

# Invaginación intestinal recidivante y enfermedad celiaca

J. Guerrero Vázquez, J.L. Luengo Casasola, J. Guerrero Fernández<sup>1</sup>, P. de Paz Aparicio, M. Vicente Cuevas, C. Collantes García  
Hospital «Punta de Europa». Algeciras (Cádiz). <sup>1</sup>Clínica Infantil «La Paz». Madrid

## Resumen

La mayoría de los casos de invaginación intestinal en el niño son de carácter idiopático. En la infancia se describen diversas formas secundarias y, entre ellas, con frecuencia discutida, la enfermedad celiaca. En estos casos, las manifestaciones de intususcepción suelen ser atípicas y el proceso se resuelve de forma espontánea. El conocimiento de esta asociación patológica tiene gran importancia, pues puede facilitar el diagnóstico de enfermedad celiaca. La existencia de un cuadro de invaginación recurrente debe hacer pensar en el proceso malabsortivo. La dieta desprovista de gluten previene la recurrencia de la intususcepción.

## Palabras clave

Invaginación intestinal, enfermedad celiaca

## Abstract

*Title:* Recurrent bowel intussusception and celiac disease

In most cases, bowel intussusception in children is idiopathic. Secondary causes, such as celiac disease, are rare. Intussusception associated with celiac disease usually presents in an atypical way and resolves spontaneously. The knowledge of the possible association of these two conditions is important because it can lead to an early diagnosis of celiac disease, which should be suspected particularly in cases of recurrent intussusception. A gluten-free diet prevents the recurrence of intussusception.

## Keywords

Bowel intussusception, celiac disease

46

## Introducción

Uno de los aspectos más sorprendentes de la enfermedad celiaca (EC) es lo variado de sus formas de presentación y la diversidad de las patologías a ella asociadas. La invaginación intestinal aguda (IIA), por regla general recurrente y autolimitada, es una de ellas.

## Caso clínico

Niña de 2 años y 8 meses que ingresa en nuestro centro porque en las últimas 24 horas ha realizado 9 deposiciones fluidas, sin moco ni sangre, asociadas a crisis de llanto intenso, que los familiares atribuyen a molestias abdominales. El episodio agudo descrito es continuación de un trastorno en el hábito intestinal establecido 1 mes antes. Desde entonces, las heces, aunque en número no excesivo (2 o 3 deposiciones diarias), son voluminosas, blandas, pálidas y brillantes, y los padres aprecian inapetencia y pérdida ponderal.

## Exploración

Peso 12.120 g (P10-25), talla 91,5 cm (P10-25). Buen estado general. Sensorio despejado. Buena coloración de piel y mucosas. Ausencia de exantemas. Sin adenopatías significativas. Exámenes cardiocirculatorio y pulmonar normales. Abdomen

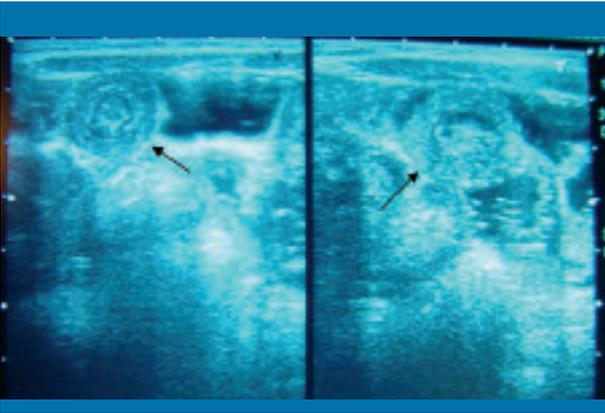
ligeramente distendido, no doloroso espontáneamente ni a la palpación profunda, que no detecta visceromegalias ni masas. Ano y tacto rectal normales. Auscultación ORL normal.

En el curso de las primeras horas de ingreso, su estado se deteriora, presentando llanto intenso e inconsolable asociado a un incremento de la distensión del abdomen, cuya palpación en profundidad es prácticamente imposible, y el intento muy doloroso. Tras realizar con carácter urgente una ecografía, cuyos resultados se detallan más adelante, se profundiza en la anamnesis, en la que se recoge que desde 6 meses antes la paciente presenta cierta distensión abdominal, se muestra huraña y en los 3 últimos meses ha tenido 4 o 5 episodios de llanto intenso y prolongado, imposible de consolar, con mirada fija y ojos muy abiertos. Los padres no recuerdan que ello se asociara con alteraciones del hábito intestinal ni de las características de las deposiciones.

## Exámenes complementarios

Radiografía simple de abdomen al ingreso: sin alteraciones significativas.

Ecografía abdominal realizada durante la crisis dolorosa (figura 1): imagen en diana compatible con invaginación ileoileal, sin signos de suboclusión intestinal ni otras alteraciones, que se resuelve espontáneamente en el curso de la exploración. Controles posteriores normales.



**Figura 1.** Imagen en diana por invaginación ileoileal

Hemograma: hemoglobina 10,6 g/dL, hematocrito 32,9%, VCM 63,6, HCM 20,5, CHCM 32,3, leucocitos 15.510 (G 60, L 31, M 4, E 1, B 1), plaquetas 746.000. Reactantes de fase aguda: velocidad de sedimentación globular 7 mm/h, proteína C reactiva < 0,1 mg/dL. Ferrocínica: sideremia 6 µg/dL, transferrina 322 mg/dL, índice de saturación 1,3%, ferritina 3,7 ng/mL.

Bioquímica sérica, incluida la inmunoglobulina (Ig) A: normal.

Anticuerpos antigliadina IgA negativos; anticuerpos anti-transglutaminasa tisular IgA: 17 U/mL.

Van de Kamer: peso total de heces 477 g, grasas totales 5,08 g/24 h, ácidos grasos 4,60 g/24 h, grasas neutras 0,48 g/24 h.

Sustancias reductoras en heces: 0 g/L.

Coprocultivo y parasitológico de heces negativos.

Biopsia duodenoyeyunal: atrofia subtotal de vellosidades con hipertrofia de las criptas (Marsh IIIb).

Test del sudor: 30 mmol/L de ClNa.

### **Evolución**

Tras la supresión del gluten desaparecen el trastorno diarreico y la sintomatología dolorosa, constatándose ganancia ponderal y recuperación del apetito y del buen carácter.

### **Discusión**

Al contrario de lo que sucede en la edad adulta<sup>1,2</sup>, la asociación EC-IIA se ha considerado rara en la infancia<sup>3</sup>. Ciertamente son escasas las aportaciones que de esta patología se han hecho a la literatura médica y siempre como series muy cortas<sup>4</sup> o, simplemente, como casos aislados<sup>3,5-8</sup>. Esta supuesta rareza no se corresponde con la información procedente de épocas pasadas, en las que las investigaciones radiológicas con contraste baritado formaban parte del protocolo diagnóstico de la enfermedad y en las que el hallazgo de una intususcepción intestinal, tanto en el adulto como en el niño, se con-

sideraba un marcador no sólo sugerente, sino específico de EC<sup>1,9</sup>. Un dato adicional que avala lo indicado previamente es que en el momento del diagnóstico de EC cerca del 50% de los niños presenta un dolor abdominal crónico o recurrente<sup>10</sup>, por lo que se sospecha que los fenómenos de invaginación podrían ser los responsables de las abdominalgias en algunos de estos casos<sup>4</sup>.

Al margen de la frecuencia con que esta complicación acompaña a la EC en unas y otras edades, lo cierto es que la invaginación reconoce diferentes orígenes según el grupo etario en que se presente. En el adulto, la IIA es de carácter secundario a procesos reconocibles, fundamentalmente neoplasias<sup>11</sup> y síndromes malabsortivos<sup>2,12</sup>. En las primeras edades de la vida, la mayoría de los cuadros de invaginación intestinal son de naturaleza idiopática<sup>6,7</sup>, aunque es bien conocida la existencia de formas secundarias a diversas enfermedades, como las siguientes: divertículo de Meckel, adenopatías, pólipos, tumores, hematomas, infecciones, inmunización con la antigua vacuna tetravalente frente a rotavirus, enfermedad de Crohn<sup>13</sup>, púrpura anafilactoide<sup>14</sup>, fibrosis quística y EC<sup>4,7</sup>.

En la infancia, la IIA asociada a EC suele presentarse en pacientes de entre 1 y 3 años de edad<sup>3-5</sup>, pero se ha descrito en una niña de tan sólo 9 meses<sup>7</sup> y también en adolescentes<sup>8</sup>.

Las manifestaciones clínicas de las invaginaciones que complican la EC son generalmente atípicas: formas frustres, auto-limitadas y recidivantes<sup>7</sup>. Lo habitual es presentar dolores cólicos de intensidad moderada asociados a cierta distensión abdominal en ausencia de otras manifestaciones clásicas de intususcepción<sup>3,4</sup>. Incluso se describen casos no asociados con el dolor<sup>5</sup> y otros en los que la invaginación y la EC se descubren al investigar con técnicas de imagen patologías de naturaleza y sintomatología extradigestivas<sup>9</sup>.

Las localizaciones más comunes de las intususcepciones en la EC infantil son la ileoileal o la ileocólica<sup>3,5,6</sup>. Generalmente, son simples y afectan a segmentos cortos del intestino; algunas son múltiples<sup>3</sup> y otras afectan a zonas de varios centímetros de longitud. En cuanto a su curso, pueden ser únicas y breves o repetirse en el curso de días o semanas<sup>3,4</sup>.

Respecto a la patogenia de la invaginación en la EC, se considera probable que el proceso inflamatorio, consustancial a la enfermedad, afecte a los plexos mientéricos, repercutiendo así en la función motora tanto del intestino como de la vesícula biliar<sup>5,15</sup>. Cucchiara et al.<sup>16</sup> describieron fenómenos de dismotilidad en niños con EC activa y comprobaron que ésta revertía tras un periodo de 6 meses de exclusión del gluten. Dedujeron que la disfunción era resultado de un hipotético daño en el control neurológico de la motilidad intestinal. Otros autores han confirmado posteriormente que la retirada del gluten de la dieta, con el consiguiente alivio de la inflamación, mejora la motilidad y previene la recurrencia de la invaginación<sup>3,6,7</sup>. Esto no es óbice para que procesos de intususcepción puedan desarrollarse en el periodo inmediato a la supresión del gluten tras el diagnóstico de EC, aunque no puede precisarse si la compli-

cación es resultado de la evolución natural del proceso o de transgresiones dietéticas no conocidas<sup>4</sup>.

En lo referente al tratamiento, frente a una invaginación en un niño con EC debe adoptarse una actitud conservadora pero vigilante y cautelosa por si su evolución exigiera reducirla quirúrgicamente<sup>4</sup>. Esta actitud expectante se justifica porque, en la mayoría de los casos descritos en el niño con EC, la invaginación se resolvió espontáneamente<sup>3-5,7,8</sup>, y sólo como excepción fue necesario reducirla mediante neumoenema<sup>6</sup>.

## Conclusiones

- La invaginación intestinal puede ser una forma de manifestación y/o complicación de la EC. En estos casos, la invaginación suele ser atípica: formas frustres, autolimitadas y recidivantes<sup>7</sup>.
- El conocimiento de esta asociación es importante, pues puede permitir un diagnóstico precoz<sup>7</sup>. El hallazgo de una invaginación recurrente, mediante radiología de contraste o ultrasonografía, debe incitar a la investigación de una posible EC subyacente<sup>3,4,6</sup>.
- Aunque esta asociación patológica se considera rara en la infancia<sup>3,5-7</sup>, quizá no sea tan infrecuente como se supone<sup>4</sup>.
- La invaginación en un niño con EC, confirmada o sospechada, debe manejarse de forma expectante más que con reducción quirúrgica precoz<sup>4</sup>.
- La supresión del gluten previene la recurrencia de la invaginación<sup>3,6,7</sup>, pero se ha descrito algún caso en la fase inicial de la exclusión del gluten<sup>4</sup>. ■

## Bibliografía

1. Burrows FGO, Toye DKM. Barium studies. *Clin Gastroenterol*. 1994; 3: 91-107.

2. Bret P, Francoz JB, Bret PA, Cuhe C, Gerard C. Images lacunaires et invaginations dans 25 cas de maladie coeliaque. *J Radiol*. 1980; 61: 723-727.
3. Germman R, Kuch M, Prinz K, Ebbing A, Schindera F. Celiac disease: an uncommon cause of recurrent intussusception. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 1997; 25: 415-416.
4. Mushtaq N, Marven S, Walker J, Puntis JWL, Rudolf M, Stringer MD. Small bowel intussusception in celiac disease. *J Pediatr Surg*. 1999; 34: 1.833-1.835.
5. Álvarez Coca J, Blanco J, Ripalda MJ, Izquierdo C. Acute gallbladder distension and recurrent small bowel intussusception in a child with celiac disease. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 1998; 27: 444-445.
6. López Medina JA, González Hervás C, Cara Mariscal A, Fernández Abril J, Ortega Martos L. Invaginación intestinal recidivante y enfermedad celíaca. *An Esp Pediatr*. 2000; 52: 580-582.
7. Lastennet F, Piloquet H, Camby C, Moussally F, Siret D. Invaginación intestinal aiguë révélant une maladie coeliaque chez un garçon de neuf mois. *Arch Pediatr*. 2002; 9: 151-154.
8. Muñoz Medina L, Troncoso García E, Gómez Jiménez FJ, Céspedes Más M, Ortego Centeno N. Invaginación intestinal transitoria en un varón de 15 años. *Rev Clin Esp*. 2002; 202: 111-112.
9. Masterson JB, Sweeney EC, Path MC. The role of small bowel-through examination in the diagnosis of celiac disease. *Br J Radiol*. 1976; 49: 660-664.
10. Walker-Smith JA. Celiac disease. En: Walker WA, Durie PR, Hamilton JR, et al., eds. *Pediatric gastrointestinal diseases*. Vol. 2, 2.<sup>a</sup> ed. St Louis: Mosby, 1996; 840-861.
11. Catalano O. Transient small bowel intussusception: CT findings in adults. *Br J Radiol*. 1997; 70: 805-808.
12. Cohen MD, Lintott DJ. Transient small bowel intussusception in adult celiac disease. *Clin Radiol*. 1978; 29: 529-534.
13. Klhiczak D, Rosenfeld DL. Crohn's disease presenting as intermittent ileocolic intussusception. *Clin Pediatr (Phila)*. 1998; 37: 635-638.
14. Choong CK, Beasley SW. Intra-abdominal manifestations of Henoch-Schönlein purpura. *J Pediatr Child Health*. 1988; 34: 405-409.
15. Maton PN, Selden AC, Fitzpatrick ML, Chadwick VS. Defective gallbladder emptying and cholecystokinin release in celiac disease. Reversal by gluten-free diet. *Gastroenterology*. 1985; 88: 391-396.
16. Cucchiara S, Bassoti G, Castellucci G, Minella R, Betti C, Fusaro C, et al. Upper gastrointestinal motor abnormalities in children with active disease. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 1995; 21: 435-442.