

ANGIOLOGIA

Síndrome de Dunbar

Compresión del tronco celiaco

Dres. RAUL C. PRADERI y CESAR PEREYRA BORRELLI *

En 1965 David Dunbar (10) —un radiólogo de Columbus, Ohio— junto con Molner, Beman y Marable, describió en 15 pacientes un síndrome caracterizado por dolor epigástrico sin irradiaciones particulares; a veces postprandial, otras veces alejado de las comidas. Sin trastornos funcionales claros, podría aparecer después de esfuerzo físico. Estaría acompañado en muchos casos de pérdida de peso.

En el examen físico se encuentra a veces un soplo epigástrico. En estos enfermos el estudio radiológico de perfil o tres cuartos (16) enfocando lateralmente el origen del tronco celiaco, permite apreciar una muesca en la cara anterior del vaso. Esta muesca está determinada por el arco aórtico del diafragma o los nervios del plexo solar que comprimen el tronco celiaco cuando su origen es alto (10, 22, 32).

La liberación quirúrgica de la arteria mediante sección del arco fibroso determinaría la desaparición operatoria del frémito.

Las aortografías de perfil postoperatorias, revelarían la desaparición de la muesca en la arteria. Los enfermos curarían desapareciendo el dolor.

Para aceptar los conceptos de estos autores hay que probar tres hechos:

- 1º) La compresión por estructuras anatómicas o patológicas del tronco celiaco.
- 2º) La existencia de este fenómeno en los pacientes que sufren, y su ausencia en los individuos normales.
- 3º) Su curación después de la liberación arterial confirmada radiológicamente.

Demostradas estas premisas, se explicaría el dolor por isquemia arterial y la curación por restablecimiento del flujo.

Pero la explicación no es tan sencilla.

No olvidemos que la ligadura del tronco celiaco que fue realizada por Wanke (34) en la cirrosis; por Appleby (1) en el cáncer gástrico, y por Rob (30) en los aneurismas toracoabdominales de aorta, es compatible con la vida y no se acompaña de morbilidad, pues existen muchas anastomosis normales con las otras arterias del abdomen, sobre todo con la mesentérica superior por intermedio de la arteria gastroduodenal. Este hecho se

aprecia claramente en cualquier arteriografía selectiva de la hepática (16) o la mesentérica superior y ha sido estudiada en todos sus detalles por los anatomistas (24, 25, 29).

Teóricamente la obstrucción del tronco celiaco no implicaría isquemia siempre que esté permeable la mesentérica superior.

Más concretamente Mikkelsen (26), Dick (8), Fry (13), Morris (27), Rob (31) y otros, han establecido que la estenosis de un solo tronco visceral abdominal no determina isquemia. Desde luego que para que exista angor abdominal, las estenosis arteriales deben ser totales o casi totales y progresivas, pues una estenosis total aguda sin circulación colateral provoca un infarto intestinal (5).

El otro hecho difícil de explicar es la vaguedad del síndrome clínico que determinaría isquemia gástrica o hepática; de ellas la primera prácticamente no existe y la segunda es difícil de definir clínicamente en sus formas incompletas. La otra explicación sería que el tronco celiaco obstruido en su origen, robase sangre por la gastroduodenal a la mesentérica superior provocando una isquemia intestinal. Pero el cuadro de estos enfermos no corresponde a un angor intestinal típico.

—Los hechos anatómicos son reales. La compresión del tronco celiaco por el arco aórtico según Lindner (19) fue descrita por primera vez por Lipshutz (20) en 1917.

En realidad fue estudiada en la detallada obra de Rio Branco publicada en 1912 (29). Este autor encontró el origen del tronco celiaco por encima del arco aórtico en tres casos y relata las observaciones similares de Quain en 1844, Rauber en 1898 y Rossi y Cova.

Publicaciones anatómicas recientes (19) señalan el origen del tronco celiaco a la altura o por encima de la arcada diafragmática en el 33 % de los casos.

—La existencia de compresión arterial fue probada radiológicamente u operatoriamente por muchos autores (2, 3, 4, 7), aunque en algunos casos parece deberse a la compresión por el puente nervioso que anastomosa entre sí a los dos ganglios semilunares.

Harjola (15) ya había publicado antes que Dunbar un caso de estenosis por fibrosis retroperitoneal. Existen otros mecanismos de estenosis y compresión del tronco celiaco: hiperplasia de la media, compresión por tumor pancreático o pancreatitis crónica, fibrosis retroperitoneal secundaria, etc. (5). Pero la causa más común de estenosis del tronco celiaco es la ateromatosis ostial.

Según Derrick (6) hay placas gruesas en el 44 % de las autopsias sistemáticas. No sería

* Profesor Adjunto de Cirugía e Instructor de Semiología Quirúrgica. Fac. Med. Montevideo.

Presentado en la Sociedad de Cirugía del Uruguay el 28 de junio de 1972.

Separatas: Dr. R. Praderi; Mones Roses 6435, Montevideo.

rara la asociación de este mecanismo con la compresión diafragmática.

Desde el trabajo de Dunbar se han sucedido muchas publicaciones sobre el tema del primer grupo de investigadores (22, 23) y de otros (2, 3, 4, 7, 14, 17, 18, 21, 23).

Pero hay autores que niegan enfáticamente la realidad de este síndrome dada la fisiopatología poco clara del mismo, señalando la contraprueba, es decir que hay estenosis radiológicas asintomáticas, etc. (9), o simplemente dudando de su existencia (11, 12).

Relataremos a continuación una observación personal que hemos clasificado como síndrome de Dunbar.

CASO CLÍNICO

P. F., 66 años. Raza: negra. Nº R. Casmu 399.783.

Comienza con dolor topografiado en epigastrio, persistente, intenso, con irradiación dorsolumbar y flanco izquierdo, que se intensifica por la noche. No tiene relación con las ingestas. Sin cronología diaria evidente, salvo la exacerbación nocturna referida. Cuando aparece tiene duración variable, uno o más días; a veces pasa períodos similares sin dolor.

No se calma comiendo (dieta de gástrico) ni con protectores de la mucosa gástrica, ni anticolinérgicos. Se alivia parcialmente con analgésicos vía rectal o i/m.

No relaciona su dolor con los esfuerzos, no trabaja desde hace meses.

No ha tenido trastornos en la deglución, no sialorrea.

Repercusión general importante: anorexia, astenia, adelgazamiento.

Manifiesta que padece su sufrimiento desde hace 2 años aproximadamente, pero que en los últimos meses se ha intensificado. El dolor se ha hecho intolerable, y desde hace 2 meses no calma con la medicación y dieta ya referidas.

El tránsito intestinal y urinario no tienen particularidades.

En febrero de 1970 consulta por dolores epigástricos intensos, sin ritmo horario. Se realizan estudios radiológicos, de estómago, vesícula, colon y aparato urinario que son normales. La aortografía muestra dolicoaorta y colaterales permeables pero sinuosas. El electrocardiograma es normal.

El dolor persiste, se interna en Sanatorio del Casmu; estudio de porfinuria es normal. Se piensa en ese momento que pueda corresponder su dolor a sufrimiento isquémico arterial. Se medica con Roniacol Retard. Mejora transitoriamente.

En diciembre de 1970 comienza nuevamente con epigastralgia, con igual irradiación. Funcional gástrico, Coprofuncional normales. Como el paciente es portador de espondiloartrosis vertebrolumbodorsal, se le hace feniltazona y corticoides i/m.

En febrero de 1971, tiene manifestaciones clínicas de sufrimiento gastroduodenal. La radiografía parece mostrar un úlcus gástrico. Mejora transitoriamente con dieta y medica-

ción. Dos estudios sucesivos de G.D. no muestran ninguna lesión.

Interpretando su sufrimiento como vertebral, se le practica en julio de 1971 Roentgenterapia, persiste igual. Se hace consulta con siquiátra que lo encara como un síndrome depresivo, con manifestaciones somáticas. Se indica Niamid.

En enero de 1972, ante la persistencia de sufrimiento, es enviado a uno de nosotros (C.P.).

Examen.—Lúcido. Parco en sus expresiones. Piel: tinte racial. Mucosas coloreadas. Prótesis dentaria. Halo senil. Adelgazado. Edad somática mayor que la cronológica. Relata dolor en epigastrio espontáneo, moderado en el momento actual, con irradiación posterior. Dolor palpatorio con la misma topografía. Se palpa latido aórtico en epigastrio, no se ausculta soplo. No se palpa hígado ni bazo. Orificios herniarios s/p.

Fosas lumbares s/p. Resto del examen abdominal s/p.

Tacto rectal: s/p. Cuello: s/p.

C.V. P.A. 14/8. Pulso 80 p.m. Corazón: todos algo alejados.

Respiratorio: murmullo a/v disminuido.

Resto del examen gral. s/p.

En suma.—Paciente de 66 años portador de dolor crónico en epigastrio y región vertebrolumbodorsal, estudiado en forma exhaustiva, lo mismo que medicado, sin aportes positivos



FIG. 1.—Aortografía de frente. Se aprecia la sinuosidad de la aorta y todas las ramas viscerales.

por el examen físico. Frente a la persistencia de los síntomas se plantean dos diagnósticos: sufrimiento por isquemia en el sector digestivo alto o cáncer de cuerpo de páncreas.

La arteriografía selectiva no se pudo realizar por la flexuosidad de su aorta (Fig. 1).

El E.C.G. mostró extrasístoles ventriculares.

Se decidió por consiguiente explorar el abdomen.

Operación: 17-II-972. Anestesia general. Dr. M. Marx,

Dres. R. Praderi, C. Pereyra y L. Crespo.

Mediana supraumbilical. La exploración de todo el vientre es absolutamente normal. La arteria mesentérica late perfectamente. Existe una dolicoaorta como se ve en la arteriografía. Llama la atención un grosero frémito a nivel de la arteria hepática común. Se libera el tronco celiaco y sus ramas, constatando que existe una compresión a nivel del plexo solar y del anillo aórtico del diafragma. Se practica la liberación de todo el tronco celiaco y sus ramas. Desaparece totalmente el frémito.

Cierre de la pared abdominal.

Cursa un postoperatorio sin incidentes y desaparece totalmente el sufrimiento epigástrico. El paciente se recupera y aumenta de peso. Está actualmente muy bien. No precisó más analgésicos.

COMENTARIO

Aunque la documentación radiológica fue insuficiente, la presencia del frémito, la compresión arterial y la desaparición de los dolores, nos hacen pensar en la realidad de la existencia de este síndrome clínico.

Por otra parte, la ya señalada extensa casuística similar publicada en la literatura, prueban que este misterioso síndrome es relativamente frecuente. Por otra parte la exploración operatoria de estos enfermos es útil para descartar una patología asociada. En cuanto al procedimiento quirúrgico es sencillo e inocuo si no se cometen graves errores técnicos. Por eso creemos que aunque hay casos de compresión aórtica por el anillo diafragmático sin sufrimiento, y aunque este síndrome no cumple los preceptos de Mikkelsen, la cantidad de casos clínicos publicados similares a éste, con curación, demuestran que esta afección existe aunque no sea clara su fisiopatología.

RESUMEN

Un paciente de 66 años con dolores intensos de epigastrio que obligaron a tratarlo con analgésicos potentes, fue estudiado exhaustivamente no encontrándose explicación para su dolor. La aortografía mostró una dolicoaorta. No fue posible hacer angiografía selectiva del tronco celiaco pues tenía arterias muy sinuosas. Tampoco se practicaron aortografías de perfil. En la intervención no se encontraron lesiones viscerales pero sí una dilatación e importante frémito en la arteria hepática. Se hizo la liberación del tronco celiaco a nivel del anillo aórtico. Desapareció el frémito en la operación y el dolor en el postoperatorio. La afección fue clasificada como un síndrome de Dunbar.

RÉSUMÉ

Un patient de 66 ans présentant des douleurs épigastriques intenses qui durent être traitées par des analgésiques puissants, fut étudié d'une manière exhaustive sans que l'on put trouver une explication à sa douleur. Il ne fut pas possible de faire une angiographie sélective du tronc coeliaque car les iliaques et l'aorte étaient très sinueuses. On ne put pas non plus pratiquer une aortographie de profil. Au cours de l'opération on ne trouva pas de lésions viscérales mais par contre un important frémissement dans l'artère hépatique. On procéda à une libération du tronc coeliaque au niveau de l'anneau aortique. Le frémissement disparut grâce à l'opération et la douleur dans le post-opératoire. L'affection fut classée comme syndrome de Dunbar.

SUMMARY

A 66 years-old patient, with such acute epigastric pain that he had to be treated with strong analgesics, was exhaustively studied, but no explanation to his pain was found. It was not possible to perform selective angiography of celiac trunk by reason of highly sinuous iliaes and aorta. Nor were profile aortographies, possible. No visceral lesions were found during surgery, but an important fremitus of hepatic artery was discovered. Celiac trunk was liberated at level of the aortic ring. Fremitus disappeared during surgery and pain during post-operative period. The case was classified as Dunbar's syndrome.

BIBLIOGRAFIA

- APPLEBY, L. The coeliac axis in the expansion of the operation for gastric carcinoma. *Cancer*, 6: 704, 1953.
- BOBBIO, A., ZANELLA, E. Compresion stenosis of the celiac axis. Long term results of surgical decompression. *Surg. Italy*, 1: 176, 1971.
- CAREY, J., STEMMER, E., CONNOLLY, J. Median arcuate ligament syndrome. *Arch. Surg.*, 99: 441, 1969.
- CHARRETTE, E., IYENGAR, S., LYNN, R., PALOSCHI, G., WEST, R. Abdominal pain associated with celiac artery compression. *Surg. Gynec. Obst.*, 132: 1009, 1971.
- DEBRAY, C., LEYMARIOS, J. L'artère mésentérique supérieure. Paris. Expansion Scient. 1965.
- DERRICK, J., POLLARD, H., MOORE, R. The pattern of arteriosclerotic narrowing of the celiac and superior mesenteric arteries. *Ann. Surg.*, 149: 684, 1959.
- DEUTSCH, V. Compression of the coeliac trunk and the angiographic evaluation of its hemodynamic significance. *Clin. Rad.*, 19: 309, 1968.
- DICK, A., GRAFF, R., GREGG, D., PETERS, N., SARNER, M. An angiographic study of mesenteric arterial disease. *Gut*, 8: 206, 1967.
- DRAPANAS, T., BRON, K. Stenosis of the celiac artery. *Ann. Surg.*, 164: 1085, 1966.
- DUNBAR, J., MOLNAR, W., BEMAN, F., MARABLE, S. Compression of the celiac trunk and abdominal angina. *Am. J. Roentgen*, 95: 731, 1965.
- Editorial. Compression of coeliac axis. *Brit. Med. Jour.*, 4: 378, 1971.
- EDWARDS, A., HAMILTON, J., NICHOLS, W., TAYLOR, G., DAWSON, A. Experience with coeliac axis compression syndromes. *Brit. Med. Jour.*, 1: 342, 1970.

13. FRY, W., KRAFT, R. Visceral Angina. *Surg. Gyn. Obst.*, 117: 417, 1963.
14. GAUTIER, R., BARRIE, J., SARRAZIN, R. Les angoris abdominaux non athéromateux: a propos de deux cas. *Lyon Chir.*, 61: 893, 1965.
15. HARJOLA, P. A rare obstruction of the coeliac artery. *Ann. Chir. Gynec. Fennias.*, 52: 547, 1963.
16. HEPP, J., HERNANDEZ, G., MOREAUX, J., BISMUTH, H. L'arteriographie dans les affections chirurgicales du foie, du pancréas et de la rate. Paris. Masson. 1965.
17. HIVET, M., LAGADEC, B., POILLEUX, J. Chirurgie des artères digestives. Paris. Expansion Scient., 1970.
18. HOUDARD, C., CARLES, J., HELENON, CH., BOSCHET, P. A propos d'un cas de compression extrinsèque du tronc coeliaque. *J. Chir.*, 99: 19, 1970.
19. LINDNER, H., KEMPRUD, E. A clinico anatomical study of the arcuate ligament of the diaphragm. *Arch. Surg.*, 103: 600, 1971.
20. LIPSHUTZ, B. A composite study of the celiac axis artery. *Ann. Surg.*, 65: 159, 1917.
21. LORD, R., STONEY, R., WYLIE, E. Coeliac axis compression. *Lancet*, 2: 195, 1968.
22. MARABLE, S., MOLNAR, W., BEMAN, F. Abdominal pain secondary to coeliac axis compressing. *Amer. J. Surg.*, 111: 493, 1960.
23. MARABLE, B., KAPLAN, M., BEMAN, F., MOLNAR, W. Celiac compression syndrome. *Amer. J. Surg.*, 115: 97, 1968.
24. MICHELS, N. Blood supply and anatomy of the upper abdominal organs. Philadelphia. Lippincott. 1955.
25. MICHELS, N. The anatomic variations of the arterial pancreaticoduodenal arcades. *Jour. Inter. Coll. Surg.*, 37: 13, 1962.
26. MIKKELSEN, W. Intestinal angina. Diagnostic and surgical treatment. *Amer. J. Surg.*, 176: 89, 1961.
27. MORRIS, G., DE BAKEY, M. Abdominal angina diagnosis and surgical treatment. *Amer. J. Surg.*, 176: 89, 1961.
28. REUTER, S., OLIN, T. Stenosis of the celiac artery. *Radiology*, 85: 617, 1965.
29. RIO BRANCO, P. Essai sur l'anatomie et la médecine opératoire du tronc coeliaque et de ses branches. De l'artère hépatique en particulier. Paris Steinheil, 1912.
30. ROB, C., WOMEN, K. Ligation of both the coeliac axis and superior mesenteric artery with survival of the patient. *Brit. Jour. Surg.*, 44: 247, 1956.
31. ROB, CH. Stenosis and thrombosis of the celiac and mesenteric arteries. *Amer. J. Surg.*, 114: 363, 1967.
32. SNYDER, M., MAHONEY, E., ROB, C. Symptomatic celiac artery stenosis due to constriction by the neuro fibrous tissue of the celiac ganglion. *Surgery*, 61: 372, 1967.
33. STONEY, R., WYLIE, E. Recognition and surgical management of visceral ischemic syndromes. *Ann. Surg.*, 164: 714, 1966.
34. WANKE, R. Ligatur der A coeliaca als therapie der varixblutung aus oesofagus und magen. *Der. Chirug.*, 24: 466, 1953.

DISCUSION

DR. ANAVITARTE.— Simplemente quería contribuir con otro caso muy similar al relatado por el Dr. Valls, un enfermo al que se le fue a realizar una colecistec-

tomía por una litiasis vesicular y al que le encontramos un frémito intensísimo a nivel de la arteria hepática. Se le hizo la colecistectomía y se liberó a la arteria hepática buscando un aneurisma que no existía, y el enfermo después de esta intervención no tuvo más sufrimientos de ninguna especie.

Felicitó al Dr. Praderi por el trabajo presentado.

DR. VALLS.— Tuvimos un síndrome de Dunbar. Se trataba de un enfermo de 48 años que fue internado por dolor intensísimo en hipocondrio derecho con reacción peritoneal. Nosotros lo operamos pensando que tenía una colecistitis aguda. Este enfermo fue mostrado cuando hablamos de peritonitis biliares de origen vascular, como peritonitis biliar de origen vascular. Lo operamos y encontramos que filtraba bilis de la vesícula y del colédoco en pequeñas cantidades. Pero no encontramos litiasis biliar, tenía un páncreas normal y un estómago normal. Le hicimos una colecistostomía, y la colangiografía postoperatoria fue normal.

El enfermo evolucionó bien en ese postoperatorio y nos quedamos a oscuras de lo que tenía. Se le sacó el tubo de colecistostomía y de nuevo volvió a tener dolores atroces, de una intensidad extraordinaria, que volvió a ingresar de nuevo el enfermo al sanatorio del Casmu. Lo reoperamos y entonces exploramos la retrocavidad de los epiplones, movilizamos el páncreas y nos encontramos que a nivel de la cabeza del páncreas había un thrill fabuloso, a nivel de la arteria hepática. Fuimos a ver lo que tenía, disecamos ahí, movilizamos los ganglios de la hepática y no sabíamos a qué se debía esa lesión, pensamos que tenía que haber una estenosis de la arteria hepática que posiblemente fuera de origen vascular, endovascular porque podía tener alguna placa de tipo ateromatoso, y pensamos que iba a ser estudiado después.

Este enfermo después de operado marchó perfectamente bien y no volvió a tener más dolores.

Pienso que cuando hicimos esa disección, sobre la arteria hepática, al movilizar los ganglios, seccionamos filetes nerviosos, hicimos la decompresión sin saberlo y desde entonces el enfermo no sufre más.

DR. MÉROLA.— De acuerdo totalmente con el Dr. Praderi que las descripciones anatómicas de los clásicos franceses de las arterias, ramas aórticas abdominales, son insuperables. Pero hay algunos aspectos modernos funcionales de esas arterias que nos deben interesar a todos.

El tema que trae el Dr. Praderi es interesantísimo. A la persona que dijo que la obstrucción de una arteria no provocaba síndromes isquémicos le diría que la oclusión de tres arterias tiene que ocasionar sufrimiento isquémico, y en realidad la oclusión del tronco celíaco es la obstrucción de tres arterias abdominales, porque si fuera selectiva de la coronaria, selectiva de la esplénica o selectiva de la hepática, podría ser que se compensara por los círculos peripancreáticos. Pero creo que una compresión del celíaco es una compresión de tres arterias.

El aspecto funcional de las arterias: siempre nos dijeron que la arteria esplénica era sinuosa porque el bazo crecía de tamaño. La arteria esplénica no es sinuosa porque el bazo crece de tamaño, no tiene nada que ver, la arteria esplénica está amarrada al cuerpo y cola de páncreas, y estamos interesados en el momento actual estudiando por qué pasa eso y cómo sucede eso. Incluso tenemos en vista alguna cosa de pensar que en la patología pancreática puede haber síndromes isquémicos por robo de la circulación pancreática hecho por la esplénica y por el hipersplenis-

mo y por el bazo. De manera que tenemos en estudio algunas soluciones para este problema.

Nos interesa mucho la fisiología y admitimos que la descripción anatómica morfológica pura de aquella época es insuperable.

El tema de Praderi interesa muchísimo y evidentemente a las laparotomías exploradoras en que no encontramos nada va a haber que sumar la semiología cuidadosa de las arterias.

DR. RAÚL PRADERI.—Agradezco los comentarios a todos los colegas que se ocuparon del tema y repito lo que dije al principio: pido disculpas por la insuficiencia de la documentación. El interés nuestro era promover la discusión sobre esta afección a la que nadie se ha referido en nuestro país.

Contestando a los comentarios, voy a comenzar por el Dr. Anavitarte.

Una vez operando vías biliares me encontré una arteria hepática gruesa con un frémito y pensé: "esta enferma tiene un aneurisma fusiforme de hepática". Lo disequé, liberé, pero no lo resequé. Esa enferma posiblemente tenía algo parecido a una estenosis del tronco celiaco, pero en esa época no lo supe interpretar.

La observación del Dr. Valls la conocíamos, porque tuve la oportunidad de ver y comentar su enfermo. Cuando el Dr. Valls presentó su trabajo de peritonitis biliar el Prof. Bermúdez aquí presente señaló que en

las peritonitis biliares de los viejos, en las cuales se necrosa la pared coledociana, es posible que influya el factor vascular y obstrucciones arteriales determinen isquemia en la pared de la vía biliar.

En lo que señalaba el Dr. Mérola, que tiene con nosotros en común nuestra formación anatómica, igual que el Dr. Valls, es que a todos nosotros los anatomistas, una de las cosas que más nos apasionaba de la anatomía del abdomen, era la circulación arterial. Pero el problema de las suplencias como ha sido muy bien señalado por el Dr. Abó, es un problema difícil, porque por ejemplo, Wancke propuso la ligadura del tronco celiaco para la cirrosis, y esa operación fue realizada por el Dr. Del Campo sin tener claudicaciones arteriales. Appleby hacía la ligadura y resección del tronco celiaco en la cirugía del cáncer gástrico. Nosotros recordamos la observación de un enfermo operado de un aneurisma de arteria mesentérica en la Clínica de Chifflet, a que se resecó y reconstruyó y después hizo una falla de sutura por fístula por el duodeno. Al final hubo que ligarle el tronco de la mesentérica superior. Fue operado hace 15 años y vive porque tiene la irrigación mesentérica, dada por la mesentérica inferior.

Las tres arterias se suplen. Lo que cuesta explicar en este síndrome es cómo una arteria que está ocluida aparentemente sola, provoca la claudicación.