

Resolución por videolaparoscopia del síndrome de ligamento arcuato en pediatría

C. Patiño González, M.E. Balacco, S. Contreras, M.F. Toledo, S. Boetsch, H. Arrieta, G. Crespo, E. Romero Manteola

Sanatorio Allende. Córdoba (Argentina).

RESUMEN

El síndrome de ligamento arcuato medio caracterizado por dolor posprandial se debe a la compresión del tronco celíaco por dicho ligamento. En pediatría su presentación es infrecuente.

Niña de 14 años con dolor abdominal recurrente. Se diagnosticó por ecografía un aumento de la velocidad del flujo del tronco celíaco con inversión de flujo. La angiogramografía evidenció la compresión. Su resolución fue quirúrgica mediante la sección del ligamento arcuato por videolaparoscopia. Los síntomas desaparecieron inmediatamente luego de la cirugía y no recurrieron en 24 meses de seguimiento.

El ligamento arcuato es una banda fibrosa en la crura diafragmática. El nacimiento del tronco celíaco en la aorta supradiaphragmática conlleva que este ligamento comprima durante la espiración con isquemia distal transitoria. El diagnóstico se realiza con ecografía Doppler del tronco celíaco o angiogramografía, entre otros. La resolución quirúrgica consiste en la sección del ligamento arcuato.

Este síndrome debe tenerse en cuenta ante un caso de dolor abdominal recurrente. La vía laparoscópica es sugerida para el tratamiento.

PALABRAS CLAVE: Dolor abdominal; Arteria celíaca; Síndrome de ligamento arcuato medio; Pediatría; Laparoscopia.

VIDEOLAPAROSCOPIC MANAGEMENT OF ARCUATE LIGAMENT SYNDROME IN PEDIATRIC PATIENTS

ABSTRACT

Median arcuate ligament syndrome, which is characterized by postprandial pain, occurs as a result of the compression of the celiac trunk by the ligament. It is a rare pathology in pediatric patients.

We present the case of a 14-year-old girl with recurrent abdominal pain. Ultrasound examination showed an increase in celiac trunk flow rate with flow reversal, while CT angiography demonstrated compres-

sion. It was surgically managed by dividing the arcuate ligament through videolaparoscopy. Symptoms disappeared right after surgery and did not reappear in the 24-month follow-up.

The arcuate ligament is a fibrous band located at the level of the diaphragmatic crus. The fact that the celiac trunk originates at the supradiaphragmatic aorta makes the ligament exert compression during expiration, with transitory distal ischemia. Diagnosis is achieved through Doppler ultrasonography of the celiac trunk or CT angiography, among others. Surgical management involves dividing the arcuate ligament.

This syndrome should be considered in the presence of recurrent abdominal pain. The laparoscopic route is the treatment approach suggested.

KEY WORDS: Abdominal pain; Celiac artery; Median arcuate ligament syndrome; Pediatrics; Laparoscopy.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de ligamento arcuato medio (SLAM) se caracteriza por dolor posprandial, náuseas, vómitos y pérdida de peso. En su etiología se describe el nacimiento alto del tronco celíaco en la aorta, por encima o a la altura del ligamento arcuato, como así también una anomalía en las fibras del ligamento. Esto genera isquemia transitoria a nivel de la arteria por compresión durante la excursión respiratoria. Su presentación en pediatría es infrecuente⁽¹⁻⁵⁾.

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo femenino de 14 años de edad con dolor abdominal recurrente (DAR) localizado en epigastrio, posprandial. No presentaba antecedentes patológicos previos y refería que el dolor se manifestó de manera inespecífica dos o tres meses antes de la internación actual. Al examen físico se auscultaba un soplo a nivel epigástrico variable con la respiración. La ecografía evidenció a nivel de tronco celíaco (TC) el aumento de la velocidad del flujo en espiración completa con velocidades cercanas a los 448 cm/seg (velocidad media normal del flujo en TC 103 ± 18 cm/seg) e inversión de flujo a nivel de arteria hepática y esplénica⁽⁶⁾. Se realizó tomografía

Correspondencia: Dra. Celeste Patiño González. Pedro Simón Laplace 5749. Villa Belgrano. CP: 5000. Córdoba. Argentina.
E-mail: celestecarolina@hotmail.com

La presentación de este caso ganó el primer premio del módulo "Trucos en cirugía y procedimientos novedosos" en el 52° Congreso Argentino de Cirugía Pediátrica (ACACIP) en octubre 2018.

Recibido: Julio 2019

Aceptado: Agosto 2020



Figura 1. Angiotomografía en inspiración, corte sagital (flecha roja: tronco celíaco).

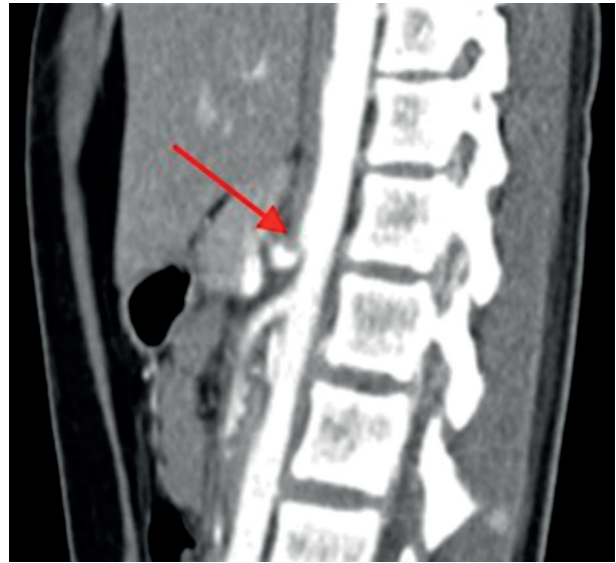


Figura 2. Angiotomografía en espiración, corte sagital (flecha roja: tronco celíaco).

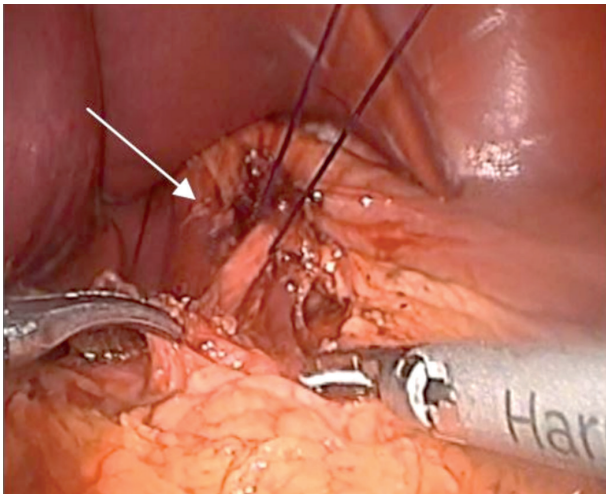


Figura 3. Tracción de arteria gástrica izquierda (flecha blanca).

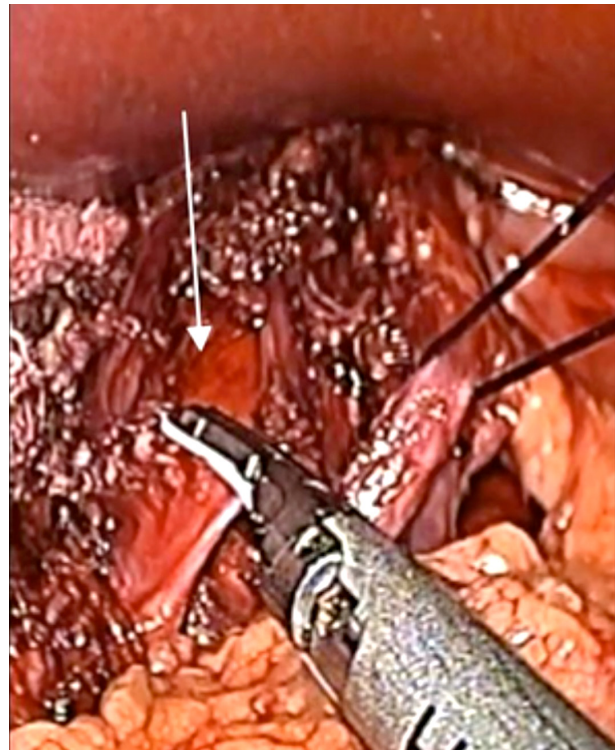


Figura 4. Sección del ligamento arcuato medio con bisturí ultrasónico (flecha blanca).

axial computarizada con contraste endovenoso. En los cortes realizados en inspiración el TC presentó un diámetro en plano sagital de 3 mm (Fig. 1), mientras que en espiración presentó aspecto filiforme de 1,3 mm (Fig. 2). Confirmado el diagnóstico de compresión del TC por el ligamento se definió la conducta quirúrgica. Se decidió el abordaje videolaparoscópico para la liberación del TC. Se colocó un trocar umbilical para la utilización de óptica de 10 mm con visión de 30° y 3 trocres de 5 mm: uno en flanco derecho, uno en flanco izquierdo y el restante en epigastrio. A través del ligamento gastrohepático se identificaron los pilares del diafragma. Se traccionó la arteria gástrica izquierda (Fig. 3) y se disecó la confluencia con arteria esplénica para facilitar la identificación del TC hasta su nacimiento en la aorta. A este nivel se visualizó el ligamento

arcuato que comprimía la cara anterior del TC y se seccionó el ligamento con bisturí ultrasónico (armónico) (Fig. 4). El tiempo quirúrgico total fue de 80 minutos. La paciente tuvo una buena evolución posoperatoria. En el control a los 30 días la paciente no refirió recurrencia de síntomas. La ecografía

mostró una velocidad de flujo del TC aún alterada, de 350 cm/seg sin repercusión a nivel del flujo de arteria hepática y esplénica. Veinticuatro meses después de la cirugía permanece asintomática y normalizó el flujo en las ecografías.

DISCUSIÓN

El ligamento arcuato es una banda fibrosa ubicada a nivel de la crura diafragmática. En la mayoría de los seres humanos el TC nace de la aorta abdominal por debajo del ligamento. En un 33% de los casos se origina por encima de este ligamento, predisponiendo a la compresión acentuada durante la espiración^(1,3,7). Entre las posibles etiologías de este síndrome, podría deberse al nacimiento alto del TC, como también a una posición más caudal de la crura. También el tejido conectivo se vuelve fibroso por la compresión crónica, lo que favorece la estenosis gradual del TC^(3,8). Esto se relaciona a una isquemia a causa del flujo deteriorado o un fenómeno de robo vascular a nivel de la circulación esplénica. La compresión además produce afectación del ganglio celíaco y del plexo celíaco que puede relacionarse con la persistencia de los síntomas y en algunos casos con diarreas crónicas^(8,9).

El SLAM también se conoce como síndrome de Dunbar^(10,11). Este autor fue el primero en reportar una serie de casos donde evidenció mediante aortografía la compresión del TC, asociado a pacientes con síntomas abdominales⁽¹¹⁾. Se caracteriza por DAR con frecuencia posprandial, epigástrico, asociado a náuseas y vómitos. Hay pérdida de peso y en algunos casos diarrea^(3,8). El examen físico suele ser normal y puede auscultarse un soplo a nivel epigástrico que varía con la respiración. Afecta con más frecuencia a mujeres entre los 20 y 40 años⁽¹⁾. Nuestra paciente presentó todos los síntomas típicos, incluyendo el soplo.

El DAR se definió como dolor abdominal que supera los dos meses de duración. Los diagnósticos diferenciales que se plantean ante un niño con DAR son múltiples y ampliamente descritos en la bibliografía. Podríamos mencionar entre las causas anatómicas: malrotación intestinal, litiasis biliar, membrana duodenal, o bien causas inflamatorias o infecciosas que causan dolor abdominal de localización epigástrica, entre las que encontramos gastritis, úlcera gástrica, úlcera duodenal, infección por *Helicobacter pylori*, entre otros⁽¹²⁾. Afortunadamente en nuestro caso la selección del método complementario nos permitió llegar al diagnóstico rápidamente.

Entre los métodos complementarios se describen la ecografía con Doppler del tronco celíaco, angiografía, angiorresonancia magnética y angiotomografía axial computarizada con contraste endovenoso. El *gold standard* para el diagnóstico es la arteriografía aórtica lateral con medición de los gradientes de presión a nivel de la arteria. Sin embargo, la combinación entre la ecografía Doppler y la angiotomografía con fase inspiratoria y espiratoria siendo menos invasivos nos acercan a un diagnóstico certero⁽⁴⁾. La ecografía Doppler se debe realizar con espiración profunda e inspiración profunda y medir las

velocidades de flujo a nivel de la arteria celíaca. Una estenosis significativa es sospechada cuando las velocidades son superiores a 200 cm/seg⁽³⁾. Nuestra paciente presentó alteración a la ecografía, registrándose velocidades de más de 440 cm/seg a nivel de la arteria celíaca, además de la inversión de flujo a nivel de la arteria hepática y esplénica. Mediante la angiotomografía, en los cortes sagitales es posible evidenciar el estrechamiento focal del TC y su dilatación posterior. Las imágenes en inspiración profunda y espiración profunda muestran la diferencia característica⁽¹³⁾. Para nosotros este estudio fue de gran utilidad, permitiendo la visualización de la compresión de la arteria por parte del ligamento arcuato.

La angiografía es un buen método diagnóstico y al mismo tiempo permite realizar tratamientos endovasculares, con pobres resultados como única terapéutica debido a que el origen de este síndrome es la compresión extrínseca de las fibras diafragmáticas⁽¹⁴⁾.

Otros métodos diagnósticos descritos son la angiorresonancia magnética y la tonometría gástrica, poco usados en niños^(4,14,15).

El objetivo del tratamiento es la descompresión mediante sección del ligamento y en algunos casos puede acompañarse de una derivación vascular. El abordaje quirúrgico puede ser convencional o videolaparoscópico^(16,17). La técnica videolaparoscópica ofrece una mejor visualización del plexo celíaco, rápida recuperación y corta hospitalización^(3,16,17). Si bien la tasa de conversión está reportada en menos del 15%, hay que tener en cuenta el daño potencial en la pared del vaso. La disección debe ser cuidadosa, sobre todo al rodear el tronco celíaco en su totalidad para liberarlo de bandas fibrosas accesorias al ligamento arcuato^(1,18). En nuestro caso el abordaje laparoscópico permitió una excelente visualización. La mejoría de los síntomas está descrita en un 90% de los casos en el primer año posquirúrgico. La falta de respuesta al tratamiento quirúrgico podría deberse a que la compresión extrínseca crónica produce alteraciones en la pared del vaso, con hiperplasia de la íntima, proliferación de fibras elásticas y desorganización de la adventicia. En estos casos se sugiere un manejo endovascular con angioplastia con o sin colocación de *stent* o un procedimiento de reconstrucción vascular abierta con *bypass* aorto-celíaco^(19,20). Los casos pediátricos reportados no requirieron la derivación vascular. Esto podría deberse a que se actúa antes de que la obstrucción afecte la pared del vaso^(2,4,21). El seguimiento debe incluir a largo plazo ecografía Doppler. Nuestra paciente se encuentra asintomática después de 24 meses de la cirugía con normalización del Doppler del TC.

CONCLUSIÓN

El SLAM, debido a su escasa frecuencia en pediatría, debe tenerse en cuenta entre los diagnósticos diferenciales ante un caso de DAR. La vía laparoscópica es la técnica sugerida para el tratamiento, ya que ofrece una adecuada visualización de las estructuras anatómicas y rápida recuperación del paciente.

BIBLIOGRAFÍA

1. Riess KP, Serck L, Gundersen SB, Sergi M, Kothari SN. Seconds from disaster: lessons learned from laparoscopic release of the median arcuate ligament. *Surg Endosc.* 2009; 23: 1121-4.
2. Joyce DD, Antiel RM, Oderich G, Gloviczki P, Tung J, Grothe R, et al. Pediatric median arcuate ligament syndrome: surgical outcomes and quality of life. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2014; 24: 104-10.
3. Aschenbach R, Basche S, Vogl TJ. Compression of the celiac trunk caused by median arcuate ligament in children and adolescent subjects: evaluation with contrast-enhanced MR angiography and comparison with Doppler US evaluation. *J Vasc Interv Radiol.* 2011; 22: 556-61.
4. Mak GZ, Speaker C, Anderson K, Stiles-Shields C, Lorenz J, Drossos T, et al. Median arcuate ligament syndrome in the pediatric population. *J Pediatr Surg.* 2013; 48: 2261-70.
5. Schweizer P, Berger S, Schweizer M, Schaefer J, Beck O. Arcuate ligament vascular compression syndrome in infants and children. *J Pediatr Surg.* 2005; 40: 1616-22.
6. Cuenca Morón B, García González M, Garre Sánchez M, Gil Grande L, Gómez Rodríguez R, López Cano A, Souto Ruza J. Tratado de ultrasonografía abdominal. Asociación Española de Ecografía Digestiva. 2010; 7: 126-7.
7. Lindner HH, Kemprud E. A clinicoanatomical study of the arcuate ligament of the diaphragm. *Arch Surg.* 1971; 103: 600-5.
8. Foertsch T, Koch A, Singer H, Lang W. Celiac trunk compression syndrome requiring surgery in 3 adolescent patients. *J Pediatr Surg.* 2007; 42: 709-13.
9. Wolfman D, Bluth EI, Sossaman J. Median arcuate ligament syndrome. *J Ultrasound Med.* 2003; 22: 1377-80.
10. Muqetadnan M, Amer S, Rahman A, Nusrat S, Hassan S. Celiac artery compression syndrome. *Case Rep Gastrointest Med.* 2013; 2013: 934052.
11. Dunbar JD, Molnar W, Beman FF, Marable SA. Compression of the celiac trunk and abdominal angina. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med.* 1965; 95: 731-44.
12. Tornero O, Yago F, García Rodríguez C, Pereda Pérez A. Dolor abdominal crónico y recurrente. Protocolos diagnóstico-terapéuticos de gastroenterología, hepatología y nutrición pediátrica. Asociación Española de Pediatría. 2017; 4: 29-35.
13. Horton KM, Talamini MA, Fishman EK. Median arcuate ligament syndrome: evaluation with CT angiography. *Radiographics.* 2005; 25: 1177-82.
14. San Norberto EM, Montes JM, Romero A, Núñez E, Vaquero C. Síndrome del ligamento arcuato medio: a propósito de tres casos y revisión de la literatura. *Angiología.* 2012; 64: 167-72.
15. Mensink PBF, van Petersen AS, Kolkman JJ, Otte JA, Huisman AB, Geelkerken RH. Gastric exercise tonometry: the key investigation in patients with suspected celiac artery compression syndrome. *J Vasc Surg.* 2006; 44: 277-81.
16. Rubinkiewicz M, Ramakrishnan P, Henry B, Roy J, Budzyski A. Laparoscopic decompression as treatment for median arcuate ligament syndrome. *Ann R Coll Surg Engl.* 2015; 97: e96-9.
17. Roayaie S, Jossart G, Gitlitz D, Lamparello P, Hollier L, Gagner M. Laparoscopic release of celiac artery compression syndrome facilitated by laparoscopic ultrasound scanning to confirm restoration of flow. *J Vasc Surg.* 2000; 32: 814-7.
18. Tulloch AW, Jiménez JC, Lawrence PF, Dutson EP, Moore WS, Rigberg DA, et al. Laparoscopic versus open celiac ganglionectomy in patients with median arcuate ligament syndrome. *J Vasc Surg.* 2010; 52: 1283-9.
19. Reilly LM, Ammar AD, Stoney RJ, Ehrenfeld WK. Late results following operative repair for celiac artery compression syndrome. *J Vasc Surg.* 1985; 2: 79-91.
20. Van Petersen A, Meerwaldt R, Beuk R, Kolkman J, Geelkerken R. "Re: Management of median arcuate ligament syndrome: a new paradigm". *Ann Vasc Surg.* 2010; 24: 699-700.
21. El-Hayek KM, Titus J, Bui A, Mastracci T, Kroh M. Laparoscopic median arcuate ligament release: are we improving symptoms? *J Am Coll Surg.* 2013; 216: 272-9.