

Paniculitis epiploica aislada en un niño con dolor abdominal. A propósito de un caso

Isolated omental panniculitis in a child with abdominal pain. Case report

Prof. Asist. Dr. Mustafa O. Oztan^a, Prof. Asist. Dr. Tunc Ozdemir^b, Dra. Melek Uncel^c,
Prof. Asist. Dra. Gulden Diniz^c y Prof. Dr. Gokhan Koyluoglu^a

RESUMEN

La paniculitis epiploica aislada es una entidad rara, mayormente observada en los adultos. Se presenta con inflamación del tejido adiposo del epiplón. Los síntomas varían entre manifestaciones locales (por ejemplo, dolor a la palpación abdominal o una masa palpable) y sistémicas, que incluyen dolor abdominal, dolor de espalda, fiebre, descenso de peso y trastornos intestinales. Presentamos este caso como una primera acción de sensibilización respecto de un caso de paniculitis epiploica en un niño, afección que debe tenerse en cuenta en el diagnóstico diferencial del íleo a fin de evitar cirugías innecesarias.

Palabras clave: paniculitis, epiplón, niño.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2016.e425>

Texto completo en inglés: <http://dx.doi.org/10.5546/aap.2016.eng.e425>

INTRODUCCIÓN

La paniculitis es una enfermedad rara, de etiología desconocida y caracterizada por la inflamación crónica del tejido adiposo del abdomen. El lugar más comúnmente afectado del abdomen es el mesenterio del intestino delgado, aunque también puede afectar, con menos frecuencia, otros tejidos adiposos tales como el retroperitoneo, el epiplón o los tejidos mesocolónico, peripancreático o pélvico.¹ Presentamos el caso de un niño con paniculitis del epiplón diagnosticada mediante laparotomía exploratoria. Nuestro objetivo es fomentar la sensibilización sobre esta enfermedad poco conocida y, de ser posible, evitar una cirugía innecesaria.

- Departamento de Cirugía Pediátrica, Facultad de Medicina de İzmir Kâtip Çelebi Üniversitesi, Esmirna, Turquía.
- Departamento de Cirugía Pediátrica, Hospital Universitario y de Investigación de Tepecik, Esmirna, Turquía.
- Laboratorio de Patología, Hospital Universitario y de Investigación de Tepecik, Esmirna, Turquía.

Correspondencia:

Prof. Asist. Dr. Mustafa O. Oztan: mustafaonur.oztan@ikc.edu.tr

Financiación: Ninguna.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 19-02-2016

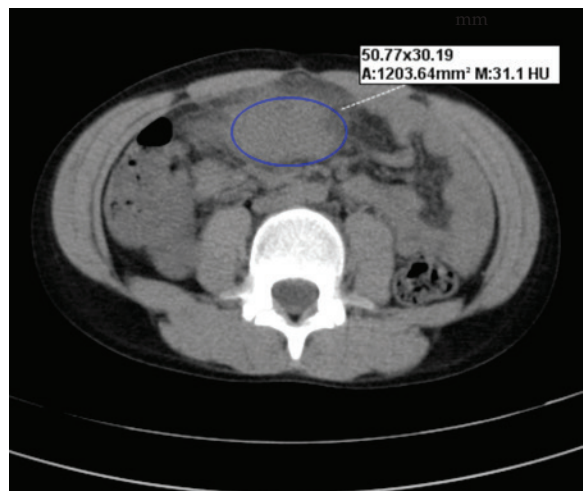
Aceptado: 27-06-2016

A propósito de un caso

Un niño de 13 años se presentó con antecedentes de dolor epigástrico y vómitos durante dos días. Sus antecedentes médicos incluían una apendicectomía 9 meses antes. Se separó el epiplón del extremo del apéndice y, en ese momento, la apendicectomía se completó sin epiplectomía.

En la exploración física se notó febrícula (37,5 °C) y una masa intensamente dolorosa a la palpación en el epigastrio. En los análisis de laboratorio se observaron leucocitosis (20 500/μl) y aumento de la velocidad de sedimentación globular (VSG, 99 mm/h) y la proteína C-reactiva (PCR, 145 mg/dl). La radiografía abdominal simple era normal. En la ecografía abdominal se observó una masa hiperecoica en el epigastrio, alrededor del colon. En la tomografía computarizada (TC) de abdomen con contraste se observó una masa de tejido blando (51 x 30 mm) en la cara anterior del colon transversal respecto del epiplón, que era marcadamente heterogénea y presentaba cambios inflamatorios (Figura 1).

FIGURA 1: Tomografía computarizada abdominal

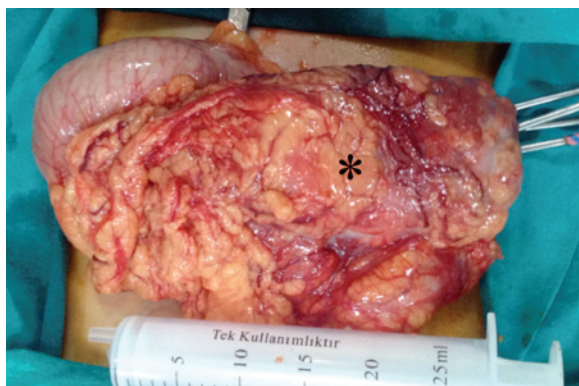


La TC en secuencia axial con contraste demuestra una masa de gran tamaño (51 mm x 30 mm), moderadamente heterogénea y bien delimitada (círculo) por encima del colon transversal. La lesión contiene material mixto de densidad de grasa y tejido blando con una densidad mayor que la de la grasa subcutánea.

Se hospitalizó al paciente y se realizó un seguimiento con un abordaje conservador con líquidos intravenosos, aspiración nasogástrica y dieta absoluta. Entre los diagnósticos posibles, se consideraron absceso organizado, duplicación intestinal, tumores lipomatosos, tumores estromales extraintestinales y torsión del epiplón. Dada la persistencia de los síntomas de síndrome abdominal agudo, se le realizó una laparotomía exploratoria abierta al día siguiente en lugar de una laparoscopia debido a la posibilidad de que se tratara de un tumor según lo observado en la TC. Durante la cirugía, se observó un conglomerado firme del epiplón sobre el colon transversal, sin compresión ni estrechamiento de la luz del intestino (Figura 2). Se extirpó la masa del colon, sin residuos ni perforación. El paciente fue dado de alta tres días más tarde, sin complicaciones.

En la evaluación histopatológica de la pieza de biopsia se observó un proceso inflamatorio crónico con células plasmáticas, linfocitos y macrófagos espumosos. También se observaron tabiques fibrosos alrededor de los lóbulos adiposos y un infiltrado inflamatorio mixto y miofibroblastos de gran tamaño en los tabiques que se extendían hacia la periferia de los lóbulos adiposos. La inmunohistoquímica mostró macrófagos abundantes que tendieron a agruparse en los tabiques con anticuerpo contra CD68 (Figura 3 a-d). Todos estos hallazgos coincidieron con paniculitis epiloica.

FIGURA 2: Vista intraoperatoria de la masa



Aspecto intraoperatorio de la paniculitis epiloica por encima del colon transversal. Se observa una masa grasa, gomosa e hipervascularizada que se presenta como tejido nodular heterogéneo (asterisco), fuertemente unido al colon. No se observaron cambios isquémicos ni adhesiones. Se extrajo la masa sin complicaciones.

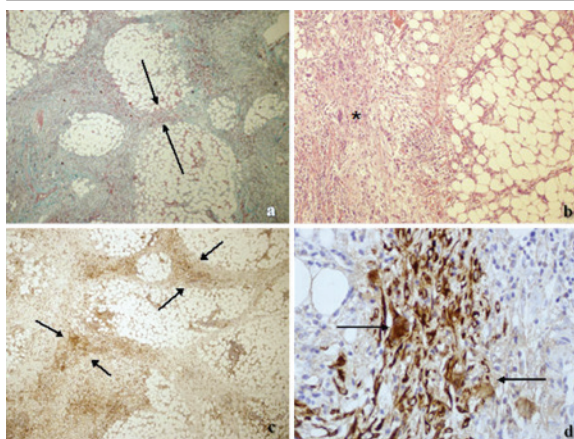
DISCUSIÓN

El término "paniculitis" define la inflamación de la grasa de los tejidos subcutáneos y puede ser el resultado de diversos factores, entre otros, linfedema, afecciones mediadas por el sistema inmunitario, infecciosas o causadas por traumatismo, o tumores malignos. La afectación intrabdominal de esta patología en el mesenterio fue descrita por primera vez en 1924 por Jura como "mesenteritis retráctil", y luego, en 1960, Ogden la denominó "paniculitis mesentérica".²

Katz y col., describieron estas lesiones como paniculitis intrabdominal, caracterizadas de la siguiente manera: 1. masa difusa, única o múltiple, con aspecto de lesiones adiposas en el mesenterio, el retroperitoneo, el epiplón o la pelvis; 2. confirmación histológica de esteatonecrosis con infiltrado inflamatorio o infiltración con macrófagos esponjosos cargados de lípidos; y 3. ninguna evidencia de pancreatitis, enfermedad intestinal inflamatoria o esteatonecrosis extrabdominal (enfermedad de Weber-Christian).³

Aún no se ha dilucidado completamente la etiología de la paniculitis intrabdominal. Se informaron etiologías específicas en diversos casos como causa posible, entre otras, infección concurrente o remota, cirugía previa reciente,

FIGURA 3: Examen histopatológico



Tabiques fibrosos alrededor de los lóbulos adiposos (entre las flechas) (tinción tricrómica de Gomori, x40) (a). Infiltrado inflamatorio mixto y miofibroblastos de gran tamaño en los tabiques, que se extienden hacia la periferia de los lóbulos adiposos (asterisco) (H&E, x200) (b). Los macrófagos eran abundantes y tendieron a agruparse en los tabiques con anticuerpo contra CD68 (entre las flechas) (DAB, x40) (c). Los miofibroblastos de gran tamaño fueron positivos para el anticuerpo contra la pantoqueratina (flechas) (DAB, x400) (d).

apendicitis en proceso de cicatrización, fármacos, traumatismo abdominal previo, problemas vasculares, por ejemplo, trombosis mesentérica o arteriopatía mesentérica, enfermedad ulcerosa y retención de material de sutura.^{1,3,4} La mayoría de los casos son idiopáticos, sin una enfermedad concurrente ni una intervención previa.

En hasta el 90% de los casos, la paniculitis intrabdominal afecta el mesenterio del intestino delgado o el mesenterio del colon sigmoide (paniculitis mesentérica) aunque, raramente, la región afectada involucra el mesocolon, el epiplón, el retroperitoneo o la pelvis.⁵

La paniculitis mesentérica es una enfermedad progresiva que se clasifica en tres grados histológicos: lipodistrofia mesentérica (cuando predominan la degeneración adiposa y la esteatonecrosis), paniculitis mesentérica (reacción inflamatoria marcada posterior), o mesenteritis retráctil o fibrosis mesentérica (fibrosis del tejido adiposo).⁵

La paniculitis mesentérica suele ser asintomática y, a menudo, casual. Daskalogiannaki y col., informaron una incidencia de paniculitis mesentérica del 0,6% entre 7620 pacientes mediante una evaluación con TC.⁶ Sin embargo, los pacientes podrían presentar dolor a la palpación abdominal local o una masa abdominal palpable o síntomas sistémicos, tales como fiebre, descenso de peso, dolor abdominal, dolor de espalda y manifestaciones intestinales (vómitos, estreñimiento, diarrea, hemorragia rectal) de duración variable.⁷ La mayoría de los casos informados en las publicaciones se refieren a adultos. Viswanathan y Murray informaron un único caso en una niña de 6 años de edad y revisaron otros 16 casos pediátricos de paniculitis mesentérica publicados.⁸

La paniculitis epiploica aislada es un subgrupo raro de paniculitis intrabdominal, en la cual el epiplón es el único lugar afectado, sin evidencia de pancreatitis, enfermedad intestinal inflamatoria o esteatonecrosis extrabdominal.^{4,9} En las publicaciones médicas existen solamente cuatro casos de paniculitis intrabdominal con afectación aislada del epiplón, todos en pacientes adultos. En uno de estos casos, el tratamiento médico contribuyó a la causa de la paniculitis, mientras que los otros tres casos eran idiopáticos.¹⁰⁻¹³

No existe consenso en cuanto al abordaje de los pacientes con paniculitis intrabdominal. No se cuenta con un tratamiento farmacológico estandarizado y se utilizan diversos

antinflamatorios, inmunomoduladores y antifibróticos, según la etapa de la enfermedad.¹² Si el tratamiento médico no funciona o el paciente está en la última etapa, cuando la fibrosis extensa causa complicaciones potencialmente mortales, tales como obstrucción o perforación intestinales, es imperativo realizar una cirugía.¹³

En la apendicectomía previa de nuestro paciente, el epiplón estaba levemente unido al apéndice, pero no se había extraído. En general, si el epiplón está marcadamente inflamado o infectado, se remueve de manera parcial durante la apendicectomía. No se recomienda la epiplectomía extensa dado que el epiplón cumple una función protectora contra las adherencias intestinales, también informadas en el artículo de Ariake y col.¹⁴ Es posible que el epiplón no removido durante la primera operación haya sido la causa de la paniculitis, pero no existe evidencia suficiente que indique que remover el epiplón prevenga una paniculitis posterior. La etiología de la paniculitis intrabdominal sigue siendo tema de especulación, también descrita en los artículos ya publicados.

Para que una lesión sea definida como "paniculitis", es necesario confirmar definitivamente el diagnóstico histológico. Estas lesiones aparecen en la TC como lesiones con una cápsula fibrosa que contienen áreas de densidad grasa separadas de áreas de densidad acuosa o de tejido blando. Pueden aparecer sumamente adyacentes al intestino, sin que puedan distinguirse de una masa que surge del intestino.⁴ Dado que la afectación del epiplón es extremadamente rara, los tres pacientes adultos anteriores que tuvieron paniculitis epiploica aislada fueron operados por el dolor a la palpación abdominal o la sospecha de un tumor.¹¹⁻¹³ En el último caso informado, Jeon y col., decidieron realizar una biopsia guiada por TC sobre la base de la imagen tomográfica de abdomen que mostraba una masa (presencia de grasa mesentérica altamente atenuante y pseudocápsula tumoral) y trataron al paciente con dosis bajas de prednisolona.¹⁰ En nuestro caso, operamos al paciente debido al persistente dolor a la palpación abdominal, los vómitos y el posible tumor. Pero si el equipo, junto con el radiólogo, hubiera considerado el diagnóstico posible de paniculitis epiploica, se hubiera realizado una laparoscopia para obtener piezas de biopsia o planificado una biopsia guiada por TC o ecografía, según lo sugerido en los artículos de Jeon y col. y Alkubeyyer y col.^{10,15} Tras confirmar

el diagnóstico, un seguimiento con antibióticos y antiinflamatorios hubiera sido más adecuado para este paciente.

A modo de conclusión, el diagnóstico preciso de la paniculitis epiploica es muy difícil debido a su rareza en los niños. Si bien uno de los motivos más frecuentes del dolor abdominal y los vómitos recurrentes después de una cirugía es la obstrucción adhesiva del intestino, creemos que es necesario estudiar a estos pacientes mediante ecografía para ayudar con el diagnóstico y, de ser necesario, también con una TC. Presentamos este caso por ser el primero, a fin de incrementar la sensibilización sobre la paniculitis epiploica para evitar cirugías innecesarias.

REFERENCIAS

- Emory TS, Monihan JM, Carr NJ, Sobin LH. Sclerosing mesenteritis, mesenteric panniculitis and mesenteric lipodystrophy: a single entity? *Am J Surg Pathol* 1997;21(4):392-8.
- Jura SV. Mesenterile retrattile e sclerosante. *Policlinica (Sez Prat)* 1924;31:575.
- Issa I, Baydoun H. Mesenteric panniculitis: various presentations and treatment regimens. *World J Gastroenterol* 2009;15(30):3827-30.
- Katz ME, Heiken JP, Glazer HS, Lee JK. Intraabdominal panniculitis: clinical, radiographic, and CT features. *AJR Am J Roentgenol* 1985;145(2):293-6.
- Rumman N, Rumman G, Sharabati B, Zagha R, et al. Mesenteric panniculitis in a child misdiagnosed as appendicular mass: a case report and review of literature. *Springerplus* 2014;3:73.
- Daskalogiannaki M, Voloudaki A, Prassopoulos P, Magkanas E, et al. CT evaluation of mesenteric panniculitis: prevalence and associated diseases. *AJR Am J Roentgenol* 2000;174(2):427-31.
- Gunduz Y, Tatli AP, Kara RO. Mesenteric panniculitis: a case report and review of the literature. *Maedica (Buchar)* 2012;7(4):344-7.
- Viswanathan V, Murray KJ. Idiopathic sclerosing mesenteritis in paediatrics: report of a successfully treated case and a review of literature. *Pediatr Rheumatol Online J* 2010;8:5.
- Hirono S, Sakaguchi S, Iwakura S, Masaki K, et al. Idiopathic isolated omental panniculitis. *J Clin Gastroenterol* 2005;39(1):79-80.
- Jeon EJ, Cho SM. Idiopathic isolated omental panniculitis confirmed by percutaneous CT-guided biopsy. *Gut Liver* 2009;3(4):321-4.
- Rozin A, Bishara B, Ben-Izhak O, Fischer D, et al. Fibrosing omental panniculitis and polyserositis associated with long-term treatment by paroxetine. *Isr Med Assoc J* 2000;2(9):714-6.
- Lheureux P, Matos C, Charlier PH, Van Romphey A, et al. Omental panniculitis: an unusual cause of acute appendiceal syndrome. *Ann Emerg Med* 1987;16(2):224-6.
- Gu GL, Wang SL, Wei XM, Ren L, et al. Sclerosing mesenteritis as a rare cause of abdominal pain and intraabdominal mass: a cases report and review of the literature. *Cases J* 2008;1(1):242.
- Ariake K, Yokoyama S, Doi T, Takemura S, et al. Effect of omentum removal on the risk for postoperative adhesive small bowel obstruction recurrence: a case-control study. *Int J Surg* 2015;13:27-32.
- Alkubeyyer MA, Alfuhaid TR. Mesenteric panniculitis. Imaging of a rare cause of chronic abdominal pain. *Saudi Med J* 2007;28(2):276-8.