

Argonplasmakoagulation effektiv vid solitärt rektalt ulkussyndrom

Amil Haji Younes, överläkare, gastroenterologmottagningen, VO internmedicin, Gävle sjukhus

Nikolaos Melas, specialistläkare, gastroenterologmottagningen, VO internmedicin, Gävle sjukhus
 ● nikolaos.e.melas@gmail.com

Serta Kilincalp, specialistläkare, gastroenterologmottagningen, VO internmedicin, Gävle sjukhus

Péter Egerszegi, överläkare, VO klinisk patologi och cytologi, Gävle sjukhus; samtliga Centrum för forskning och utveckling, Uppsala universitet/Region Gävleborg, Gävle

Solitärt rektalt ulkussyndrom (SRUS) är ett benignt tillstånd kännetecknat av en kombination av symtom samt endoskopiska och histologiska fynd [1]. Sjukdomen är sällsynt med en uppskattad prevalens på 1:100 000 [2]. Män och kvinnor drabbas väsentligen lika [2]. I litteraturen rapporteras att 80 procent av patienter med solitärt rektalt ulkussyndrom är yngre än 50 år [3], men tillståndet har beskrivits även hos barn och äldre [4]. Etiologi och patogenes är okända men olika mekanismer kan vara inblandade, som ischemiska och traumatiska faktorer [5]. Åsikterna varierar om vilken som är den bästa behandlingen, från konservativ och lokal behandling till mer invasiva kirurgiska ingrepp [6]. Det finns i dag inte någon etablerad effektiv behandling. Behandling med argonplasmakoagulation (APK) har testats sporadiskt internationellt [7-9]. Vi presenterar här en patient med solitärt rektalt ulkussyndrom utan rektal prolaps där vi använt argonplasmakoagulation i syfte att minska patientens symtom.

FALLBESKRIVNING

En 27-årig kvinna, av svenskt ursprung och tidigare frisk, remitterades till gastroenterologmottagningen på grund av långvariga diarréer, med grötaktig, vattning konsistens upp till 12 gånger/dygn, med successiv tillkomst av trängningar med slem- och blodtillblandning. Kalprotektin i feces var 544 mg/kg (normalintervall 0-50 mg/kg) och IgA-transglutaminas (tTG)-antikroppar i serum 29 E/ml (normalintervall 0-7 E/ml). Patienten genomgick gastroskopi som makroskopiskt visade normal bild, men biopsi från duodenum påvisade celiaki. Koloskopi visade makroskopiskt ett 20×15 mm stort solitärt rektalt ulcus med i övrigt normal ileum- och kolonslemhinna (Figur 1). PAD av såret visade kraftig inflammation (Figur 2).

Patienten fick diagnosen celiaki och solitärt rektalt ulkussyndrom. Hon följde en strikt glutenfri kost, och tre månader efter diagnos hade tTG-antikropparna normaliserats. Däremot hade hon fortfarande besvär med frekventa slem- och blodtillblandade tarmtömningar med tvingande trängning till avföring (urgency) och ibland inkontinens. Hon fick behandling med karayagummi (Inolaxol) 1×3 tillsammans med olika lokala behandlingar, prednisolon klysma 31,25 mg, sulfasalazin suppositorium 500 mg, hydrokortison/lidokain suppositorium och metronidazol vagitorium, upprepade gånger utan effekt. Upprepade endoskopiska kontroller av det rektala såret visade ingen förbättring efter olika lokala medicinska behandlingar, varför vi beslutade att testa argonplasmakoagulation. Hon fick sammanlagt fyra behandlingar med argonplasmakoagulation av det rektala såret, varvid xylokaininjektion gavs submukosalt i den distala delen av såret på grund av smärta i närheten av linea dentata.

Efter de fyra behandlingarna gjordes en läkningskontroll med sigmoideoskopi som visade att såret hade läkt ut (Figur 1). Patienten förbättrades successivt och blev besvärsfri under två år. Patienten fick recidiv i betydligt mindre utsträckning två gånger med ett års besvärsfrihet emellan och behandlades då på samma sätt med argonplasmakoagulation.

Symtom och patogenes

Solitärt rektalt ulkussyndrom är ett kroniskt, benignt och underdiagnostiserat tillstånd som kännetecknas av ställvisa slemhinnelesioner i rektum av varierande typ, hyperemisk slemhinna och polypoida slemhinnelesioner upp till ulceration. Lesionerna kan vara solitära eller multifokala [4, 10, 11].

Det vanligaste kliniska symtomet är rektal blödning med varierande mängd av blod i avföring, medan svår rektal blödning som kräver nödenskopi för att diagnostisera är sällan förekommande [12]. Andra symtom inkluderar tenesmer, slemtillblandning, kronisk och svår förstoppning, obehagskänsla i bäckenet och känsla av ofullständig tarmtömning [13, 14]. 26 procent av patienterna är asymtomatiska [15].

Olika teorier kring vilka faktorer som är involverade i patogenesen av solitärt rektalt ulkussyndrom finns och de viktigaste av dessa presenteras i Fakta 1 [16].

Diagnos

Diagnosen av solitärt rektalt ulkussyndrom baseras på kliniska tecken, endoskopiska och histologiska fynd, avbildningsundersökningar inklusive defekografi, dynamisk magnetkameraundersökning av rektum samt anorektala funktionsstudier som manometri och elektromyografi [17].

Differentialdiagnoser som måste övervägas är rektal malignitet, ischemi (även om det är mycket sällsynt i rektum), inflammatorisk tarmsjukdom, slemhinneskada efter strålbehandling i rektum/distala sigmoideum och sexuellt överförbara sjukdomar. Magnetkameraundersökning av rektum är avgörande

HUVUDBUDSKAP

- Solitärt rektalt ulkussyndrom (SRUS) är ett tillstånd som kan leda till besvärliga rektala symtom.
- För diagnostiken krävs endoskopi och histopatologi för att utesluta andra sjukdomar.
- Det finns hittills ingen etablerad tillfredsställande medicinsk behandling.
- Argonplasmakoagulation är inte etablerad, men en effektiv behandlingsmetod som bör utnyttjas i behandlingsresistenta fall.

FALLBESKRIVNING

FAKTA 1. Teorier om patogenes för solitärt rektalt ulkussyndrom

KRAFTIG KRYSNING. Ökat tryck i tarmväggen hos patienter som lider av förstoppning kan leda till direkt trauma mot slemhinnan.

SJÄLVINDUCERAT TRAUMA. Trauma kan uppstå när patienter med obstipation försöker avlägsna avföring manuellt.

PARADOXAL SAMMANDRAGNING AV PUBOREKTALIS-MUSKELN. Okoordinerad muskelkontraktion i puborektalmuskeln (knipmuskeln) är associerad med ökat tryck i rektum och analkanal, vilket resulterar i ischemi och ulceration.

REKTALPROLAPS OCH INTUSSUSCEPTION. Rektalprolaps och intussusception (rektalvred) kan leda till lokalt vaskulärt trauma med solitär lokal ulceration.

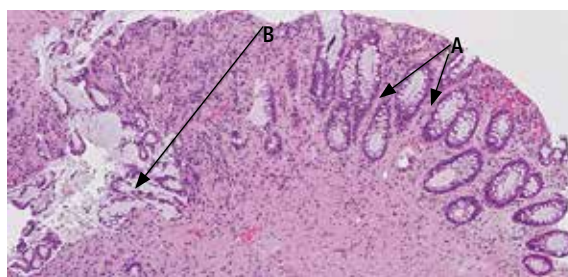
de för att kartlägga rektumområdet och utesluta malignitet [18]. Defekografi är en radiologisk undersökning av tarmtömningsfunktioner och kan ge information om huruvida det föreligger en dold (rektal intussusception) eller yttre slemhinneprolaps [19]. Inflammatoriska markörer – såsom CRP, LPK och TPK – är vanligtvis normala eftersom solitärt rektalt ulkussyndrom inte framkallar systemisk inflammation och används därför inte i diagnostiken. Anemi kan uppstå vid långvariga rektala blödningar, framför allt hos barn [20]. De viktigaste histologiska fynden vid solitärt rektalt ulkussyndrom är fibromuskulärt utplånande av lamina propria och hypertrofisk muscularis mucosae med förlängning av muskelfibrer uppåt mellan kryptorna [21].

Behandling

Det finns inte någon etablerad tillfredsställande behandlingsstrategi för solitärt rektalt ulkussyndrom, och behandlingarna varierar från konservativ medicinsk terapi till bäckenbottenträning (biofeedback) och kirurgi. Val av behandling styrs av symtomens svårighetsgrad och förekomst av rektal prolaps. Hos asymtomatiska patienter eller hos dem med endast lindriga symtom rekommenderas reglering av toalettvanor med hjälp av fiberrik kost och bulkmedel, laxeringsmedel vid obstipation och undvikande av kraftig krystning vid defekation [22]. Beteendeterapi i form av biofeedback förbättrar lindriga till måttliga symtom genom att öka det mukosala blodflödet (mikrocirkulation) och förbättra den efferenta autonoma innervationen av tarmen [23]. Patienten tränas att uppfatta signaler från rektum och medvetet använda och koordinera muskler involverade i krystningen med syftet att normalisera defekationen [24]. Medicinsk behandling i form av suppositorier med prednisolon, mesalazin och sulfasalazin har endast marginell och ofta övergående effekt i vissa lindriga fall [25]. Botulinumtoxininjektioner har visat likvärdig effekt som myektomi av den interna sfinktern hos patienter med solitärt rektalt ulkussyndrom och samtidig obstipation under tre månader enligt en liten brittisk studie [26]. Ungefär en tredjedel av patienter med solitärt rektalt ulkussyndrom behöver genomgå kirurgisk behandling vid svåra och långvariga symtom när ovanstående

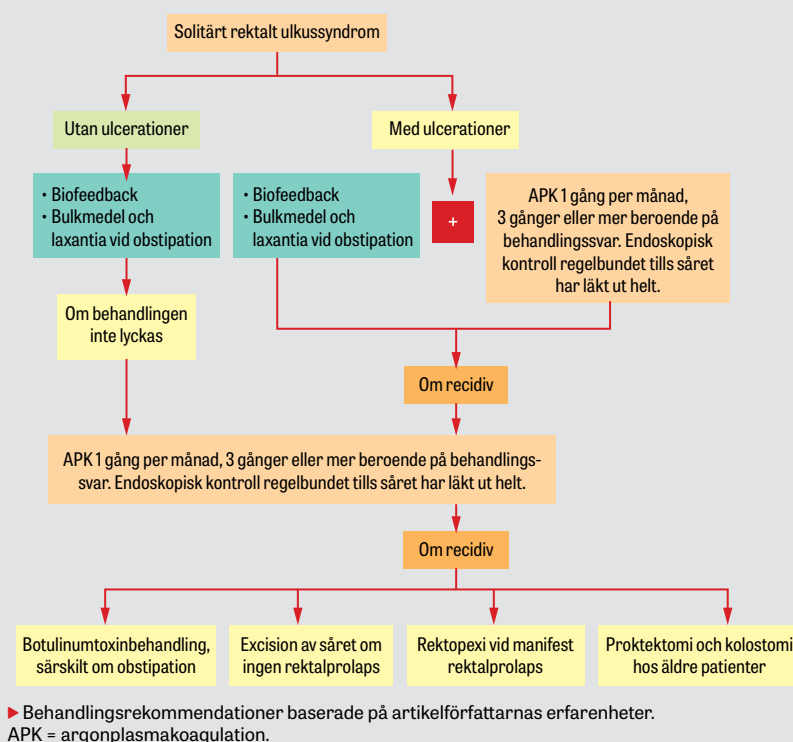


Figur 1. Endoskopisk bild. Rektalt sår före (A) och direkt efter (B) behandling med argonplasmakoagulation. Såret har läkt ut helt efter fyra behandlingar med argonplasmakoagulation (C).



Figur 2. Histopatologisk bild. I lamina propria föreligger tydlig fibroblastproliferation (A) och invagination av kryptorna inom submukosan (B) utan dysplasi eller malignitet.

FIGUR 3. Behandlingsrekommendationer



de åtgärder inte lett till tillfredsställande effekt [6]. Vid fall av solitärt rektalt ulkussyndrom utan inre eller yttre rektalprolaps kan excision av det rektala såret prövas [25]. Vid manifest inre eller yttre rektalprolaps är laparoskopisk rektopexi förstahandsval av kirurgiska ingrepp [27]. Proktectomi med kolostomi är sista behandlingsalternativet när andra åtgärder inte lyckats kontrollera smärtan och blödningarna [27, 28]. Den sistnämnda aggressiva behandlingsstrategin

bör i första hand förbehållas äldre patienter, enligt vår uppfattning (Figur 3).

Argonplasmakoagulation

Argonplasmakoagulation är en elektrokirurgisk behandlingsmetod som används inom flera specialiteter såsom allmän kirurgi, gynekologi, urologi, lungmedicin (bronkoskopi) och endoskopi. Argonplasmakoagulation användes första gången 1970 i samband med öppen kirurgi; 1991 började det användas vid endoskopi och sedan dess har det blivit en etablerad endoskopisk behandlingsmetod [29]. Argon är en ädelgas som flödar via ett rör som omger en elektrod, vilken antänder gasen vid kateterspetsen med hjälp av högfrekvent (350 kHz) växelspanning (upp till 4-6 kV). Detta leder till att argongas omvandlas till den joniserade formen (plasma) som är elektriskt ledande och därigenom kan utöva sin koagulerande och devitaliserande effekt på vävnaden [29]. Den termiska effekten av argonplasmakoagulation leder till vävnadstorrhet, som i sin tur minskar ledningsförmågan

hos vävnaden. Detta förhindrar djupa vävnadsskador. Effekten är begränsad till den behandlade vävnadens yttersta 2-3 mm [29].

SLUTSATS

Vi beskriver ett fall med svårt solitärt rektalt ulkussyndrom. Långvarig antiinflammatorisk lokalmedicinsk behandling i kombination med bulkmedel gav ingen effekt, möjligen eftersom den primära orsaken inte är inflammatorisk utan traumatisk/ischemisk.

Behandling med argonplasmakoagulation testades i flera seanser, vilket ledde till en bra effekt med symptomfri duration i upp till 2 år. Vi anser därför att argonplasmakoagulation är en effektiv symptomatisk behandling som bör användas tidigt hos patienter med solitärt rektalt ulkussyndrom utan rektalprolaps (Figur 3). ○

● Potentiella bindningar eller jävsförhållanden: Inga uppgivna.

Citera som: *Läkartidningen. 2019;116:FR4T*

REFERENSER

- Felt-Bersma RJ, Tiersma ES, Cuesta MA. Rectal prolapse, rectal intussusception, rectocele, solitary rectal ulcer syndrome, and enterocele. *Gastroenterol Clin North Am.* 2008;37(3):645-68.
- Martin CJ, Parks TG, Biggart JD. Solitary rectal ulcer syndrome in Northern Ireland. 1971-1980. *Br J Surg.* 1981;68(10):744-7.
- Torres C, Khaikin M, Bracho J, et al. Solitary rectal ulcer syndrome: clinical findings, surgical treatment, and outcomes. *Int J Colorectal Dis.* 2007;22(11):1389-93.
- Tandon RK, Atmakuri SP, Mehra NK. Is solitary rectal ulcer a manifestation of a systemic disease? *J Clin Gastroenterol.* 1990;12(3):286-90.
- Ignjatovic A, Saunders BP, Harbin L, et al. Solitary »rectal« ulcer syndrome in the sigmoid colon. *Colorectal Dis.* 2010;12(11):1163-4.
- Bonnard A, Mougenot JP, Ferkdadjji L, et al. Laparoscopic rectopexy for solitary ulcer of rectum syndrome in a child. *Surg Endosc.* 2003;17(7):1156-7.
- Zergani FJ, Shaieathe AA, Hajiani E, et al. Evaluation of argon plasma coagulation in healing of a solitary rectal ulcer in comparison with conventional therapy: a randomized controlled trial. *Prz Gastroenterol.* 2017;12(2):128-34.
- Waniczek D, Rdes J, Rudzki MK, et al. Effective treatment of solitary rectal ulcer syndrome using argon plasma coagulation. *Prz Gastroenterol.* 2014;9(4):249-53.
- Somani SK, Ghosh A, Avasthi G, et al. Healing of a bleeding solitary rectal ulcers with multiple sessions of argon plasma. *Gastrointest Endosc.* 2010;71(3):578-82.
- Chiang JM, Changchien CR, Chen JR. Solitary rectal ulcer syndrome: an endoscopic and histological presentation and literature review. *Int J Colorectal Dis.* 2006;21(4):348-56.
- Tjandra JJ, Fazio VW, Petras RE, et al. Clinical and pathologic factors associated with delayed diagnosis in solitary rectal ulcer syndrome. *Dis Colon Rectum.* 1993;36(2):146-53.
- Kato K, Nagase A, Iwasaki Y, et al. Massive bleeding from visible vessels within a solitary rectal ulcer. *Surgery.* 2014;155(5):956-7.
- Blackburn C, McDerrott M, Bourke B. Clinical presentation of and outcome for solitary rectal ulcer syndrome in children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2012;54(2):263-5.
- Latos W, Kawczyk-Krupka A, Ledwoń A, et al. Solitary rectal ulcer syndrome - the role of autofluorescence colonoscopy. *Photodiagnosis Photodyn Ther.* 2007;4(3):179-83.
- Tjandra JJ, Fazio VW, Church JM, et al. Clinical conundrum of solitary rectal ulcer. *Dis Colon Rectum.* 1992;35(3):227-34.
- Forootan M, Darvishi M. Solitary rectal ulcer syndrome: a systematic review. *Medicine (Baltimore).* 2018;97(18):e0565.
- Keshtgar AS. Solitary rectal ulcer syndrome in children. *Eur J Gastroenterol Hepatol.* 2008;20(2):89-92.
- Amaechi I, Papagrigoriadis S, Hizbullah S, et al. Solitary rectal ulcer syndrome mimicking rectal neoplasm on MRI. *Br J Radiol.* 2010;83(995):e221-4.
- Zhu QC, Shen RR, Qin HL, et al. Solitary rectal ulcer syndrome: clinical features, pathophysiology, diagnosis, and treatment strategies. *World J Gastroenterol.* 2014;20(3):738-44.
- Keshtgar AS, Ward HC, Clayden GS. Diagnosis and management of children with intractable constipation. *Semin Pediatr Surg.* 2004;13(4):300-9.
- Levine DS, Surawicz CM, Ajer TN, et al. Diffuse excess mucosal collagen in rectal biopsies facilitates differential diagnosis of solitary rectal ulcer syndrome from other inflammatory bowel diseases. *Dig Dis Sci.* 1988;33(11):1345-52.
- Malouf AJ, Vaizey CJ, Kamm MA. Results of behavioral treatment (biofeedback) for solitary rectal ulcer syndrome. *Dis Colon Rectum.* 2001;44(1):72-6.
- Sharara AI, Azar C, Amr SS, et al. Solitary rectal ulcer syndrome: endoscopic spectrum and review of the literature. *Gastrointest Endosc.* 2005;62(5):755-62.
- Vaizey CJ, Roy AJ, Kamm MA. Prospective evaluation of the treatment of solitary rectal ulcer syndrome with biofeedback. *Gut.* 1997;41(6):817-20.
- Edden Y, Shih SS, Wexner SD. Solitary rectal ulcer syndrome and stercoral ulcers. *Gastroenterol Clin North Am.* 2009;38(3):541-5.
- Keshtgar AS, Ward HC, Sanei A, et al. Botulinum toxin, a new treatment modality for chronic idiopathic constipation in children: long-term follow-up of a double-blind randomized trial. *J Pediatr Surg.* 2007;42(4):672-80.
- Tweedle DJ, Varma JS. Long-term outcome of laparoscopic mesh rectopexy for solitary rectal ulcer syndrome. *Colorectal Dis.* 2005;7(2):151-5.
- Ihre T, Seligson U. Intussusception of the rectum-internal proctidemia: treatment and results in 90 patients. *Dis Colon Rectum.* 1975;18(5):391-6.
- Zenker M. Argon plasma coagulation. *GMS Krankenhhyg Interdis-zip.* 2008;3(1):Doc15.

SUMMARY

Argon plasma coagulation effective treatment of solitary rectal ulcer syndrome

Solitary rectal ulcer syndrome (SRUS) is a rare disorder likely to be caused by a traumatic and ischemic mucosal injury related to latent or overt rectal prolapse.

Mucosal damage can vary between erythema and up to intractable ulceration.

The typical symptoms of SRUS may resemble those of inflammatory bowel disease (IBD)-related proctitis or rectal malignancy with mucus- and blood-mixed defecation with urgency and sometimes transient incontinence.

The purpose of this paper is to raise awareness of this rare, quality-of-life impacting and difficult-to-treat disease and the not so well-known argon plasma coagulation (APC) treatment that can provide very good and long lasting symptom relief.