

# Úlcera rectal solitaria como causa infrecuente de rectorragia

M. Blanco Rodríguez<sup>1</sup>, S. Rado Peralta<sup>1</sup>, C. Ruiz Serrano<sup>1</sup>, S. Córdova<sup>2</sup>, G. Pérez Tejerizo<sup>3</sup>  
<sup>1</sup>Servicios de Pediatría, <sup>2</sup>Anatomía Patológica y <sup>3</sup>Cirugía Pediátrica. Fundación Jiménez Díaz-CAPIO. Universidad Autónoma de Madrid

## Resumen

La úlcera rectal solitaria es un trastorno crónico, benigno, excepcional en pediatría, caracterizado por un conjunto de síntomas, como tenesmo, dolor perianal y prolapso rectal ocasional, con unos hallazgos anatomopatológicos típicos. La histología pone de manifiesto un engrosamiento de la mucosa y la *muscularis mucosae*, la elongación y distorsión de las glándulas, un edema de la lámina propia y, a veces, una ulceración de la lesión. Las lesiones se localizan con frecuencia en la pared anterior del recto, y la ulceración no siempre está presente. El diagnóstico suele ser tardío, dada la inespecificidad y la variabilidad clínica, y se basa en los estudios endoscópicos e histológicos. Aunque se trata de una entidad bien conocida en la edad adulta, resulta inusual en pediatría. Presentamos el caso de un adolescente de 16 años diagnosticado 4 años después del inicio de los síntomas.

©2011 Ediciones Mayo, S.A. Todos los derechos reservados.

## Palabras clave

Rectorragia, úlcera rectal solitaria, tenesmo

## Introducción

El síndrome de úlcera rectal solitaria (SURS) es un trastorno excepcional en pediatría que se caracteriza por unos hallazgos clínicos e histológicos muy característicos. Suele presentarse como un cuadro de rectorragia, tenesmo, estreñimiento y molestias en la región perianal<sup>1-6</sup>. Se estima una frecuencia de 1 caso por cada 100.000 habitantes al año, y la mayoría de pacientes tienen entre 20 y 35 años de edad. Hay datos que sugieren un trastorno básico de la defecación, con prolapso de la mucosa rectal a través del músculo puborrectal en contracción, como consecuencia del aumento de la presión intraabdominal y el consiguiente estrangulamiento de la mucosa con congestión, edema y ulceración, sobre todo en la cara anterior del recto<sup>6</sup>. Es habitual que se confunda con otras patologías, como la enfermedad inflamatoria intestinal y, por ello, se demora su diagnóstico hasta años después de la primera consulta. No

## Abstract

*Title:* Solitary rectal ulcer syndrome as a rare cause of rectal bleeding

Solitary rectal ulcer syndrome is a rare condition in children, with benign chronic course that is characterised by a complex of clinical and histological features. It usually appears with rectal bleeding, tenesmus and perianal pain, occasional rectal prolapse and typical anatomopathological findings. Histologically, the presence of thickening of the mucous portion and *muscularis mucosae*, elongation and distortion of the glands and edema of the lamina propria and occasionally, ulceration of the lesion. The lesions are most often located on the anterior wall of the rectum, and ulceration is not always present. The diagnosis is usually delayed due to the nonspecific and clinical variability and is based on samples obtained by colonoscopy and biopsy. Although this entity is well recognized in adults, there are few pediatric cases reported in literature. We report a 16 year-old boy case who was diagnosed 4 years after the onset of the symptoms.

©2011 Ediciones Mayo, S.A. All rights reserved.

## Keywords

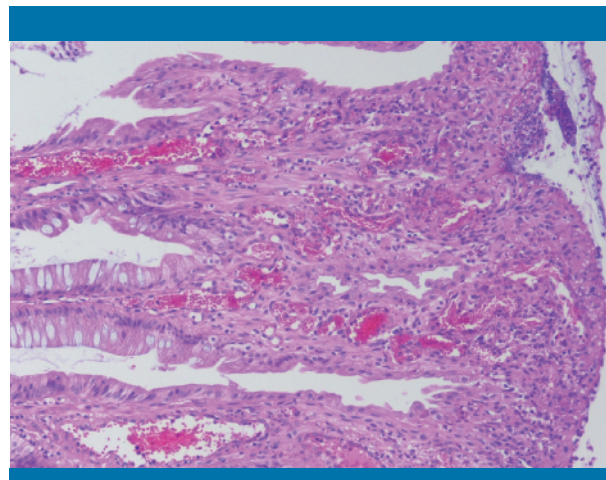
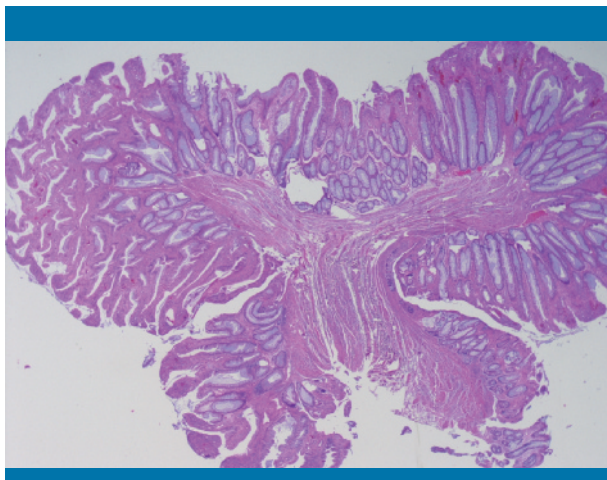
Solitary rectal ulcer, rectorragia, tenesmus

existe consenso sobre el tratamiento más adecuado y los resultados son poco satisfactorios.

Describimos el caso de un adolescente con clínica de tenesmo y rectorragia desde los 12 años de edad, que fue diagnosticado de SURS a los 16 años.

## Caso clínico

Varón de 16 años de edad, que consultó por la presencia de tenesmo, dolor hipogástrico y rectorragia desde hacía 4 años. Refería emisión escasa de sangre roja con las heces, o con el esfuerzo defecatorio, de hasta seis veces al día, alternando con periodos de estreñimiento. No mostraba pérdida de peso, fiebre, artralgias, aftas orales, uveítis, lesiones cutáneas ni sangrado en otra localización. Presentaba asma alérgica y trastorno por défi-



**Figuras 1 y 2.** Engrosamiento de la mucosa con elongación y distorsión de las glándulas y engrosamiento de la muscularis mucosae, con extensión de las fibras musculares verticalmente hacia las criptas

cit de atención. Tres años antes le habían realizado una colonoscopia, informada como normal en la documentación presentada.

No tenía antecedentes familiares de interés.

La exploración física, incluido el tacto rectal, fue normal, así como la analítica: hemograma, bioquímica sanguínea con perfil férrico, estudio de enfermedad celiaca, IgE específica a alimentos y reactivos de fase aguda. El coprocultivo y los parásitos en heces fueron negativos. La colonoscopia puso de manifiesto un eritema y erosiones en la mucosa rectal, cuyo estudio anatomopatológico mostró cambios inflamatorios inespecíficos.

Dos meses después, y ante la persistencia de los síntomas, se realizó una rectoscopia que demostró una lesión solitaria, erosiva, superficial y recubierta de fibrina, en la cara lateral del recto, a unos 5 cm del orificio anal. El estudio anatomopatológico demostró la presencia de hiperplasia críptica, infiltrado inflamatorio mononuclear linfocitario con eosinófilos en la lámina propia e hiperplasia de la *muscularis mucosae*, con verticalización de los haces y signos de erosión superficial (figuras 1 y 2). Estos hallazgos indicaban la presencia de una úlcera rectal solitaria.

## Discusión

El SURS es un trastorno crónico benigno, de escasa incidencia en la edad pediátrica. Se caracteriza por los referidos datos clínicos y los hallazgos endoscópicos e histológicos característicos<sup>1-7</sup>. Su manifestación más frecuente es la rectorragia (en el 60-80% de los casos), que suele ser leve y a menudo asociada a un esfuerzo defecatorio. Con frecuencia se acompaña de expulsión de moco (20-75%), dolor rectal y tenesmo. La mayoría de los pacientes refieren dificultad para defecar (63%), con múltiples intentos y largos periodos de tiempo invertidos en

realizarlo, y en ocasiones urgencia defecatoria y episodios de estreñimiento (55%)<sup>8-10</sup>. Puede haber prolapso rectal, acompañado de sensación de obstrucción o taponamiento distal<sup>11</sup>. El paciente del presente caso refería una historia de años de evolución de una ocasional emisión de sangre fresca y moco con el esfuerzo defecatorio varias veces al día, junto con dolor abdominal y tenesmo, alternando episodios de diarrea y estreñimiento.

Para su diagnóstico es fundamental realizar una rectoscopia y una toma de biopsias, lo que no siempre se efectúa por pensar que el hallazgo endoscópico macroscópico es consecuencia de la invasión instrumental. Probablemente, las lesiones rectales sean secundarias al prolapso intestinal y a la isquemia, asociados al esfuerzo defecatorio. El aspecto de dichas lesiones es muy variable y su localización principal es la pared anterior del recto. A menudo existe una ulceración de la mucosa, con eritema y congestión perilesional, aunque en ocasiones se observen lesiones múltiples o eritema superficial. Lo más característico es la normalidad del resto de la mucosa rectocólica, y es conveniente para establecer el diagnóstico tomar biopsias de las lesiones observadas endoscópicamente y de las áreas vecinas, de aspecto normal<sup>9</sup>. En el estudio anatomopatológico destaca un engrosamiento de la mucosa con elongación y distorsión de las glándulas. La lámina propia, edematosa, contiene una proliferación variable de fibroblastos y existe un engrosamiento de la *muscularis mucosae* y una extensión vertical de las fibras musculares hacia las criptas.

Hay pocos casos descritos en la edad pediátrica, y no existen guías ni protocolos consensuados de tratamiento. Las bases del tratamiento de estos pacientes son: medidas higiénico-dietéticas, fármacos, *biofeedback* y cirugía<sup>12</sup>. En general, la respuesta terapéutica es limitada y suelen producirse recurrencias. Se debe tranquilizar al paciente y su familia, explicándoles la benignidad de la patología, suprimir los factores ambien-

tales psicológicos que suelen reforzar la sintomatología, seguir una dieta rica en fibra y, en ocasiones, emplear laxantes. En adultos se han empleado enemas de corticoides y sulfasalazina, sin resultados alentadores; en niños no se han realizado estudios con estos fármacos<sup>13</sup>. En los casos en que no se obtenga respuesta con el tratamiento anterior y exista prolapso rectal, podría ser necesario recurrir a la cirugía y realizar una rectopexia, que ha demostrado mejoría en un 40-60% de los pacientes adultos, aunque tampoco evita las recurrencias. En general, se plantea el tratamiento quirúrgico sólo en los casos floridos que no han conseguido mejorar tras un año de tratamiento médico.

En este paciente se inició tratamiento higiénico-dietético, asociado a psicoterapia y laxantes, y hasta ahora la evolución ha sido satisfactoria.

Debido a la rareza de esta patología en la edad pediátrica y a su probable infradiagnóstico en los sujetos con pocos síntomas, el interés de este caso se centra en la importancia de evitar otras pruebas diagnósticas invasivas y seguimientos irrelevantes, así como asegurar la benignidad del diagnóstico al biopsiar tanto las lesiones rectales como la mucosa circundante. El estudio histológico mostrará los cambios típicos de esta entidad y permitirá descartar otras patologías de mayor gravedad que puedan requerir tratamiento específico. ■

## Bibliografía

1. Keshtgar AS. Solitary rectal ulcer syndrome in children. *Eur J Gastroenterol Hepatol.* 2008; 20: 89-92.
2. Dehghani SM, Haghighat M, Imanieh MH, Geramizadeh B. Solitary rectal ulcer syndrome in children: a prospective study of cases from southern Iran. *Eur J Gastroenterol Hepatol.* 2008; 20: 93-95.
3. Gabra HO, Roberts JP, Variend S, Shawis RN. Solitary rectal ulcer syndrome in children. A report of three cases. *Eur J Pediatr Surg.* 2005; 15: 213-216.
4. Ertem D, Acar Y, Karaa EK, Pehlivanoglu E. A rare case often unrecognized cause of hematochezia and tenesmus in childhood: solitary rectal ulcer syndrome. *Pediatrics.* 2002; 110: e79.
5. Crespo L, Moreira V, Redondo C, López A, Milicua JM. «Enfermedad de las tres mentiras»: síndrome de la úlcera rectal solitaria. *Rev Esp Enf Dig.* 2007; 99: 663-666.
6. Martín de Carpi J, Vilar P, Varea V. Solitary rectal ulcer syndrome in childhood: a rare, benign, and misdiagnosed cause of rectal bleeding. Report of three cases. *Dis Colon Rectum.* 2007; 50: 534-539.
7. Oku T, Maeda M, Ihara H, Umeda I, Kitaoka K, Waga E, et al. Clinical endoscopic features of acute hemorrhagic rectal ulcer. *J Gastroenterol.* 2006; 41: 962-970.
8. Rivas J, Robles MI, Costilla L, Peña L, Báez JM, Garrido F. Síndrome de la úlcera rectal solitaria. *Cir Esp.* 2001; 69: 510-513.
9. Figueroa-Colon R, Younoszai MK, Mitros FA. Solitary ulcer syndrome of the rectum in children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 1989; 8: 408-412.
10. De la Rubia L, Villaespesa AR, Cebrero M. Solitary rectal ulcer syndrome in children. *J Pediatr.* 1993; 122: 733-736.
11. Sifakas C, Vottler TP, Andersen JM. Rectal prolapse in pediatrics. *Clin Pediatr.* 1999; 38: 63-72.
12. Sitzler PJ, Kamm MA, Nicholls RJ, McKee RF. Long term clinical outcome of surgery for solitary rectal ulcer syndrome. *Br J Surg.* 1998; 85: 1.246-1.250.
13. Kumar M, Puri AS, Srivastava R, Yachha SK. Solitary rectal ulcer in a child treated with local sulfasalazine. *Indian Pediatr.* 1994; 31: 1.553-1.555.