

# Tratamiento conservador de la neumatosi intestinal y el neumoperitoneo postrasplante de médula ósea

C. Barceló Cañellas<sup>1</sup>, C. Marhuenda Irastorza<sup>1</sup>, T. Olivé<sup>2</sup>, A. Moreno Montero<sup>1</sup>, G. Guillén Burrieza<sup>1</sup>, J.A. Molino Gaethe<sup>1</sup>, J. Lloret Roca<sup>1</sup>, V. Martínez-Ibáñez<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Departamento de Cirugía Pediátrica. <sup>2</sup>Departamento de Hematología Pediátrica. Hospital Infantil Vall d'Hebrón. Barcelona

## RESUMEN

**Objetivo.** La neumatosi intestinal (NI) es un signo radiológico que puede ir asociado o no a neumoperitoneo. Su presencia no es exclusiva de los neonatos con enterocolitis necrotizante. También puede aparecer en pacientes sometidos a trasplante de médula ósea alogénico.

Presentamos nuestra experiencia con 6 pacientes con NI postrasplante de médula ósea (MO) tratados de forma conservadora sin necesidad de cirugía en ningún caso y con muy buena evolución.

**Material y métodos.** Se han revisado los pacientes con el diagnóstico de NI desde el año 2000 al 2007 postrasplante de MO alogénica en nuestro centro.

**Resultados.** Seis pacientes han presentado 7 episodios de NI con neumoperitoneo en 3 de ellos. Todos los casos desarrollaron previamente enfermedad de injerto contra huésped intestinal. La NI fue diagnosticada entre 1 y 4 meses postrasplante. Al diagnóstico, ningún paciente presentó signos de peritonitis ni afectación del estado general. La TAC fue utilizada para el diagnóstico, hallándose NI de predominio colónico (5), neumomediastino (1) y retroneumoperitoneo (2). El tratamiento fue conservador con dieta absoluta, antibióticos y nutrición parenteral total. Se reinició la alimentación enteral progresivamente entre 1 y 2 meses después del diagnóstico, apareciendo en un caso una recidiva de la NI que requirió reiniciar el tratamiento conservador. En el resto de casos, la evolución posterior fue muy satisfactoria, con mejoría de la neumatosi y correcta tolerancia oral sin necesidad de cirugía en ningún caso.

**Comentarios.** La NI con o sin neumoperitoneo es una entidad a tener en cuenta en los pacientes trasplantados de MO. La presencia de neumoperitoneo sin afectación del estado general ni aparición de signos de peritonitis no es indicativo de cirugía en estos pacientes. El tratamiento conservador con antibióticos y nutrición parenteral permite la resolución del cuadro espontáneamente.

**PALABRAS CLAVE:** Neumatosi intestinal; Trasplante médula ósea; Neumoperitoneo.

## CONSERVATIVE TREATMENT OF PNEUMATOSIS INTESTINALIS AND PNEUMOPERITONEUM AFTER BONE MARROW TRANSPLANTATION

### ABSTRACT

**Objective.** Pneumatosi intestinalis (PI) is a radiological sign that can be accompanied by pneumoperitoneum. It is not exclusive of neonatal necrotizing enterocolitis. It can also appear after bone marrow transplantation.

We describe our experience with 6 patients diagnosed of PI after bone marrow transplantation (BMT) who were treated conservatively without surgery in any case and good outcome.

**Patients and method.** We have reviewed the patients diagnosed of PI from 2000 to 2007 after BMT in our center.

**Results.** Six patients have had 7 episodes of PI with pneumoperitoneum in 3. All cases previously developed intestinal graft-versus-host disease. PI was diagnosed from 1 to 4 months after transplantation. At diagnosis, any patient presented peritoneal signs. Computed tomography was used for PI diagnosis with colonic predominance (5), pneumomediastinum (1) and retroneumoperitoneum (2). The treatment was conservative with intestinal rest, antibiotics and total parenteral nutrition. Enteral feeding was initiated progressively between 1 and 2 months after diagnosis but in one case PI reappeared and it required to start again the conservative treatment. In the other cases, outcome was very satisfactory, improving the pneumatosi and with a correct oral feeding without needing of surgery in any case.

**Comments.** PI with or without pneumoperitoneum is an condition to have in mind in bone marrow transplantation patients. Pneumoperitoneum with good general condition and no sign of peritonitis is not indicative of surgery in these patients. Conservative treatment with antibiotics and parenteral nutrition allows resolution spontaneously.

**KEY WORDS:** Pneumatosi intestinalis, Bone marrow transplantation, Pneumoperitoneum.

**Correspondencia:** Concepción Barceló. Departamento de Cirugía Pediátrica. Hospital Infantil Vall d'Hebrón. Paseo Vall d'Hebrón, 119-129. 08035 Barcelona. e-mail: conxbarcelo@yahoo.es

Presentado como comunicación oral en el IV Congreso Ibérico de Cirugía Pediátrica del 25 al 28 de junio en Zaragoza

Recibido: Junio 2008

Aceptado: Septiembre 2008

## INTRODUCCIÓN

La neumatosi intestinal (NI) es un signo radiológico que se define como la presencia de gas entre las capas de la pared intestinal. En pediatría, frecuentemente asociamos dicho término al período neonatal, sobre todo a aquellos

**Tabla I**

<i>Diagnóstico enfermedad</i>	<i>Tipo TMO</i>	<i>Diagnóstico de EICH</i>	<i>Tiempo entre TMO y diagnóstico EICH intestinal (días)</i>	<i>Tratamiento corticoideo</i>	
1	Mucopolisacaridosis I	FI	SÍ	30	SÍ
2	LAL-B	DnE	SÍ	60	SÍ
3	LAM6	DnE	SÍ	56	SÍ
4	LAL-B	DnE	SÍ	21	SÍ
5	LAL-B	DnE	SÍ	4	SÍ
6	LAL-T	DnE	SÍ	6	SÍ

*LAL-B: leucemia aguda linfoblástica tipo B; LAL-T: leucemia aguda linfoblástica tipo T; FI: familiar idéntico; DnE: donante no emparentado*

pacientes que son diagnosticados de enterocolitis necrotizante por la presencia de este signo guía. Pero es importante recordar que la NI también puede aparecer fuera del período neonatal siendo en dichos casos el indicador de una patología subyacente que frecuentemente sigue un curso más benigno que en el período neonatal. Existen diferentes mecanismos y condiciones que pueden favorecer la aparición de NI, siendo el trasplante de médula ósea (TMO) uno de ellos. La NI después del TMO puede estar favorecida por la presencia de la colitis que sufren estos pacientes por la enfermedad de injerto contra huésped (EICH) y que, consecuentemente, además son tratados con inmunosupresores como los corticoides. Estos dos factores están descritos como factores de riesgo para desarrollar NI. En estos casos, y pese a la presencia de neumoperitoneo (NP), si el paciente tiene un buen estado general y no existen signos de peritonitis, el tratamiento conservador mediante dieta absoluta y nutrición parenteral total (NPT) más o menos prolongada es el tratamiento de elección. La cirugía queda reservada para aquellos casos que presentan irritación peritoneal o afectación del estado general que sugiera una perforación intestinal de toda la pared intestinal.

Presentamos los casos que después de un TMO han sido diagnosticados de NI y/o NP durante los últimos 8 años y la buena evolución que han seguido con el tratamiento conservador.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Se han revisado los casos diagnosticados de NI y/o NP después de haber sido sometidos a TMO desde enero del 2000 a diciembre del 2007.

Se han recogido los datos de cada uno de los pacientes: diagnóstico de la enfermedad, edad en el TMO, tipo de TMO (FI: familiar idéntico o DnE: donante no emparentado), presencia de EICH, tiempo entre el TMO y la aparición de la EICH, tratamiento de la EICH con corticoides, tiempo de inicio de la clínica de la NI post-TMO, clínica de la NI, extensión de la lesión y presencia de NP (valorados por tomo-

grafía computarizada), duración del tratamiento conservador (dieta absoluta y NPT), necesidad de cirugía y resolución del cuadro.

## RESULTADOS

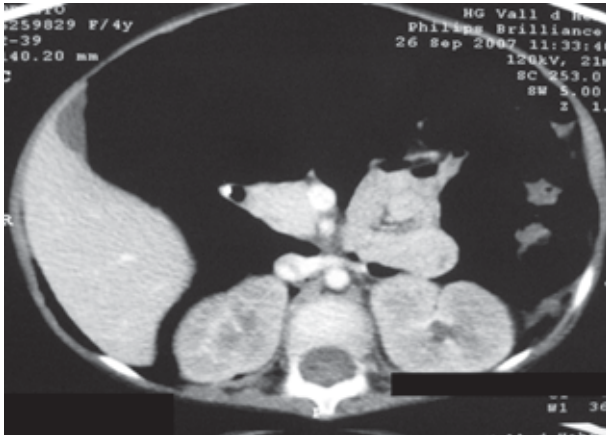
De aproximadamente unos 350 TMO durante estos 8 años, se han encontrado 6 pacientes que han sufrido 7 episodios de NI, presentando 3 de ellos NP asociado.

Las edades de los pacientes cuando fueron sometidos al TMO oscila entre 3 y 6,5 años con una media de 3,9 años. Hay una predominancia del sexo femenino 5:1 en nuestra serie.

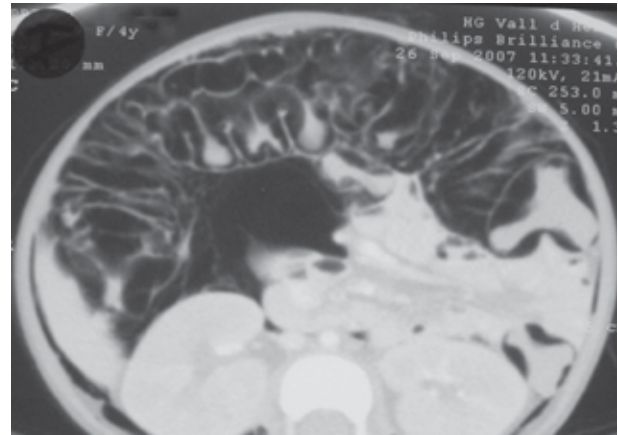
El diagnóstico de la enfermedad, tipo de TMO, presencia de EICH intestinal postrasplante, período transcurrido entre el TMO y la aparición de la EICH y tratamiento de la EICH con corticoides de todos los pacientes se resumen en la tabla I.

La NI apareció entre 36 y 120 días post-TMO con una mediana de 62 días. La forma de presentación más frecuente y que estuvo presente en todos los casos es la distensión abdominal acompañada de dolor abdominal en 4 pacientes. Otros síntomas que también acompañaron a la distensión abdominal fueron los vómitos en 3 casos y diarrea en uno. En ningún caso, se apreciaron signos de peritonitis ni de irritación peritoneal así como de mal estado general o alteración analítica.

La tomografía computarizada (TC) se realizó en todos los casos para confirmar el diagnóstico y determinar la extensión de la lesión así como valorar la presencia de NP. En 5 casos, la NI estaba localizada en colon, sobre todo ascendente y transversal (3 casos). En dos casos, había un NP asociado a la NI que ocupaba gran parte de la cavidad abdominal (Figs. 1 y 2) acompañado de retroneumoperitoneo. El caso número 3 presentaba una neumatosis a nivel gástrico junto con gran afectación del intestino delgado, así como un NP tan importante que ascendió hasta el tórax apareciendo un neumomediastino en la TC torácica (Fig. 3) sin compromiso respiratorio.



**Figura 1.** Neumoperitoneo que ocupa gran parte de la cavidad abdominal.



**Figura 2.** Imágenes típicas de la NI; presencia de aire en la pared intestinal.

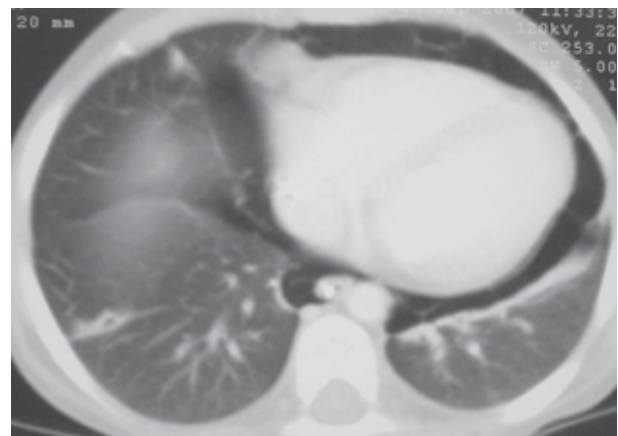
Tras el diagnóstico y al determinar la ausencia de signos de peritonitis y el buen estado general de los pacientes, fueron sometidos a tratamiento conservador. Se pautó dieta absoluta y NPT así como antibióticos de amplio espectro para prevenir complicaciones. Dicho tratamiento se mantuvo entre 15 y 60 días (media de 29,5 días), dependiendo de la evolución clínica de cada uno de los pacientes. La reintroducción de la nutrición enteral se realizó de forma progresiva y lenta con fórmulas elementales, que posteriormente eran sustituidas por fórmulas completas hasta la total retirada de la NPT.

Todos los pacientes siguieron una evolución satisfactoria con resolución de la NI en todos ellos y correcta tolerancia oral excepto en el caso número 3 que presentó un nuevo episodio de NI con NP asociado a los 20 días del alta. Este caso fue tratado nuevamente con tratamiento conservador con resolución del mismo posteriormente.

Ningún caso precisó de cirugía para la resolución del cuadro con una supervivencia del 100% de los casos con seguimiento medio de un año.

## DISCUSIÓN

La aparición de la NI fuera del período neonatal es poco frecuente aunque descrita por diferentes etiologías en la literatura, ya sea en adultos o en niños mayores<sup>(1-4)</sup>. Su presencia está favorecida por determinados mecanismos y condiciones. Está descrita su presencia en casos de infecciones intestinales agudas en pacientes previamente sanos, en inflamaciones del intestino delgado por diferentes causas que constituyen las denominadas colitis no infecciosas, en obstrucciones intestinales por alteración de la motilidad intestinal, en enfermedades pulmonares crónicas como la fibrosis quística, asma o enfermedad pulmonar obstructiva crónica, en isquemias intestinales y en cardiopatías congénitas descompensadas<sup>(5)</sup>. Dentro del término de colitis no infecciosas se recogen aquellas colitis que se dan en los pacientes trasplantados de médula ósea que presen-



**Figura 3.** Neumomediastino procedente de gran neumoperitoneo.

tan EICH intestinal, las colitis que sufren los pacientes con intestino corto al intentar avanzar en la nutrición enteral, las colitis alérgicas por intolerancia a las proteínas de la leche de vaca y otras inespecíficas<sup>(5)</sup>. En cuanto a los pacientes con TMO, los factores predisponentes para la aparición de la NI, aparte del desarrollo de la EICH, es su tratamiento con inmunosupresores como son los corticoides, ser un TMO de donante no emparentado y tener una co-infección intestinal<sup>(5-7)</sup>. Todos nuestros pacientes presentaron una EICH que fue tratada con corticoides. El tipo de TMO al que fueron sometidos fue de donante no emparentado excepto en un caso en que se trataba de un familiar idéntico, por tanto, presentaban los factores de riesgo más frecuentes para desarrollar la NI, aunque queda por determinar por qué se produce en determinados casos. La incidencia de NI post-TMO es desconocida aunque en un estudio se establece en el 4% de los pacientes sometidos a TMO<sup>(6)</sup>, siendo en nuestra revisión sólo del 1,7%.

Frecuentemente, el mecanismo por el que aparece un NP en los casos de NI es diferente del que se produce en la enterocolitis necrotizante (ECN) del período neonatal. Se sugie-

re que se produce por la rotura de un neumatocele de la serosa de la pared intestinal sin perforación de la mucosa, siendo llamado "neumoperitoneo benigno"<sup>(5,8,9)</sup>. Su tratamiento y evolución también difieren de la ECN. Si el paciente presenta un buen estado general y no existen signos de peritonitis o irritación peritoneal el tratamiento debe ser conservador<sup>(5-7)</sup>. La cirugía debe reservarse para aquellos casos en que existen signos claros de irritación peritoneal, acidosis, hemorragia u obstrucción intestinal<sup>(7,10)</sup>, por lo que es importante para un cirujano realizar una correcta y repetida valoración del paciente<sup>(5)</sup>. Como tratamiento conservador, se aconseja el reposo intestinal, la administración de nutrición parenteral total y antibióticos endovenosos de amplio espectro para evitar la sobreinfección. La duración del mismo dependerá de la evolución de cada paciente.

La presencia de gas en la vena porta está asociada a mal pronóstico aunque la necesidad de cirugía en estos casos es controvertida<sup>(5,7)</sup>. Ninguno de nuestros casos presentó este signo radiológico.

## CONCLUSIONES

La NI es una entidad a tener en cuenta en los pacientes trasplantados de médula ósea. Su asociación a NP debe tratarse de forma conservadora siempre que el buen estado general del paciente lo permita, así como la ausencia de peritonitis o irritación peritoneal. El tratamiento conservador con antibióticos y nutrición parenteral total permite la resolución del cuadro espontáneamente.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Bates FT, Gurney JW, Goodman LR, Santamaria JJ, Hansen RM, Ash RC. Pneumatosis intestinalis in bone-marrow transplantation patients: diagnosis on routine chest radiographs. *Am J Roentgenol* 1989; 152: 991-994.
2. Binstadt DH, L'Heureux PR. Case report: pneumatosis cystoides intestinalis in childhood systemic lupus erythematosus. *Minn Med* 1977; 60: 408-409.
3. Fischer TJ, Cipel L, Stiehm ER. Pneumatosis intestinalis associated with fatal childhood dermatomyositis. *Pediatrics* 1978; 61: 127-130.
4. Gupta A. Pneumatosis intestinalis in children. *Br J Radiol* 1978; 51: 589-595.
5. Kurbegow AC, Sondheimer JM. Pneumatosis intestinalis in non-neonatal pediatric patients. *Pediatrics* 2001; 108(2): 402-406.
6. Ade-Ajayi N, Veys P, Stanton M, Drake DP, Pierro A. Conservative management of pneumatosis intestinalis and pneumoperitoneum following bone-marrow transplantation. *Pediatr Surg Int* 2002; 18: 692-695.
7. Vlieghe V, Chantrain CF, Benmiloud S, Brichard B, Dupont S, De Ville de Goyet J et al. Conservative management of pneumatosis intestinalis following haematopoietic stem cell transplantation for major B thalassemia. *Eur J Pediatr* 2007; 166: 615-616.
8. Williams NMA, Watkin DFL. Spontaneous pneumoperitoneum and other nonsurgical causes of intraperitoneal free gas. *Postgrad Med J* 1997; 73: 531-537.
9. Hoover EL, Cole GD, Mitchell LS, Adams CZ, Hassett J. Avoiding laparotomy in nonsurgical pneumoperitoneum. *Am J Surg* 1992; 164: 99-103.
10. Fenton LZ, Buonomo C. Benign pneumatosis in children. *Pediatr Radiol* 2000; 30: 786-793.