severa de la calidad de vida, estenosis rectal y abscesos perianales de repetición. Es por ello, que a finales de 2012 se plantea a la paciente

colostomía terminal definitiva y hemicolectomía izquierda con proctectomía por refractariedad a tratamiento médico-quirúrgico máximo (la colonoscopia con toma de biopsias de estenosis rectal de inicios de 2012 no demostraba neoplasia). La paciente no contempló en primera instancia dicha opción y prefirió agotar otras opciones solicitando inclusión en ensayo clínico de inyección intralesional de células madre. En la colonoscopia previa del protocolo de inclusión en dicho ensayo (junio 2013) se biopsia recto inferior con resultado histológico de adenocarcinoma.

A finales de julio de 2013 se realiza hemicolectomía izquierda y resección abdominoperineal con confección de colostomía definitiva con colon transversal distal presentando 2 complicaciones postoperatorias inmediatas: infección y dehiscencia parcial de las suturas perineal y de la pared vaginal. La pieza quirúrgica evidenciaba un segmento de intestino grueso con severa afectación por EC con extensa ulceración e inflamación transmural. A nivel rectal, adenocarcinoma moderadamente diferenciado de 2 cm con componente mucinoso de más del 50% que infiltraba la capa muscular sin alcanzar grasa perirrectal. Los márgenes quirúrgicos no estaban afectados, así como ningún ganglio (pT2N0MX). La TC abdominopélvica no reveló afectación a distancia.

En septiembre de 2013 aparece lesión periestomal ulcerada de grandes dimensiones, de bordes violáceos y anfractuosa, que rodea en su totalidad al estoma provocando dolor local intenso, retracción y compromiso de su funcionalidad, compatible con PGP (fig. 1). Las biopsias de la lesión fueron compatibles con PGP y los cultivos tomados de la lesión negativos.

Tras la evaluación conjunta por dermatólogo, cirujano, estomaterapeuta y gastroenterólogo optamos por un manejo integral y secuencial.

Como parte importante del tratamiento, se atendió a la optimización del estado nutricional y control del dolor producido por el pioderma según escala de la OMS.

El manejo local en la unidad de estomaterapia consistió en la limpieza de ulceraciones con salino estéril bajo anestesia local, aplicación de agentes antibacterianos (peróxido de hidrógeno) y la colocación de apósitos absorbentes hidrocoloides (carboximetilcelulosa y película de poliuretano).

El tratamiento médico local se inició en octubre de 2013 con corticoides tópicos (clobetasol propionato 0,05%, 2 aplicaciones/día) objetivándose a las 2 semanas ausencia de mejoría de las lesiones, por lo que se cambió a tacrolimus



Figura 1 Pioderma gangrenoso periestomal antes de iniciar el tratamiento con infliximab.

tópico (pomada 0,3%, 2 aplicaciones/día). Tras un mes de tratamiento sin respuesta y con escasa tolerabilidad de la paciente se decidió iniciar tratamiento sistémico.

El tratamiento sistémico comenzó en diciembre de 2013 con corticoides orales a dosis de 1 mg/kg/día durante un mes. Al no evidenciar mejoría clínica, iniciamos a mediados de enero 2014 ciclosporina oral a dosis de 5 mg/kg/día junto con un descenso paulatino en la pauta de corticoides. En febrero de 2014 tras una respuesta muy discreta y transitoria del pioderma al tratamiento con ciclosporina oral se plantea como opción tratamiento biológico con infliximab.

Tras consensuar con su oncólogo (adenocarcinoma rectal bien diferenciado estadio I) y la paciente (gran deterioro de la calidad de vida, importante impacto psíquico y compromiso del fracaso de la colostomía) se decide tratamiento con infliximab previa actualización de estudio previo anti-TNF alfa. Se informó a la paciente de la posibilidad potencial de recurrencia de la enfermedad oncológica y esta aceptó la relación beneficio-riesgo. Se introdujo infliximab a dosis habitual de 5 mg/kg según esquema de inducción habitual (0, 2 y 6 semanas) observándose mejoría progresiva de la lesión hasta prácticamente desaparición tras la tercera infusión (fig. 2), decidiéndose tratamiento de mantenimiento cada 8 semanas durante 3 meses más, pudiendo retirar el tratamiento biológico y encontrándose sin lesiones a las 12 semanas de iniciar el tratamiento (fig. 3).

Como se indicó en la introducción, el PGP es una complicación invalidante, infrecuente y a menudo infra-diagnosticada que exige una aproximación multidisciplinar.



Figura 2 Mejoría lesional 6 semanas después de iniciar el tratamiento con infliximab.

Se estima que afecta al 2-4,3% de pacientes con EII en los que se confecciona un estoma quirúrgico (en contraposición al 0,6% para estomas por todas las causas). De causa desconocida, una respuesta inmune alterada parece ser fundamental en su génesis. Afecta más al sexo femenino con una distribución etaria mayoritaria entre la segunda y quinta década. Aparece más en ileostomías (70%) frente a colostomías (30%); como es el caso de la paciente que presentamos). Su aparición sigue 2 patrones fundamentales: inmediato a la creación de la ostomía (dentro de la primera semana, más propio de la CU) y otro más subagudo en un período medio de 2 meses (más característico de la EC)^{3,4}.

Si bien hay autores que señalan una frecuencia superior de la localización periestomal en EC sobre CU, no hay consenso sobre tal aseveración^{3,4}.

El PGP no es patrimonio del estoma quirúrgico en el contexto de la EII, habiéndose descrito casos en neoplasias, diverticulitis o disfunciones neurológicas^{3,4}. Un reciente estudio caso-control con una reducida muestra de pacientes con EII, ha señalado con las limitaciones del trabajo, que los factores de riesgo de aparición de PGP serían un IMC elevado, sexo femenino y otras alteraciones inmunes asociadas⁵. En nuestro caso coexisten la presencia de una EC y el sexo femenino.

El diagnóstico es fundamentalmente clínico (lesiones periestomales pustulares inicialmente, que se ulceran y se tornan dolorosas, de márgenes anfractuados y eritemato-violáceos, con lechos necróticos que tienden a confluir). La



Figura 3 Cicatrización completa de las lesiones a las 12 semanas del inicio del tratamiento.

histología no es imprescindible pero recomendable para la exclusión de otras entidades y se caracteriza por una infiltración masiva de neutrófilos sin infección microbiológica.

El tratamiento debe iniciarse con celeridad tras el diagnóstico, y engloba una vertiente de manejo general (control del dolor, del estado nutricional y corrección de anemia si existe), una local y otra sistémica debiendo ser llevado a cabo de forma multidisciplinar por gastroenterólogo, dermatólogo, cirujano y estomaterapeuta.

El aspecto local del tratamiento pasa por la limpieza y desbridamiento de las lesiones ulceradas, aplicación de dispositivos colectores adecuados y creación de un entorno que favorezca la aplicabilidad del tratamiento local que se decida.

Dentro de los tratamientos locales, son los corticoides tópicos los más utilizados mediante inyecciones intralesionales o apósitos oclusivos. Tacrolimus tópico parece ser superior a los corticoides en PGP de más agresividad y tamaño. En nuestro caso su aplicabilidad fue lastrada por el dolor intenso de la paciente a la manipulación. Salvo casos muy excepcionales no se recomienda reubicar el estoma por el elevado riesgo de reaparición.

En caso de refractariedad a las terapias locales y tópicas, curso rápido y agresivo de las lesiones, o actividad de la enfermedad subyacente hay que plantear tratamiento sistémico. No hay trabajos prospectivos de calidad para recomendar pautas establecidas de tratamiento sistémico. Los esteroides sistémicos son el tratamiento que en la literatura se ha mostrado efectivo con mayor consistencia en

este contexto. Suelen emplearse a dosis de 1 mg de prednisona/kg/día con reducción de la dosis cada 2 semanas. En caso de que se produzcan efectos secundarios no asumibles, corticodependencia o refractariedad al tratamiento se opta por agentes de segunda línea. La alternativa más usada en caso de refractariedad a esteroides es la ciclosporina a dosis de 3-5 mg/kg/día durante un mes, habiendo demostrado su efectividad en casos aislados y pequeñas series de casos. Bien con la intención de ahorrar esteroides, bien en monoterapia otros inmunosupresores se han utilizado en el tratamiento de PGP: azatioprina, micofenolato mofetilo, dapsona, minociclina, metotrexato y talidomida con eficacia variable⁶⁻⁹.

Por último, las terapias biológicas se han añadido al arsenal terapéutico de esta entidad (mayoritariamente anti-TNF: infliximab, adalimumab, certolizumab y etanercept) y anecdóticamente se ha descrito efectividad de ustekinumab (anti-IL12 y anti-IL23)⁶⁻⁹.

En nuestro caso concurrían 2 hechos: la agresividad del pioderma periestomal con importante limitación de la calidad de vida y dolor crónico invalidante, y la neoplasia colorrectal recién diagnosticada y tratada. Por ello nuestra aproximación fue secuencial, intentando no recurrir al tratamiento biológico hasta al menos agotar el tratamiento local, los corticoides sistémicos y un inmunosupresor (ciclosporina). Hay una carencia de información en cuanto al período de ventana de seguridad hasta la reintroducción de un tratamiento biológico en tumores sólidos. Algunas sociedades hablan de 10 años libres de enfermedad¹⁰. Asimismo, y en los casos donde no existan otras alternativas terapéuticas, tampoco hay evidencia de calidad sobre la utilización del biológico en monoterapia o asociado a un inmunosupresor. En nuestro caso, dado el escaso periodo ventana desde el diagnóstico de la neoplasia hasta la introducción del biológico y la brevedad hasta la consecución de la respuesta, la asociación de un inmunomodulador no se planteó.

Bibliografía

1. Zippi M, Corrado C, Pica R, Avallone EV, Cassieri C, de Nitto D, et al. Extraintestinal manifestations in a large series of Italian inflammatory bowel disease patients. *World J Gastroenterol.* 2014;20:17463-7.
2. Argüelles-Arias F, Castro-Laria L, Lobatón T, Aguas-Peris M, Rojas-Feria M, Barreiro-de Acosta M, et al. Characteristics and treatment of pyoderma gangrenosum in inflammatory bowel disease. *Dig Dis Sci.* 2013;58:2949-54.
3. McGarity WC, Robertson DB, McKeown PP. Pyoderma gangrenosum at the parastomal site in patients with Crohn's disease. *Arch Surg.* 1984;119:1186-8.
4. Uchino M, Ikeuchi H, Matsuoka H, Bando T, Takahashi Y, Takesue Y, et al. Clinical features and management of parastomal pyoderma gangrenosum in inflammatory bowel disease. *Digestion.* 2012;85:295-301.
5. Wu X, Mukewar S, Kiran RP, Remzi FH, Hammel J, Shen B. Risk factors for peristomal pyoderma gangrenosum complicating inflammatory bowel disease. *J Crohn's Colitis.* 2013;7:e171-7.
6. Lyon CC, Smith AJ, Beck MH, Wong GA, Griffiths CE. Parastomal pyoderma gangrenosum: Clinical features and management. *J Am Acad Dermatol.* 2000;42:992-1002.
7. Funayama Y, Kumagai E, Takahashi K, Sasaki I. Early diagnosis and early corticosteroid administration improves

healing of peristomal pyoderma gangrenosum in inflammatory bowel disease. *Dis Colon Rectum*. 2009;52:311-4.

8. Cerdán J, Cantero R, Martínez S, García C, Torres-Melero J, Balibrea JL. Pyoderma gangrenosum at the colostomy site in a patient with Crohn's disease. *Coloproctology*. 1994;16:407-10.
9. Cerdan-Santacruz C, Caparrós-Sanz MR, Lancharro-Bermúdez M, Mendoza-Hernández JL, Cerdán-Miguel J. Peri-ileostomy pyoderma gangrenosum. Case report. *Rev Esp Enferm Dig*. 2014;106:285-8.
10. Brown ER, Charles KA, Hoare SA, Rye L, Jodrell DI, Aird RE, et al. A clinical study assessing the tolerability and biological effects of infliximab, a TNF-alpha inhibitor in patients with advanced cancer. *Ann Oncol*. 2008;19:1340-6.

Raúl Vicente Olmedo Martín*, Víctor Amo Trillo, Susana López Ortega y Miguel Jiménez Pérez

Unidad de Gestión Clínica de Aparato Digestivo, Hospital Regional Universitario de Málaga, Málaga, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: raulolmedo1976@yahoo.es (R.V. Olmedo Martín).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2015.05.001>

Endometriosis en el músculo recto anterior del abdomen sobre cicatriz de cesárea



Rectus abdominal endometriosis on cesarean scar

La endometriosis es una entidad frecuente con una prevalencia del 8-15%¹⁻⁵. Consiste en la presencia de glándulas y estroma endometrial fuera de la cavidad uterina^{1-3,5}. Su implantación extrapélvica se ha descrito en el 8,9% de los casos de endometriosis² y se presenta en prácticamente cualquier órgano. Su localización en el músculo recto anterior del abdomen es rara, normalmente asociada con cesárea previa^{1,3,5,6}. Su diagnóstico preoperatorio es infrecuente y, normalmente, se obtiene después de la resección de la lesión^{1,3}.

Presentamos el caso de un endometrioma del músculo recto anterior del abdomen en relación a una cesárea previa.

Mujer de 32 años en seguimiento en las consultas externas de aparato digestivo por enfermedad de Crohn ileocólica, que tras 10 años de un parto por cesárea, comienza con dolor abdominal cíclico y aparición de masa próxima a la cicatriz de la cesárea. Se le realiza una ecografía abdominal en la que se observa en el interior del músculo recto anterior del abdomen derecho, una lesión sólida de unos 4,7 × 3 cm, hipoeoica con respecto al músculo y que no presenta flujo con el estudio Doppler color, además de 3 lesiones quísticas en su periferia (figs. 1 y 2). Todos hallazgos sugerentes de endometrioma. Se solicita RMN para mejor caracterización, donde se observa hipointensa en T1 con respecto al tejido muscular que le rodea, con focos en el interior hiperintensos en T1 con supresión grasa, sugerente de focos hemorrágicos (figs. 3 y 4). Se le realiza una PAAF guiada por ecografía, obteniéndose anatomía patológica compatible con endometriosis. Se decide hacer inicialmente seguimiento ecográfico de la lesión, ya que la paciente se encuentra asintomática y no desea ser intervenida. Actualmente la paciente se encuentra exclusivamente con tratamiento analgésico a demanda, con el que controla los episodios de molestias abdominales cíclicas. En las ecografías de control la lesión se ha mantenido estable, con un tamaño similar al del inicio del diagnóstico.

La endometriosis localizada en el músculo recto anterior del abdomen es una entidad poco frecuente, y hasta

ahora solo se conoce una serie de casos descritos en la literatura médica¹. Se relaciona con el antecedente de cesárea previa⁶, al igual que los endometriomas de la pared abdominal anterior en general, donde se estima que entre el 0,03-1% de las cesáreas lo presentan^{1-3,5} con un aumento leve de la incidencia en los últimos años a una media del 0,8% (probablemente por el aumento de las cesáreas que se realizan)⁵. Es más frecuente en mujeres jóvenes en la tercera década de la vida^{1,6}, y los síntomas más frecuentes son dolor abdominal, en ocasiones asociado a una masa^{1,6}. En concordancia con los de la pared abdominal en general, que se presentan con dolor abdominal, el 75% de los casos no catamenial, aunque se considere como característico el dolor asociado al ciclo menstrual, y en el 84,1% asociado a una masa abdominal^{1,3-5,7}.

Hay varias teorías que intentan explicar su patogénesis. La teoría de la implantación, la más aceptada, sugiere que las células endometriales salen a través de las trompas de Falopio o de la incisión quirúrgica, y se implantan en estructuras pélvicas. Otras teorías proponen una metaplasia de células endometriales, diseminación vascular o linfática^{1-5,7}.

En general para los endometriomas de la pared anterior del abdomen, el diagnóstico principalmente se hace por ecografía o RMN⁶. Sus características ultrasonográficas son una masa hipoeoica y heterogénea, con ecos internos, más raramente sólida o incluso con cambios quísticos (coleccionamiento de sangre secundarias a un sangrado reciente). Suele acompañarse de un halo hiperecoico debido a la inflamación del tejido circundante^{4,5}. Con Doppler color se observa un pedículo vascular en la periferia, sin señal intralesional⁷. En la TC aparece como una masa sólida isodensa al músculo y en la RMN isointensidad con el músculo en T1 y alta intensidad en T2, ambos con captación de contraste en fase arterial⁵. Todas las características muy inespecíficas para hacer un correcto diagnóstico preoperatorio, que solo se consigue en el 20-50% de los casos^{4,5,7}, probablemente debido a la baja sospecha clínica por la sintomatología inespecífica, y el desarrollo de los síntomas tardío (entre los 2-5 años después de la cirugía)^{2,3,5,7}. La PAAF guiada por ecografía constituye una primera aproximación para determinar la naturaleza de la lesión. Sus limitaciones son la escasa celularidad en lesiones quísticas o con hemorragia, insuficientes para un correcto diagnóstico histológico, además de la frecuente atipia de las células glandulares que hace difícil el diagnóstico diferencial. La presencia de 2 de los