

Doppia invaginazione ileo-ileale e ileo-ciecolica da lipoma sottomucoso del tenue: case report

A. COSTANZO, G. PATRIZI, G. CANCRINI, L. FIENGO, F. TONI, F. SOLAI,
S. ARCIERI, R. GIORDANO

RIASSUNTO: Doppia invaginazione ileo-ileale e ileo-ciecolica da lipoma sottomucoso del tenue: case report.

A. COSTANZO, G. PATRIZI, G. CANCRINI, L. FIENGO, F. TONI,
F. SOLAI, S. ARCIERI, R. GIORDANO

L'invaginazione intestinale nell'adulto è una patologia rara e rappresenta approssimativamente il 5-16% di tutte le invaginazioni.

Descriviamo il caso di una doppia invaginazione ileo-ileale e ileo-ciecolica secondaria ad un lipoma sottomucoso del tenue in un paziente di 54 anni. La sintomatologia da occlusione intestinale ha comportato un iter diagnostico-strumentale comprendente la radiografia diretta dell'addome, l'ecografia e la TC multislice, che hanno indirizzato verso una diagnosi presuntiva pre-operatoria di invaginazione intestinale. La diagnosi di doppia invaginazione è stata confermata all'atto chirurgico che è consistito in una emicolectomia destra allargata sull'ileo. L'apertura del pezzo operatorio ha permesso di evidenziare sulla testa dell'invaginato una formazione polipoide il cui esame istologico definitivo ha deposto per lipoma sottomucoso.

Prendendo spunto dal caso clinico, gli Autori procedono ad una review della letteratura dell'invaginazione intestinale nell'adulto.

SUMMARY: Double ileo-ileal and ileo-cecocolic intussusception due to submucous lipoma: case report.

A. COSTANZO, G. PATRIZI, G. CANCRINI, L. FIENGO, F. TONI,
F. SOLAI, S. ARCIERI, R. GIORDANO

Intestinal intussusception is a rare pathology in adults and counts for approximately 5-16% of all invaginations, according to literature.

We report the case of a 54 years-old male affected by a double ileo-ileal and ileocecolic invagination secondary to a submucosal intestinal lipoma. Because of a bowel obstruction symptomatology, the diagnosis was based on abdomen X-rays, abdominal ultrasound and multislice CT scan that showed a probable pre-operative diagnosis of intestinal intussusception. The diagnosis of double invagination was confirmed intraoperatively and was therefore performed a right colectomy extended to a long tract of ileum. Opening the specimen demonstrated the evidence of a submucosal lipoma on the head of the intussusceptum.

After the description of this case, we proceed with review of the literature of adult intestinal invagination.

KEY WORDS: Invaginazione intestinale - Lipoma sottomucoso intestinale - Adulto.
Intestinal invagination - Intestinal submucosal lipoma - Adult.

Premessa

L'invaginazione intestinale rappresenta una rara causa di occlusione intestinale nell'adulto in confronto alla relativa frequenza in età pediatrica. Ha un'incidenza approssimativa di circa l'1% delle occlusioni intestinali e di circa il 5-16% di tutte le invaginazioni. In circa il 90% dei casi si ritrova una causa organica dell'invaginazione (1), per lo più rappresentata da tumo-

ri benigni o maligni. Tra i tumori benigni ricordiamo il leiomioma, l'adenoma, il lipoma, l'amartoma a cellule di Brunner, l'emangioma, l'adenomioma, il neurofibroma e i tumori desmoidi; tra le lesioni maligne i linfomi, i rari casi di adenocarcinoma dell'intestino tenue, l'adenocarcinoma del colon, responsabile di invaginazioni colo-coliche, e rarissime neoplasie maligne metastatiche a localizzazione intestinale (ad esempio, melanoma) (2-5). È stata anche riportata come causa di invaginazione la presenza di un diverticolo di Meckel invertito (6). Nell'adulto le sedi più frequenti di invaginazione sono il segmento ileo-ciecale, l'ileo e il colon come localizzazione esclusiva.

Di seguito riportiamo la descrizione di un caso giunto alla nostra osservazione per la comparsa di dolori addominali.

Caso clinico

Giunge alla nostra osservazione un paziente maschio di 54 anni con riferito dolore addominale diffuso a tutti i quadranti e senso di precoce sazietà da circa dieci giorni, con nausea, vomito alimentare e alvo chiuso a feci e gas da circa due giorni.

Il paziente non presenta storia di pregressi interventi chirurgici addominali. All'esame obiettivo è sofferente, con addome disteso, non trattabile, con contrattura muscolare di difesa prevalentemente nei quadranti di destra dove si palpa una formazione di circa 15 cm di diametro; coesistono ipertimpanismo, assenza di peristalsi intestinale e rumori di guazzamento. All'esplorazione rettale l'ampolla risulta vuota. Al posizionamento di sondino naso-gastro segue la fuoriuscita di una discreta quantità di materiale bilio-enterico. Gli esami ematochimici evidenziano una leucocitosi neutrofila relativa (13.000 globuli bianchi).

Il paziente viene sottoposto a radiografia diretta dell'addome che dimostra livelli idroaerei del piccolo intestino senza evidenza di aria libera in addome. L'ecografia evidenzia abbondante versamento, libero intraddominale, anse del tenue distese ed un marcato ispessimento mesenteriale in fossa iliaca destra. Una TC *multislice* dell'addome orienta verso la diagnosi di invaginazione ileo-colica con dilatazione delle anse a monte, suggerendo la possibilità di una complicazione da diverticolo di Meckel (Figg. 1 e 2).

Dopo una opportuna terapia infusionale, abbiamo sottoposto il paziente a laparotomia d'urgenza lo stesso giorno del ricovero con diagnosi di occlusione intestinale da sospetta invaginazione ileo-colica. All'apertura della cavità addominale si rilevava la presenza di una discreta quantità di versamento sieroso; esisteva una marcata distensione delle anse del piccolo intestino a monte di una doppia invaginazione ileo-ileale e ileo-ciecocolica. Dopo un tentativo di disinvaginazione manuale, si optava per una resezione ileo-trasversaria asportando circa 20 cm di ileo prossimale all'invaginazione e il colon destro, risparmiando i vasi colici medi e facendo una ileo-trasversostomia latero-laterale con GIA 80.

All'apertura del pezzo operatorio si dimostravano a livello della doppia invaginazione un infarcimento emorragico della parete, sangue coagulato all'interno del lume intestinale e una formazione sessile dell'ileo del diametro di circa 2 cm in corrispondenza della testa dell'invaginato (Figg. 3 e 4).



Fig. 1 - TC *multislice* addominale: evidenza del polipo sottomucoso in corrispondenza della testa dell'invaginato (freccia).

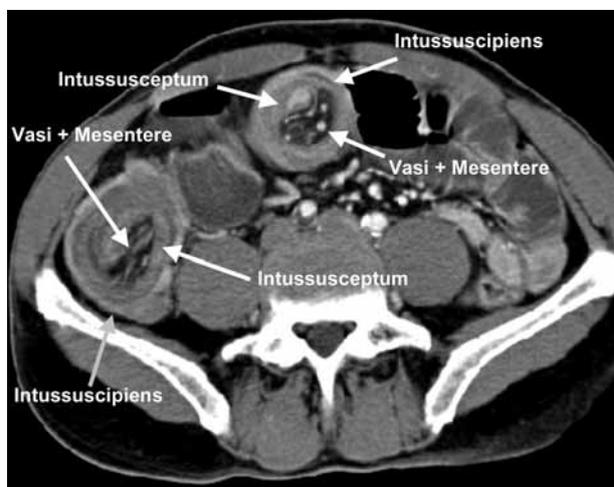


Fig. 2 - TC *multislice* addominale: evidenza dei segni radiologici di invaginazione con la caratteristica immagine "a bersaglio".

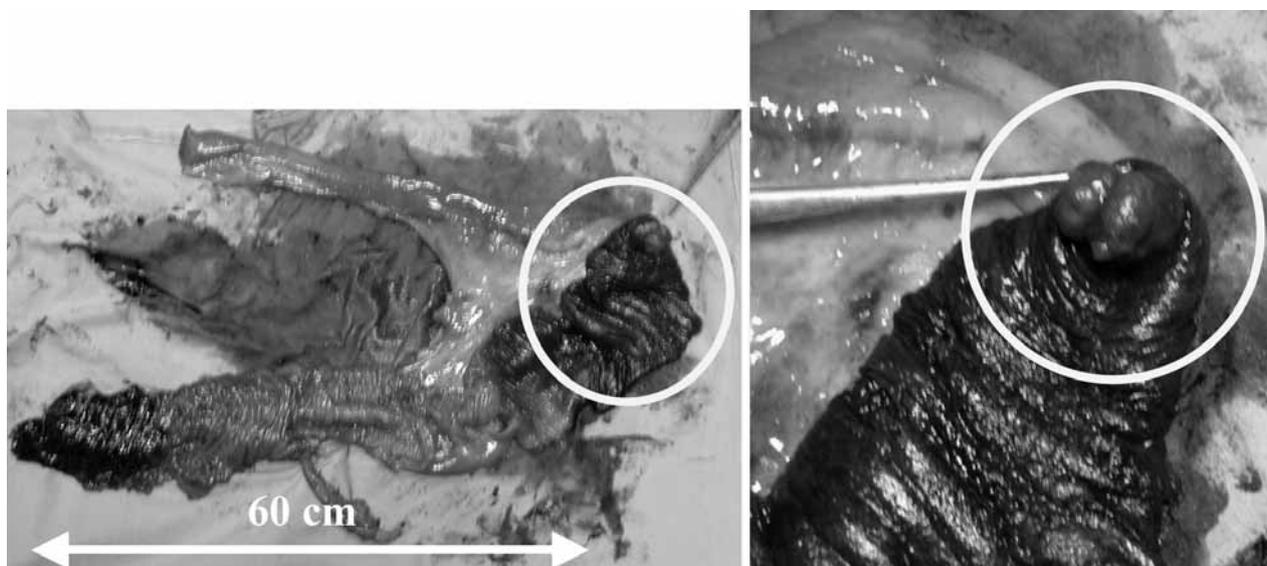


Fig. 3 - Reperito operatorio con il preparato chirurgico aperto (resezione ileo-colica). Si evidenzia il lipoma sottomucoso sulla testa dell'invaginato.

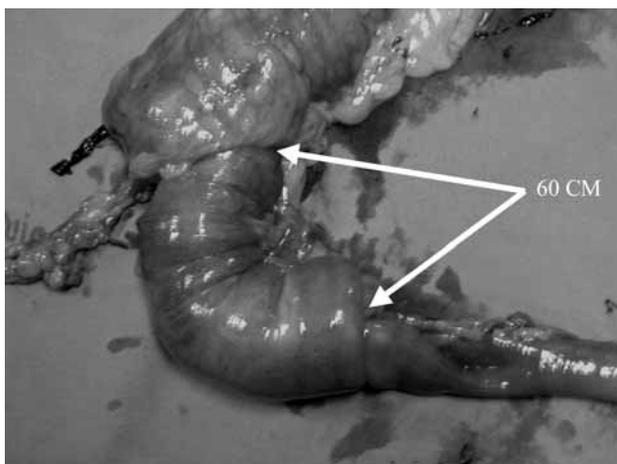


Fig. 4 - Reperto operatorio di doppia invaginazione ileo-ileale e ileo-ciecocolica. Le frecce indicano i due colletti.

Il decorso post-operatorio è stato regolare con dimissione del paziente in X giornata. L'esame istologico definitivo della formazione polipoide dimostrava un lipoma sottomucoso delle dimensioni di 2 cm.

Discussione

L'invaginazione intestinale è stata descritta per la prima volta nel 1674 da Barbet (7). John Hunter, nel 1789, la denominò "intussusception" presentandone tre casi. Hutchinson pubblicò il primo trattamento chirurgico con esito positivo nel 1871 (8).

L'invaginazione in età pediatrica è generalmente idiopatica; al contrario, nell'adulto, nel 90% circa dei casi esiste una causa organica (9-11). Le localizzazioni dell'invaginazione sono rappresentate dai punti di unione di segmenti intestinali mobili con segmenti fissi come la regione ileo-ciecale, sede più frequente. I segmenti fissi possono essere 'acquisiti' a causa di aderenze. La maggior parte delle invaginazioni si producono a carico dell'intestino tenue e sono causate più frequentemente da lesioni benigne. L'invaginazione idiopatica, variabile tra l'8 e il 20% dei casi, interessa con maggior frequenza il solo intestino tenue. Le lesioni maligne dell'intestino tenue (primarie o metastatiche) sono responsabili di invaginazione nel 6-30% dei casi (12-15). La doppia invaginazione rappresenta una variante rara con sporadiche segnalazioni in letteratura (16).

Mentre il quadro clinico nel bambino è ben conosciuto in relazione alla sua frequenza, nell'adulto l'invaginazione intestinale può manifestarsi con quadri clinici aspecifici. Nella serie di Bogos il 75% dei pazienti presentava sintomi ostruttivi, il 5% con addome acuto (1). All'esame obiettivo era possibile percepire una tumefazione addominale in circa un ter-

zo dei casi (1). La diagnosi preoperatoria di invaginazione intestinale è difficile nell'adulto. Spesso il paziente è operato con diagnosi generica di occlusione intestinale e la diagnosi di invaginazione è un reperto intraoperatorio. Nel caso da noi trattato, il quadro clinico era quello di un'occlusione intestinale con reperto palpatorio di tumefazione addominale e segni di peritonite. La TC *multislice* ci ha indirizzato verso la diagnosi preoperatoria di invaginazione ileo-colica. La doppia invaginazione è stato un reperto intraoperatorio.

La diagnostica strumentale in questi casi si avvale della radiologia tradizionale con o senza mezzo di contrasto, dell'ecografia e della TC (17-19). Segni caratteristici di invaginazione sono rappresentati in radiologia tradizionale dalla presenza di un'immagine gassosa a semiluna sull'estremo dell'invaginato, da dilatazione a monte delle anse ed eventualmente dall'evidenza di un transito del contrasto filiforme per stenosi nella sede dell'invaginazione. L'ecografia può in rare circostanze essere di aiuto evidenziando, come nel nostro caso, un ispessimento mesenteriale in regione iliaca destra. L'esame di riferimento è attualmente la TC che permette il più delle volte di rappresentare l'invaginazione in modo fedele, ricostruendo sia in sezioni trasversali che longitudinali i vari strati parietali intestinali dell'invaginato. Spesso è possibile evidenziare la lesione causa dell'invaginazione. Nel nostro caso soltanto con un'attenta analisi a posteriori delle immagini TC è stato possibile individuare la lesione polipoide localizzata sulla testa dell'invaginato (Figg. 1 e 2).

L'intervento chirurgico è sempre indicato nel trattamento delle invaginazioni dell'adulto anche in relazione alla quasi costante presenza di una lesione tumorale. La riduzione dell'invaginazione, quando possibile, permette l'enterotomia e l'asportazione della lesione. In caso di lesione maligna è necessario eseguire exeresi regulate. Nella maggior parte dei casi si procede direttamente all'exeresi nell'impossibilità di riduzione e in presenza di segni di marcata sofferenza parietale dell'intestino. La ricostruzione della continuità digestiva, soprattutto nelle localizzazioni ileo-ciecali, è sempre possibile senza la necessità di confezionare stomie di protezione (20-24).

Nel nostro caso il reperto di doppia invaginazione con segni di notevole sofferenza parietale ci ha indotti ad eseguire d'*emblée* una resezione ileo-colica allargata prossimalmente all'ileo per circa 20 cm dal livello in cui aveva inizio l'invaginazione. Sono stati risparmiati i vasi colici medi, ristabilendo la continuità intestinale con anastomosi latero-laterale meccanica: è stata, cioè, eseguita una emicolectomia destra tipica allargata sull'ileo.

Conclusioni

Seppur rara nell'adulto, l'invaginazione intestinale deve essere considerata nella diagnosi differenziale delle occlusioni intestinali soprattutto in presenza di una tumefazione palpabile in regione iliaca destra. La dia-

gnostica per immagini, e in particolar modo la TC *multislice*, può permettere una corretta diagnosi preoperatoria.

L'intervento chirurgico è sempre indicato in considerazione della presenza quasi costante di neoformazioni intestinali causa dell'invaginazione.

Bibliografia

1. Begos DG, Sandor A, Modlin IM. The diagnosis and management of adult intussusception. *Am J Surg* 1997;173:88-94.
2. Gill SS, Heuman DM, Mihas AA. Small intestinal neoplasm. *J Clin Gastroenterol* 2001; 33:267-82.
3. Kegelaers B, Storms P, Eyckens A, Sebrecchts R. Intussusception of vermiform appendix. A case report and review of the literature. *Acta Chirur Belg* 1996;96:287.
4. Vecchio R, Ferrara M, Mosca F, Ignoto A, Latteri F. Lipomas of the large bowel. *Eur J Surg* 1996;162:915-9.
5. Sokmen HM, Ince AT, Bolukbas C, Kilic G, Dalay R, Kurdas OO. A Peutz-Jeghers syndrome case with iron deficiency anemia and Jejunum-Jejunal invagination. *Turk J Gastroenterol* 2003;14:78-82.
6. Dujardin M, de Beeck BO, Osteaux M. Inverted Meckel's diverticulum as leading point for ileoileal intussusception in an adult: case report. *Abdom Imaging* 2002; 27(5):563-5.
7. Barbette P. *Oeuvres chirurgiques*, Geneva, Francois Miegé 1674; 5221.
8. Hutchinson J. A successful case of abdominal section for intussusception. *Proc Med Chir Soc* 1874;7:195-8.
9. De Monti M, Longhi F, Sgroi G, Ghilardi G. Non occlusive ileo-caecocolic intussusception caused by caecum cancer. *Case Report. Swiss Surg.* 1996; 2:201.
10. Taylor BA, Wolf BG. Colonic lipomas. Report of two unusual cases and review of the Mayo Clinic experience. *Dis Colon Rectum* 1987;30:888-93.
11. Baron Y, Priesack W, Sotje G, Brix F, Scheunemann C. Hemorrhagic lipoma with intermittent intussusception. *Eur J Radiol* 1996; 22:123-5.
12. Martin-Lorenzo JG, Torralba-Martinez A, Liron-Ruiz R, Flores-Pastor B, Miguel-Perello J, Aguilar-Jimenez J. Intestinal invagination in adults: properative diagnosis and management. *J Colorectal Dis* 2004; 19:68-72.
13. Corman ML. *Colon and Rectal Surgery*: 4th ed. Philadelphia, Lippincott-Raven 1998; 913-5.
14. Bardaji M, Roset F, Camps R, Sant F, Fernandez-Layos MJ. Symptomatic colonic lipoma: differential diagnosis of large bowel tumors. *Int J Colorectal Dis* 1998; 13:1-2.
15. Bathazatr EJ. CT of the gastrointestinal tract: principles and interpretation. *Am J Roentgenol* 1991; 156:23-32.
16. Sanges G, Bruno V, Urbano D, Sammartino S, Mainenti C, Latteri F. Ileo-ileo-colic invagination due to pure fibroma of intestine. Personal observation (author's transl). *Chir Ital* 1981;33(1):289-300.
17. Crozier F, Portier F, Wilshire P, Navarro-Biou A, Panuel M. CT scan diagnosis of colo-colic intussusception due to a lipoma of the left colon. *Ann Chir* 2002; 127(1):59-61.
18. Pohen U, Eberhardt H, Kruschewski M, Buhr HJ. Diagnostics and surgical therapy of enteric intussusception in adults illustrated by three cases. *Chirurg* 2003; 74(12):1117.
19. Zissin R. Enteroenteric intussusception secondary to a lipoma: CT diagnosis. *Emerg Radiol* 2004; 11(2):107-9.
20. Meshikhes AW, Al-Momen SA, Al Talaq FT, Al-Jarroof AH. Adult intussusception caused by a lipoma in the small bowel: report of a case. *Surg Today* 2005; 358(2):161-5.
21. Pinero Madrona A, Rios Zambudio A, Castellanos Escrig G, Carrasco Prats M, Parrilla Paricio P. Intestinal invagination in the adult. *Gastroenterol Hepatol* 1998; 21(8):398-400.
22. Triantopoulou C, Vassilaki A, Filippou D, Velonakis S, Dervernis C, Koulentianos E. Adult ileocolic intussusception secondary to a submucosal cecal lipoma. *Abdom Imaging* 2004; 29(4):426-8.
23. Lin CY, Chen HY, Jwo SC, Chan SC. Ileal angiomyolipoma as an unusual cause of small-intestinal intussusception. *J Gastroenterol* 2005; 40(2):200-3.
24. Park KT, Kim SH, Song TJ, Moon HY. Laparoscopic-assisted resection of ileal lipoma causing ileo-ileo-colic intussusception. *J Korean Med Sci* 2001; 16(1):119-22.