

Su 13 casi di angiodisplasia dell'apparato digerente



Ann. Ital. Chir., LXXIII, 1, 2002

F.P. Mattioli, G.C. Torre, M. Puglisi

Università degli Studi di Genova
Clinica Chirurgica "R"
Dipartimento Discipline Chirurgiche e Metodologiche
Integrate

Le angiodisplasie dell'apparato digerente rappresentano un'entità nosologica sulla quale esistono soltanto scarse e relativamente poco documentate segnalazioni dalla bibliografia internazionale.

È per tale motivo che abbiamo fatto precedere a questa esposizione della nostra esperienza personale, una nota con l'intento di mettere a punto il problema rivedendo la letteratura disponibile (1).

Qui riportiamo i casi giunti alla nostra osservazione in circa un ventennio per contribuire alla conoscenza di questa patologia rara ed elusiva.

Materiale e metodo

Dal 1980 al 1998, 13 pazienti furono ricoverati d'urgenza presso la Clinica Chirurgica dell'Università di Genova per emorragia. Di questi 7 erano maschi e 6 femmine (età compresa fra 23 e 75 anni - età media anni 54). (Tab. I)

La localizzazione dell'angiodisplasia era in due casi prossimale (stomaco e duodeno), in 3 casi era interessato l'ileo terminale, in 6 casi il colon (5 casi il colon destro - 1 caso il colon sinistro), in due pazienti la localizzazione era rettale e in uno era a livello di colostomia iliacca sinistra.

In tutti i casi la diagnosi di accertazione era emorragia acuta.

Abstract

ABOUT 13 CASES OF GASTROINTESTINAL ANGIODYSPLASIA

Objective: this clinical study assesses the diagnostic and therapeutic problems entailed in so-called gastrointestinal angiodysplasias.

Summary back ground data: the topic presents numerous, still unresolved, issues:

- classification (its clinical presentation and classification);*
- anatomo-pathological identification;*
- diagnosis and localization;*
- treatment of patients with acute massive bleeding;*
- long-term outcomes.*

Materials and Methods: thirteen patients, equally distributed between both sexes and with a mean age of 54 years (range = 23-75), were observed and operated over a nearly 20 year period.

All patients had acute massive bleeding localized to the stomach, duodenum, ileum, colon and rectum. Diagnosis and localization were previously obtained in nine patients, mostly using selective angiography.

With the exception of two rectal localizations treated with embolization, all patients underwent surgical resection.

In two cases operated on without previous diagnosis, (rebleeding occurred).

Conclusion: the data available in the literature are broadly substantiated, even if the mean age reported seems somewhat lower (54yrs). Localizations were detected in nearly all segments of the gastrointestinal tract, and the indication to surgical resection possibly after detection of the angiodysplasia and source of bleeding is confirmed.

The best diagnostic technique is selective angiography.

Key words: Angiodysplasia, vascular ectasia, digestive hemorrhage.

Nella maggioranza dei casi, superata la fase d'urgenza emorragica, erano possibili accertamento diagnostico e l'intervento in urgenza differita.

Soltanto in tre casi (4-6-8) si rese necessario il trattamento d'urgenza immediato con riscontro diagnostico intraoperatorio.

Di questi il numero 4 ebbe una recidiva emorragica circa un anno dopo per focolaio angiodisplasico diagnosticato angiograficamente, localizzato nel colon destro (5).

Tab. I

<i>A</i> <i>paziente</i>	<i>B</i> <i>età</i>	<i>C</i> <i>sex</i>	<i>D</i> <i>sede</i>	<i>E</i> <i>sintomi</i>	<i>F</i> <i>diagnosi</i>	<i>G</i> <i>trattamento</i>	<i>H</i> <i>esito</i>
1 – S.G.	65	F	stomaco	ematemesi melena	endoscopia	asportazione gastrotomica	guarigione
2 – V.A.	38	M	duodeno	ematemesi melena	angiografica	resezione gastro-duodenale	guarigione
3 – F.B.	49	M	ileo-terminale	ematemesi melena	angiografica	resezione ileale	guarigione
4 – M.A.	23	F	ileo	melena	intraoperatoria	resezione ileale	ricidiva
5 – M.A.	24	F	ileo-colon dx	enterorragia	angiografica	reintervento resezione ileale emicolectomia dx	guarigione
6 – O.S.	44	F	colon dx	enterorragia	intraoperatoria	emicolectomia dx	guarigione
7 – M.S.	60	M	colon dx	enterorragia	angiografica	emicolectomia dx	guarigione
8 – S.U.	65	M	colon dx	enterorragia	intraoperatoria	emicolectomia dx	guarigione
9 – P.C.	54	F	colon dx	melena	angiografica	emicolectomia dx	ricidiva
10 – P.C.	70	F	colon sin.	enterorragia	endoscopica intraoperatoria	reintervento: micolectomia sin. (colectomia totale)	guarigione
11 – C.A.	70	M	retto	proctorragia	angiografica	embolizzazione	guarigione
12 – T.M.	65	M	retto	proctorragia	angiografica	embolizzazione	guarigione
13 – C.G.	75	M	colostomia ileale sin.	emorragia dallo stoma	Macroscopica	emostasi diretta	guarigione

Il numero 6, anch'esso trattato in urgenza, in base a dati macroscopici per transilluminazione e in base ai segmenti intestinali a contenuto emorragico, ebbe un'emicolectomia destra e in fase peroperatoria si eseguì l'angiografia del pezzo asportato (ileotermiale-colon destro) che dimostrava gli aspetti radiologici dell'angiodisplasia. (Fig. 1)

Di particolare interesse il numero 3, uomo di 49 anni che giunse in urgenza con ematemesi ed enterorragia per sanguinamento dal colon e da varici esofagee.

Lo studio del sistema portale metteva in evidenza ipertensione portale da iperafflusso (pressione sinusoidale: 39 cmH₂O - Pressione. postsinusoidale: 24,5 cm H₂O - flusso epatico totale: 25 ml/m²/kg - ossimetria venosa sovraepatica 87%).

L'angiografia dimostrava shunt artero-venoso nel territorio vascolare dell'ileocolica.

La soppressione dello shunt (resezione ileale) aboliva l'ipertensione portale e le varici esofagee.

È da notare anche il caso n. 9-10, nel quale dopo 16 anni dal primo intervento di emicolectomia destra, una nuova localizzazione nel colon residuo rese necessaria la colectomia totale.

Mentre la maggior parte dei casi dimostrava dal punto di vista macro e microscopico gli aspetti classici codificati dalla letteratura, lesioni poco più che puntiformi e aspetti istologici di ectasie vascolari con aspetti in qualche zona di comunicazione artero-venosa (Fig. 2), il caso numero 1 presentava elementi diversi soprattutto per le dimensioni della lesione. Si trattava di una paziente di 65 anni di età con anemia ipocromica iposideremica lentamente ingravescente fino a sfociare in un episodio acuto di ematemesi e melena. All'endoscopia: "for-



Fig. 1: In un colon destro da un'asportazione si è riusciti ad evidenziare l'angiodisplasia iniettando mezzo di contrasto nei vasi ed eseguendo un esame radiologico.

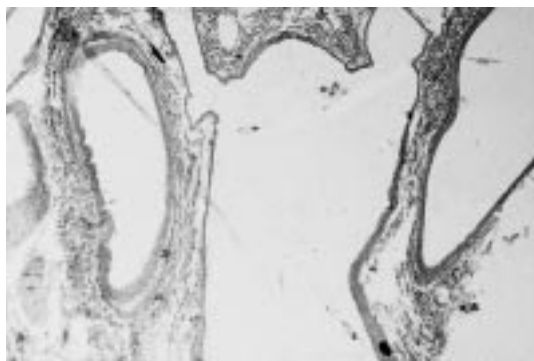


Fig. 2: Vedi testo.

mazione aggettante, morbida in sede prepilorica, di 3 cm circa di diametro con iperemia zonale dell'antro a raggiera, tipo water mellon syndrome.

Intervento chirurgico laparotomico: gastrotomia ed asportazione della lesione, che all'esame istologico risultava trattarsi di "ectasia vascolare della regione antrale dello stomaco".

Risultati

I casi descritti si riferiscono tutti a pazienti giunti alla nostra osservazione in urgenza per emorragia acuta grave. Di questi, 3 (i numeri 4-6-8) hanno obbligato ad un intervento d'urgenza per il persistere dell'emorragia, mentre per tutti gli altri si è avuta la possibilità di eseguire un intervento differito dopo aver realizzato un processo diagnostico.

Il primo degli interventi immediati (n. 4) riguardava una donna giovane (anni 23), che ebbe una resezione ileale, ma dopo un anno l'emorragia si ripresentò, in maniera tuttavia più attenuata, che permise lo studio angiografico. Sulla base di questo fu eseguita emicolectomia dx, senza ulteriori postumi.

Nel caso numero 6, (emicolectomia destra) fu eseguita l'angiografia del pezzo asportato: si ebbe la conferma dell'angiodisplasia e soprattutto si diede al patologo l'indicazione precisa del sito da esaminare. (Fig. 1)

La maggior parte dei casi riguarda, come localizzazione, il colon destro, comportando così una emicolectomia destra. È da segnalare il caso numero 9 che risanguinò ben 16 anni dopo per angiodisplasia diffusa al colon sinistro e fu pertanto necessaria la colectomia sinistra.

Dei tre casi a localizzazione ileale, si sottolinea ancora il numero 3, nel quale l'angiodisplasia evidentemente caratterizzata da ampi shunts arterovenosi aveva determinato uno stato di ipertensione portale da iperafflusso tale da determinare varici esofagee. Questo caso fu oggetto di pubblicazione (2).

Il caso numero 2 riguardava una localizzazione duodenale, che soltanto l'angiografia riuscì ad evidenziare, a differenza dell'endoscopia che risultò non contributiva in quanto la lesione non era visibile. L'importanza delle crisi emorragiche indusse alla resezione gastroduodenale, provvedimento che si rivelò risolutivo.

Il caso numero 1, come già descritto, può essere considerato una variante di GAVE (gastric antral vascular ectasia) (33, 34) che generalmente non presenta manifestazioni nodulari come nel caso in questione. Naturalmente la paziente è rimasta col suo antro gastrico zebrato ed è controllata con periodiche endoscopie.

Anche le due localizzazioni rettali (11-12) sono da prendere in considerazione perché dimostrano la validità del trattamento di embolizzazione.

Il caso numero 13 riguarda un paziente anziano portatore da anni di colostomia iliaca; l'emorragia copiosa fu interpretata come di origine colica ed esami endoscopici e radiologici furono eseguiti per scoprirne l'origine.

Finalmente ci si convinse che l'emorragia avveniva dall'estremo colico abboccato alla parete. L'asportazione di questo, abolì la sindrome emorragica e l'esame istologico confermò il quadro di angiodisplasia.

Discussione

I casi che abbiamo studiato suggeriscono alcune constatazioni, non tutte in accordo con la letteratura.

Infatti, mentre si conferma l'eguale partecipazione dei due sessi, per l'età osserviamo subito che soltanto tre pazienti superavano i 70 anni, e troviamo soggetti in età giovane (23 - 38 aa.) con un'età media di 54 anni piuttosto bassa rispetto ai dati della letteratura.

Altro elemento istruttivo è la localizzazione in più distretti dell'apparato digerente, come s'è visto, dallo stomaco e dal duodeno all'ileo, al colon, al retto, anche se, come in letteratura, il segmento più colpito è stato il colon destro (5 volte su 13).

Dal punto di vista anatomo-patologico, tutti i casi, ad eccezione del numero 1, hanno ricalcato le caratteristiche che la letteratura riporta: aspetti macroscopici spesso nemmeno rilevabili per l'esiguità della lesione, sia endoscopicamente sia all'ispezione diretta e tantomeno alcuna rilevazione palpatoria.

Nemmeno nel caso numero 13, nel quale l'angiodisplasia interessava l'estremo stomale di una colostomia iliaca, la lesione era in qualche modo evidente all'ispezione: soltanto per esclusione si arrivò a pensare che la fonte emorragica interessasse questo segmento e poi soltanto l'esame istologico confermava la diagnosi.

I quadri istologici osservati erano quelli della letteratura: più o meno grandi lacune vascolari nella sottomucosa con strutture venose e anche arteriose ed evidenza in qualche punto di comunicazione artero-venosa.

Come si è detto, il caso numero 1 era diverso dagli altri essenzialmente per le caratteristiche macroscopiche di formazione nodulare di ben 3 cm. aggettante sulla mucosa antrale, mentre l'aspetto istologico ricalcava, in quanto concerne la componente vascolare, quello degli altri casi. La presenza sulla superficie antrale degli aspetti tipici della water mellon syndrome e anche alcuni aspetti della struttura istologica conferiscono a questo caso caratteristiche diverse dagli altri, anche se a nostro modo di vedere classificabili tuttavia nel grande capitolo delle cosiddette angiodisplasie.

E a questo proposito è opportuno ripetere ancora che questo termine non dovrebbe essere assunto in senso stretto, ma perché comodo dal punto di vista nosologico e comunque certamente espressivo di situazioni derivanti da momenti patogenetici diversi.

Qualunque sia l'origine di tali lesioni, queste hanno un denominatore comune: l'emorragia, che spesso è grave. Tutti i casi da noi descritti sono giunti alla nostra osservazione in urgenza ed in tre casi (4-6-8) con necessità di intervento immediato.

Questo sarebbe sempre da evitare (ma non sempre è possibile), per il rischio di un intervento incompleto o addirittura errato. Ciò si è verificato nel nostro caso numero 4 (donna di 23 anni) nella quale una resezione ileale non è stata sufficiente ad impedire una recidiva emorragica per altre localizzazioni angiodisplastiche nel colon destro.

In effetti molti Autori suggeriscono interventi molto allargati, proprio per evitare il rischio di risanguinamenti e di reintervento. Addirittura Golligher arriva a suggerire per il colon, in caso di incertezza, la colectomia totale. Sembra fuori dubbio che il mezzo diagnostico più valido, quando possibile, sia l'angiografia selettiva: in fase emorragica per la diretta evidenza della fonte, in fase di quiescenza per la possibilità di evidenziare gli aspetti tipici della lesione vascolare.

Noi non abbiamo esperienza diretta di altri procedimenti terapeutici, non chirurgici, ma conoscendo la tendenza a risanguinare dopo il primo episodio di emorragia, pensiamo che il trattamento chirurgico, possibilmente pilotato, sia l'indicazione assoluta, nei casi come i nostri, nei quali l'emorragia grave era il sintomo cardine.

In particolari occasioni tuttavia come nei nostri due casi a localizzazione rettale (11, 12), l'embolizzazione appare come provvedimento valido.

Conclusioni

Poiché la letteratura non porta contributi sufficienti su questo argomento e d'altronde sono rari i casi documentati, anche se forse più frequenti nella pratica clinica di quanto riferito, abbiamo raccolto i casi da noi osservati in circa un ventennio, nei quali sicuramente lo studio clinico e anatomicopatologico avevano riscontrato un'angiodisplasia. In tutti i casi questa si è resa responsabile di un'emorragia digestiva importante, con ricovero e trattamento d'urgenza e in qualche caso anche con intervento chirurgico immediato.

Si è visto che il provvedimento chirurgico in prima istanza è gravato da possibili errori di localizzazione e soprattutto dal rischio di non riconoscere completamente le lesioni responsabili dell'emorragia. Questa considerazione è ampiamente ripresa dalla letteratura.

In ogni caso la diagnosi è difficile, soprattutto per le dimensioni minime di lesioni che tuttavia si rendono responsabili di gravi episodi emorragici.

Anche se la angiodisplasie possono non sanguinare mai, l'evidenza, magari occasionale, della lesione deve essere riconosciuta dal paziente, per facilitare il compito dei curanti in occasione di una possibile emorragia.

Se l'angiodisplasia ha sanguinato una volta, con frequenza risanguinerà e pertanto in tal caso si impone il trattamento chirurgico. Su questa serie da noi esposta le localizzazioni sono varie: duodeno, ileo, colon, retto. Ma il colon destro resta la sede elettiva in accordo con la letteratura. L'età dei soggetti da noi trattati è inferiore a quella che è riportata in bibliografia. Il trattamento chi-

urgico resettivo, in talune circostanze anche ampio, costituisce la terapia di elezione; in casi selezionati il trattamento endoscopico e l'embolizzazione possono rappresentare valide terapie alternative.

Riassunto

Obbiettivo

Questo studio clinico valuta i problemi diagnostici e terapeutici derivanti dalle cosiddette angiodisplasie dell'apparato digerente.

I dati della letteratura

L'argomento offre molti punti tuttora problematici:

- la collocazione nosografica
- L'identificazione anatomopatologica
- la diagnosi di natura e di sede
- il trattamento del paziente in urgenza emorragica
- gli esiti a distanza.

Materiali e metodi

13 pazienti osservati e operati in circa 20 anni, equamente distribuiti tra i due sessi, con un'età media di 54 a. (r.=23;75). Tutti in urgenza emorragica - sedi interessate: stomaco, duodeno, ileo, colon, retto - La diagnosi di sede e di natura è stata ottenuta preventivamente in 9 pazienti, nella maggior parte con angiografia selettiva. Ad eccezione di due localizzazioni rettali, trattate con embolizzazione, tutti i pazienti hanno subito intervento resettivo. In due casi, operati senza diagnosi preventiva, si è avuta recidiva emorragica e reintervento.

Conclusioni

Si confermano largamente i dati della letteratura; anche se l'età media nei casi riportati sembra inferiore (a. 54). Le localizzazioni interessano praticamente tutti i segmenti dell'apparato digerente e si conferma l'indicazione al trattamento chirurgico resettivo possibilmente dopo individuazione dell'angiodisplasia, fonte emorragica. La tecnica ottimale per la diagnosi di sede è l'angiografia selettiva. Parole chiave: Angiodisplasia, ectasia vascolare, emorragia digestiva.

Bibliografia

- 1) Mattioli F.P.: *Sulle cosiddette angiodisplasie dell'apparato digerente (messa a punto dell'argomento e revisione della letteratura)*. Annali Italiani di Chirurgia.
- 2) Iachino C., De Salvo L., Garlaschi G.: *Iperensione portale da iperafflusso: presentazione di un caso di angiodisplasia artero-venoso ileo-ciecolica*. Ital Chir, XXXII (5):1120, 1980.

Commento

Commentary

Prof. Antonio RUSSO

Ordinario di Chirurgia

Università degli Studi di Catania

Gli AA. riportano 13 casi di emorragie gastrointestinali (G.I.) secondarie ad anomalie vascolari osservate nell'arco di 18 anni. Tre aspetti particolari caratterizzano questa importante casistica: le cosiddette angiodisplasie erano localizzate in quasi tutti i segmenti del tubo digerente; in tutti i pazienti il quadro clinico era caratterizzato da emorragia massiva; tutti i pazienti tranne due furono trattati chirurgicamente. Diversi sono gli elementi clinici che caratterizzano la maggior parte delle casistiche sino ad ora apparse in letteratura. I pazienti con ectasie vascolari del tratto alto dell'apparato digerente, fatta eccezione di qualche raro caso di ematemesi massima, presentano quasi sempre un sanguinamento cronico ben compensato mentre solo il 15% delle lesioni coliche si manifestano con una emorragia acuta massiva (1). Queste classiche caratteristiche sintomatologiche permettono di trattare la malattia seguendo tre precisi momenti: 1) adottare un work-up diagnostico ben codificato (valutazione clinica, esplorazione endoscopica e studio angiografico), 2) convertire una situazione di emergenza in una di elezione mediante il controllo della emorragia acuta, 3) trattare la anomalia vascolare mediante le tecniche endoscopiche (Nd-Yag laser, Argon beam, Heater probe, Gold probe, BICAP) o in alternativa mediante la chirurgia. Come ho già detto in un commento scritto per un altro articolo apparso su Annali (2) l'approccio endoscopico gioca oggi un ruolo terapeutico preminente nell'arrestare l'evento emorragico e può essere sostituito nei di pazienti ad alto rischio, che presentano emorragie acute massive, con la embolizzazione angiografica dei rami delle arterie mesenteriche. Due pazienti della presente casistica sono stati trattati con questa terapia. La chirurgica resta il trattamento di scelta quando la anomalia vascolare è stata accertata sia con l'endoscopia che con l'angiografia ed 1) i pazienti continuano a sanguinare nonostante terapie farmacologiche 2), non è disponibile un endoscopista esperto in tecniche di emostasi e 3), la terapia endoscopica non ha avuto successo o non è realizzabile per problemi di ordine tecnico.

The authors report 13 cases of gastrointestinal (G.I.) vascular ectasia observed and treated during 18 years. Three main aspects characterize this important series: the so-called angiodysplasias were localized in nearly all segment of G.I. tract; a massive hemorrhage occurred in all patients and finally all but two patients had a surgical therapy. Conversely in most published series different features are reported. Patients with upper tract vascular ectasia present with compensated chronic bleeding and only around 15% of colonic lesions present with acute massive hemorrhage (1). These clinical features allow to manage the disease following three established phases: 1) perform a well designed diagnostic work-up (clinical evaluation, endoscopic observation and angiographic study), 2) convert the emergency situation to an elective one by control of the acute hemorrhage, 3) treat the ectasia by endoscopic obliteration techniques (Nd-Yag laser, Argon beam, Heater probe, Gold probe, BICAP); and in alternative only by surgical removal. As I said in a comment written for another paper issued in this Journal (2) endoscopic approach plays today a preminent therapeutic role for stopping bleeding while in some severely ill patients with acute massive hemorrhage transcatheter embolization after selective cannulation of the mesenteric arteries branches can be successfully accomplished. Two patients in the present series received this last therapeutic approach. Surgery must remain the treatment of choice for a patient who bled and whose ectasia has been identified by either endoscopy or angiography if 1) the bleeding continues, 2) an endoscopist experienced in transendoscopic ablation is not available, and 3) endoscopic ablation has been unsuccessful or is not feasible for technical reasons.

Bibliografia

- 1) De Markles M., Murphy J.: *Acute lower gastrointestinal bleeding*. Med Clin North Am, 77:1085, 1993.
- 2) Montesano G., Bertagni A., Gallinaro L. et al.: *L'angiodisplasia del grosso intestino: una rara localizzazione*. Ann It Chir, LXXI 5:609, 2000.

Autore corrispondente:

Prof. Francescopaolo MATTIOLI

Via Orsini, 40/A

16146 GENOVA

