

siendo dada de alta a domicilio al sexto día postoperatorio.

La anatomía patológica informa de lesión tumoral en el *ostium* apendicular compatible con endometriosis en la base de la implantación del apéndice cecal, descartando enfermedad tumoral maligna. La paciente se encuentra asintomática en los seguimientos posteriores de revisión.

La endometriosis es la presencia de glándulas y estroma endometrial fuera de la cavidad uterina cuya patogenia genera controversia, postulándose 3 teorías: la metaplasia celómica, la menstruación retrógrada y la ectopia endometrial por difusión a través de vasos linfáticos y sanguíneos³.

Puede clasificarse como pélvica o extrapélvica, siendo la pélvica limitada a las trompas de Falopio, ovarios y peritoneo pélvico cercano, mientras que la extrapélvica incluye la endometriosis intestinal en sistema urinario, piel, pulmones, hígado, incluso cardíaca⁴.

La endometriosis del tracto gastrointestinal representa del 3 al 15% de los casos⁵, y se localiza con mayor frecuencia en la región rectal-sigmoidea, presentando en ocasiones una sintomatología inespecífica, incluyendo rectorragia, hematoquecia, dolor y obstrucción que puede llevar a realizar un despistaje de procesos tumorales.

La participación del apéndice en la endometriosis es infrecuente, representando entre el 2-3% de las endometriosis digestivas y un 1% del porcentaje global de las endometriosis⁵, muchas de ellas diagnosticadas tras la realización de una apendicectomía por sospecha de apendicitis. El caso que describimos, debido a los antecedentes digestivos de la paciente, pruebas de imagen y anatomía patológica inespecífica, orientamos el caso ante una posible lesión tumoral apendicular, probablemente un tumor carcinóide, al ser este el de mayor frecuencia¹. Se decidió realizar una hemicolectomía derecha laparoscópica, y es finalmente en el resultado anatomopatológico cuando se revela el verdadero diagnóstico, una endometriosis en la base de implantación cecal.

La literatura describe la afectación por endometriosis apendicular fundamentalmente a nivel del cuerpo y punta, afectando a la capa serosa o submucosa, siendo muy infrecuente su afectación endoluminal⁵ y su localización en el *ostium* apendicular. Su similitud en las pruebas de imagen con un tumor carcinóide, junto con su localización, y el carecer de una imagen patognomónica para su diagnóstico, dificultan la sospecha de esta enfermedad previa

a su cirugía. Si bien en nuestro caso, la endometriosis se encontraba en el *ostium* apendicular, esta puede presentarse como apendicitis aguda, perforación intestinal, intususcepción o como hemorragia digestiva baja, puede llegar a simular procesos oncológicos como mucocelos apendiculares o tumores carcinoides. Resaltamos el barajar entre las opciones diagnósticas de lesiones ileocecales y apendiculares a la endometriosis, si bien constituye un desafío diagnóstico preoperatorio, pero puede ayudar a evitar cirugías radicales o innecesarias.

Bibliografía

1. Landry C, Woodall C, Scoggins C, McMasters K, Martín R. Analysis of 900 appendiceal carcinoid tumors for a proposed predictive staging system. *Arch Surg.* 2008;143:664-770.
2. Molina GA, Ramos DR, Yu A, Paute PA, Llerena PS, Alexandra Valencia S. Endometriosis Mimicking a Cecum Mass with Complete Bowel Obstruction: An Infrequent Cause of Acute Abdomen. *Case Rep Surg.* 2019;2019:7024172, <http://dx.doi.org/10.1155/2019/7024172>.
3. Cobo Vázquez C, Marcauzco Quinto A, Manrique Muncio A, Justo Alonso I, Caso Maestro O, Calvo Pulido J, et al. Endometriosis apendicular Nuestra experiencia en los últimos 11 años. *Clin Invest Gin Obst.* 2018;45:151-6, <http://dx.doi.org/10.1016/j.gine.2017.03.003>.
4. Jubanyik KJ, Comite F. Extrapelvic endometriosis. *Obstet Gynecol Clin North Am.* 1997;24:411-40.
5. Emre A, Akbulut S, Yilmaz M, Bozdog I. An unusual cause of acute appendicitis: Appendiceal endometriosis. *Int J Surg Case Rep.* 2013;4:54-7.

Javier Gómez Sánchez*, Marisol Zurita Saavedra, Cristina Gonzalez Puga, Javier Gutierrez Sainz y Benito Mirón Pozo

Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Clínico San Cecilio, Granada, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: Javiergomezsanchez.jg@gmail.com (J. Gómez Sánchez).

<https://doi.org/10.1016/j.gastrohep.2019.06.006>
0210-5705/

© 2019 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Púrpura trombocitopénica inmune asociada a colitis ulcerosa inactiva en tratamiento crónico con adalimumab



Immune thrombocytopenic purpura associated with inactive ulcerative colitis in chronic treatment with adalimumab

Hemos leído con gran interés la carta de Brunet et al. aparecida en su revista¹. Como comentan los autores, la púrpura trombocitopénica inmune (PTI) es una manifestación

extraintestinal hematológica rara en la enfermedad inflamatoria intestinal (EII). En nuestro caso, presentamos una paciente con colitis ulcerosa de años de evolución en la que la PTI apareció a pesar de estar en tratamiento crónico con adalimumab y sin actividad digestiva, lo que añade una especial excepcionalidad y nos hace reflexionar sobre las distintas posibilidades etiopatogénicas del cuadro.

Mujer de 54 años diagnosticada de colitis ulcerosa izquierda en 2006. En su evolución figuraba tratamiento con mesalazina y azatioprina desde 2012, con ingreso en 2013 por brote grave sin respuesta a infliximab, que se resolvió con adalimumab a pauta habitual, siendo intensificada a 40 mg semanal en otoño del 2014 por actividad clínica.

En diciembre del 2016 se encontraba asintomática y con hemograma normal. En enero del 2017 ingresó por rectorragia sin diarrea, con anemia hasta 7,7 g/dl y plaquetas de 4000/ μ l. El bazo era normal en la ecografía. Se completó estudio de trombocitopenia aguda por Hematología con diagnóstico final de PTI e inició tratamiento con transfusión de plaquetas, gammaglobulina 1 g/kg/día durante 2 días y prednisona 1 mg/kg/día, en pauta descendente durante 2 meses, subiendo las plaquetas a cifras normales. El test para *Helicobacter pylori* fue negativo, así como las determinaciones víricas y de autoinmunidad. Se realizó colonoscopia completa, sin datos de actividad y con angiodisplasia rectal que fue tratada con argón. Fueron suspendidos la azatioprina y el adalimumab, si bien por brote clínico-endoscópico cuando dejó la prednisona se decidió reintroducirlos nuevamente. Desde entonces permanece asintomática y con cifras de plaquetas normales.

La incidencia de PTI en enfermos ya diagnosticados de EII es de 12,5/100.000 hab/año, estando aparentemente en relación con la intensidad de la afectación digestiva. La hipótesis etiológica más difundida es un aumento en la permeabilidad de la mucosa por la inflamación, con paso de antígenos bacterianos a la circulación que darían lugar a una respuesta humoral sistémica secundaria de tipo Th1¹. Se ha planteado la existencia de un mimetismo antigénico entre algunas proteínas de la superficie de las plaquetas y glucoproteínas bacterianas, originándose una respuesta inmune cruzada. Otro mecanismo podría ser el secuestro y la posterior destrucción directa de las plaquetas en la microvascularización colónica aumentada, lo que podría justificar la falta de anticuerpos, la resistencia a los corticoides y la resolución mediante colectomía encontrada en algunos casos². Estas dos teorías explicarían por qué la PTI aparece con mayor frecuencia cuando existe un brote de la EII. Sin embargo en nuestra paciente la PTI se desarrolló de manera abrupta y con quiescencia en su EII.

Esta situación llevó a plantearnos la posible relación del comienzo de su PTI con la medicación basal, a pesar de no haber habido cambios recientes. Aunque la azatioprina y la mesalazina que utilizaba pueden causar trombocitopenia por toxicidad medular, esta se catalogó de periférica por Hematología. La trombocitopenia grave por adalimumab se reconoce como anecdótica y mayoritariamente en enfermos que lo usaban para patologías distintas a la EII³; se refiere una incidencia de eventos con < 100.000 plaquetas para adalimumab de 0,1%⁴. El comienzo de la trombocitopenia tras más de 2 años con adalimumab y su no reaparición en la reintroducción controlada irían en contra de la etiología medicamentosa en nuestra paciente.

Otros autores apuestan por una relación genética entre la EII y la PTI mediante el complejo principal de histocompatibilidad, ya que la incidencia de PTI en pacientes con EII es mayor que en la población general, aceptándose como no

fortuita. Se describen polimorfismos en genes codificadores de la inmunidad que podrían ser compartidos entre PTI y EII⁵.

En conclusión, la PTI es una entidad muy infrecuente que se puede asociar a la EII. Hemos presentado un caso de esta asociación con características excepcionales como son su aparición a pesar de no existir actividad digestiva y de seguir tratamiento con adalimumab, así como su no reaparición tras volver a usar este fármaco, hechos que pondrían de manifiesto la falta de datos precisos acerca del mecanismo patogénico último por el que ambas entidades se asocian e interrelacionan.

Bibliografía

1. Brunet E, Martínez de Sola M, García-Iglesias P, Calvet X. Púrpura trombocitopénica inmune asociada a enfermedad de Crohn con respuesta completa a infliximab. *Gastroenterol Hepatol*. 2019;42:37–8, <http://dx.doi.org/10.1016/j.gastrohep.2018.01.011>. Epub 2018 Mar 7.
2. Chandra S, Finn S, Obah E. Immune thrombocytopenic purpura in ulcerative colitis: a case report and systematic review. *J Community Hosp Intern Med Perspect*. 2014;14(4.), <http://dx.doi.org/10.3402/jchimp.v4.23386>, eCollection 2014.
3. Bessissow T, Renard M, Hoffman I, Vermeire S, Rutgeerts P, Van Assche G. Review article: non-malignant haematological complications of anti-tumour necrosis factor alpha therapy. *Aliment Pharmacol Ther*. 2012;36:312–23, <http://dx.doi.org/10.1111/j.1365-2036.2012.05189.x>. Epub 2012 Jun 24.
4. Lee S, Chary M, Salehi I, Bansal R. Immune-mediated adalimumab-induced thrombocytopenia for the treatment of ulcerative colitis. *International Journal of Pharmacy and Pharmaceutical Sciences*. 2015;7:456–8, <https://innovareacademics.in/journals/index.php/ijpps/article/view/5351>.
5. Takahashi N, Saitoh T, Gotoh N, Nitta Y, Alkebsi L, Kasamatsu Tet al. The cytokine polymorphisms affecting Th1/Th2 increase the susceptibility to, and severity of, chronic ITP. *BMC Immunol*. 2017;18:26, <http://dx.doi.org/10.1186/s12865-017-0210-3>.

Benito Velayos Jiménez^{a,*}, Rebeca Cuello García^b, Lourdes del Olmo Martínez^a, Ana Macho Conesa^a y Luis Fernández Salazar^a

^a Servicio de Aparato Digestivo, Hospital Clínico de Valladolid, Valladolid, España

^b Servicio de Hematología, Hospital Clínico de Valladolid, Valladolid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: benitovelayos@hotmail.com (B. Velayos Jiménez).

<https://doi.org/10.1016/j.gastrohep.2019.07.003>
0210-5705/

© 2019 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.