

Pacjent z chorobą Leśniowskiego-Crohna – od rozpoznania do wdrożenia terapii. Standardy postępowania a rzeczywistość – opis przypadku

A patient with Crohn's disease – from diagnosis to therapy onset.
Therapeutic standards vs. reality – a case report

Department of General and Oncologic Surgery, Health Centre in Tomaszów Mazowiecki

Streszczenie

Choroba Leśniowskiego-Crohna należy do nieswoistych chorób zapalnych jelit. Pierwsze objawy bywają niespecyficzne, co może powodować trudności diagnostyczne. Cechą charakterystyczną choroby jest pełnościenne zapalenie ściany jelita, które może objąć każdy odcinek przewodu pokarmowego. Najbardziej charakterystyczną lokalizacją jest końcowy odcinek jelita cienkiego – ileum terminale, która wystąpiła także w opisywanym przypadku. Leczenie chirurgiczne powinno być jak najmniej inwazyjne ze względu na duże prawdopodobieństwo kolejnej interwencji chirurgicznej. Autorzy prezentują przypadek pacjenta przyjętego na oddział po kilku incydentach ambulatoryjnego leczenia ropnia odbytu w USA. Na oddział chirurgiczny trafił z powodu rozwijającej się ropowicy krocza w przebiegu nawrotowego ropnia odbytu. Został zakwalifikowany do nacięcia ropnia. W trakcie pobytu na oddziale u pacjenta wystąpiły objawy krwawienia do przewodu pokarmowego. Wykonana diagnostyka endoskopowa jelita grubego ujawniła makroskopowe zmiany o typie choroby Leśniowskiego-Crohna. Wielokrotne próby przeniesienia pacjenta do jednostki zajmującej się leczeniem chorób zapalnych przewodu pokarmowego zakończyły się niepowodzeniem. Ze względu na pogarszający się stan ogólny, postępującą anemię, chorego zakwalifikowano do operacji. Wykonano resekcję końcowego odcinka jelita krętego z ileostomią końcową. Po ustabilizowaniu stanu ogólnego, pacjenta wypisano z zaleceniem dalszego leczenia w poradni gastroenterologicznej, w ośrodku zajmującym się leczeniem nieswoistych chorób zapalnych jelit.

Słowa kluczowe

choroba Leśniowskiego-Crohna, ropień odbytu, krwawienie do przewodu pokarmowego, ileostomia końcowa

Summary

Crohn's disease is a nonspecific inflammatory bowel disease. The first symptoms tend to be non-specific, which can cause diagnostic difficulties. Full-thickness inflammation of the bowel wall, which may involve any part of the gastrointestinal tract, is a landmark of this disorder. Terminal ileum is the most commonly affected area, as also described in the presented case. Surgical treatment should be as least invasive as possible due to the high probability of another surgical intervention. We present a case of a patient previously repeatedly treated for anal abscess in an outpatient setting in the USA. The patient was admitted to the surgical ward due to

Keywords

Crohn's disease, anal abscess, gastrointestinal bleeding, end ileostomy

perineal phlegmon in the course of recurrent anal abscess. He was qualified for abscess incision. During hospital stay, the patient developed symptoms of gastrointestinal bleeding. Diagnostic endoscopy of the large bowel revealed macroscopic lesions typical of Crohn's disease. Repeated attempts to transfer the patient to a unit specialised in the treatment of inflammatory bowel diseases (IBDs) have been unsuccessful. Due to the deteriorating general condition and progressive anaemisation, the patient was qualified for surgery. The end section of the ileum was resected and an end ileostomy was created. After stabilisation of the general condition, the patient was discharged home having been recommended to continue treatment in a gastroenterology clinic, in a centre specialised in the treatment of inflammatory bowel diseases.

WPROWADZENIE

Poszukiwanie wciąż nowych sposobów terapii oraz możliwe niekorzystne skutki długotrwałego stosowania niektórych metod leczenia choroby Leśniowskiego-Crohna powodują, że jest to temat wciąż chętnie poruszany wśród gastroenterologów. Nieustannie dyskutowana jest również rola chirurgii w leczeniu tej choroby. Czy w dobie leczenia biologicznego wciąż jest miejsce dla metody chirurgicznej? Czy ma ona zastosowanie tylko w przypadkach ropni, przetok i zwężeń? Czy choroba zawsze jest leczona chirurgicznie w wyznaczonych jednostkach akredytacyjnych?

W poniższym artykule przedstawimy przypadek pacjenta, który trafił do szpitala rejonowego w momencie, kiedy było za późno na włączenie leczenia biologicznego bez wcześniejszej interwencji chirurgicznej. Omówimy również najważniejsze zasady leczenia, podkreślając, że nie zawsze możliwe jest postępowanie zgodnie z powszechnie przyjętymi standardami.

Choroba Leśniowskiego-Crohna (ChL-C) obok wrzodziejącego zapalenia jelita grubego (WZJG) jest jedną z nieswoistych chorób zapalnych jelit. Nieswoiste choroby zapalne jelit są drugą pod względem częstości występowania chorobą autoimmunologiczną, za reumatoidalnym zapaleniem stawów (RZS) (1). Cały czas trwają badania nad patogenezą choroby, obecnie przyjmuje się, że dziedziczona jest wielogenowo, a jej rozwój zależy od czynników środowiskowych i osobniczych. Jest to pełnościenne zapalenie ściany jelita, które może objąć każdy odcinek przewodu pokarmowego, od przedsionka jamy ustnej aż po odbył. Najbardziej charakterystyczne jest występowanie zmian w końcowym odcinku jelita cienkiego – ileum terminale, co miało miejsce także w opisywanym przypadku. Zmiany zapalne przybierają postać ziarniniakowatych i nieserowaciejących. Charakter zmian nie jest ciągły jak w przypadku WZJG – mikroskopowo zmienione zapalnie odcinki są przedzielone fragmentami makroskopowo zdrowymi. W endoskopii charakterystyczny jest obraz „kostki brukowej”. Do najczęstszych objawów klinicznych należą ból brzucha (nawet u 90% pacjentów) i biegunki, niekiedy z domieszką krwi. W przypadku braku wdrożenia odpowiedniego leczenia we właściwym czasie może dojść do niedożywienia, hypoalbuminemii, obrzęków, a także powikłań obejmujących inne narządy. Mimo coraz lepiej rozwiniętej diagnostyki i świadomości lekarzy, nadal zbyt wielu pacjentów trafia do szpitali z powodu powikłań choroby podstawowej – niedrożności/podniedrożności/przetok zewnętrznych lub wewnętrznych, ropni. Opisany przez nas przypadek pokazuje, że wciąż za mało jest wśród lekarzy swego rodzaju „czujności” pod względem nieswoistych chorób zapalnych jelit

INTRODUCTION

The constant search for new therapeutic options and the possible adverse effects of long-term use of some therapies in Crohn's disease make it an issue that is still eagerly discussed among gastroenterologists. The role of surgery in treating this disorder is also constantly discussed. Is there still a place for the surgical approach in the era of biological treatment? Is it reserved for abscesses, fistulas and strictures? Is CD always surgically treated in designated accreditation units?

In this paper, we present a case of a patient admitted to a district hospital at a time point when it was too late to initiate biological treatment without prior surgical intervention. We also discuss the key therapeutic principles, emphasising that it is not always possible to follow generally accepted standards.

Crohn's disease (CD), along with ulcerative colitis (UC), belongs to the group of inflammatory bowel diseases (IBDs). IBDs are the second most common group of autoimmune disorders after rheumatoid arthritis (RA) (1). Although the pathogenesis of CD is still under investigation, it is currently assumed that multiple genetic factors, as well as environmental and individual aspects are involved. CD is a full-thickness inflammation of the bowel wall that can involve any part of the gastrointestinal (GI) tract, from the vestibule to the anus. Terminal ileum is the most commonly affected area, as also described in the presented case. Inflammatory lesions are described as granulomatous and non-caerating. These lesions are not continuous as in the case of ulcerative colitis (UC), but form microscopically inflamed sections separated by macroscopically normal appearing mucosa (skip areas). Endoscopically, a 'cobblestone' appearance of the mucosal surface is usually described. The most common clinical manifestations include abdominal pain (up to 90% of patients) and diarrhea (bloody or not). Treatment delay may result in malnutrition, hypoalbuminaemia, oedema, and complications involving other organs. Despite diagnostic advances and the increasing awareness among doctors, hospitalisation rates due to complications of the underlying disease, such as (sub)obstruction, external or internal fistulas, and abscesses, are still high. The case we describe shows that there is still too little vigilance among doctors for IBDs in diagnostically and therapeutically challenging

w przypadku pacjentów trudnych diagnostycznie i terapeutycznie. Dokładna diagnostyka i leczenie zostaną omówione szerzej w dalszej części artykułu.

OPIS PRZYPADKU

Pacjentem był 30-letni mężczyzna na stałe mieszkający w USA, który trafił na oddział po prawie 4-miesięcznym leczeniu w USA ropowicy okolicy krocza i odbytu. Na podstawie wywiadu zebranego od mężczyzny (brak jakichkolwiek kart informacyjnych i wiadomości dotyczących przebytego leczenia) udało się ustalić, że leczony był przez lekarza opieki podstawowej z powodu zmiany okolicy odbytu – prawdopodobnie ropnia – kilkukrotnym nakłuciem grubą igłą i odsysaniem treści. Przyносиło to jedynie minimalną poprawę. Nie otrzymał żadnych leków, nie miał przeprowadzonej diagnostyki. Stan miejscowy ulegał jedynie niewielkiej, krótkotrwałej poprawie. Do szpitala pacjent trafił w stanie ogólnym średnim, z powodu objawów masywnej ropowicy okolicy krocza i odbytu. W badaniu *per rectum* przy przyjęciu wyczuwalny był na przedniej ścianie odbytnicy duży, chęlboczący guz, badanie bardzo bolesne dla pacjenta. Po obu stronach odbytu na skórze widoczne były rany po wykonanych wcześniej nacięciach, z których wydobywała się treść ropna. Pacjentowi włączono empiryczną antybiotykoterapię dożylną (Metronidazol 500 mg co 8 godz., Biotrakson 1 g co 12 godz.) oraz zakwalifikowano go do operacji. Wykonano nacięcie i drenaż ropnia kulszowo-odbytniczego, ewakuując ropną treść. Jamę po ropniu obficie wypłukano, pozostawiono dren. Ze względu na brak oczekiwanej poprawy 3 dni później zakwalifikowano pacjenta do rewizji jam po nacięciu ropowicy krocza w warunkach bloku operacyjnego. Dzięki zastosowanemu znieczuleniu możliwe było wykonanie pełnego badania pacjenta, w trakcie którego, po podaniu roztworu błękitu metylenowego do nacięć, zidentyfikowano trzy kanały przetok odbytu. Stan miejscowy, ogólny oraz przebieg leczenia pacjenta nasunęły podejrzenie nieswoistej choroby zapalnej jelit. Pacjentowi włączono azatioprynę, mesalazynę oraz hydrokortyzon. Ze względu na anemizację do 6,7 g/dL (wyjściowa Hb 10,0 g/dL) pacjentowi zamówiono 3 jednostki koncentratu krwinek czerwonych (KKCz). W dniu operacji przetoczono 1 j. KKCz, w kolejnych dniach otrzymał jeszcze 2 jednostki (sposób podania KKCz wynikał z deficytu preparatu w stacji krwiodawstwa). Uzyskano wzrost poziomu hemoglobiny do 9,7 g/dL. Zakwalifikowano pacjenta do kolonoskopii. W trakcie przygotowania do badania wystąpił kolejny spadek poziomu hemoglobiny do wartości 6,6 g/dL. W związku z powyższym zdecydowano o przetoczeniu kolejnych 2 jednostek KKCz.

Podczas kolonoskopii aparat wprowadzono do końcowego odcinka jelita cienkiego, uwidaczniając ujście wyrostka robaczkowego i zastawkę Bauhina. W ileum terminale widoczne zmiany zapalne z płaskimi owrzodzeniami, pseudopolipami, pobrano materiał do badania histopatologicznego. W świetle jelita cienkiego widoczna krwista treść. W jelicie grubym liczne owrzodzenia poprzedzielane odcinkami prawidłowej błony śluzowej jelita grubego (obraz „brukowanej drogi”). Z owrzodzeń również pobrano materiał do badania histopatologicznego. Po przetoczeniu KKCz poziom hemoglobiny wyniósł 8,5 g/dL. Ze względu na endoskopowe potwierdzenie diagnozy choroby

patients. Thorough diagnosis and treatment will be discussed in more detail later in this article.

CASE REPORT

A 30-year-old male patient living in the USA was admitted to hospital after almost 4 months of treatment for perineal and perianal phlegmon in the USA. According to patient-reported medical history (unavailable medical records and data on previous treatment), the man was treated by a primary care physician due to a perianal lesion, possibly an abscess, by repeated thick-needle punctures and evacuation of abscess contents. This, however, brought only minimal improvement. He did not receive any medications and no diagnostic workup was performed. There was only minor and temporary improvement in the local condition. The patient was admitted to the hospital in a moderate general condition, due to the symptoms of massive perineal and perianal phlegmon. Rectal examination on admission, which was very painful for the patient, revealed a large, boggy mass in the anterior rectal wall. Bilateral perianal pus-discharging wounds after previous incisions were found. The patient was put on empiric intravenous antibiotic therapy (Metronidazole 500 mg every 8 hours, Biotrakson 1 g every 12 hours) and scheduled for surgery. The ischioanal abscess was incised and drained to evacuate the purulent contents. The abscess cavity was thoroughly rinsed. The drain was maintained. Due to the lack of expected improvement after 3 days, the patient was qualified for a revision of the site after the incision of perineal phlegmon in an operating setting. The applied anesthesia allowed for a thorough examination of the patient, during which, three fistulous tracts were revealed by methylene blue solution administered into the incisions. The local and general condition as well as the treatment course raised the suspicion of inflammatory bowel disease. Azathioprine, mesalazine and hydrocortisone were included. Due to anaemisation up to 6.7 g/dL (starting Hb 10.0 g/dL), 3 units of packed red blood cells (PRBCs) were ordered for the patient. On the day of surgery, 1 unit of PRBC was transfused. In the following days, 2 more units were administered (the method of PRBC administration was due to the deficit of the preparation at the blood donation station). Haemoglobin levels increased to 9.7 g/dL. The patient was qualified for colonoscopy. During prep, another drop in haemoglobin (6.6 g/dL) occurred. Therefore, it was decided to administer another 2 units of PRBC.

A colonoscope was inserted into the final segment of the small intestine, showing the appendix opening and the Bauhin's valve. Distinct inflammatory lesions with flat ulcers and pseudopolyps were found in the terminal ileum. Samples were collected for histopathology. Bloody content in the small intestine was also detected. Multiple ulcers with islands of normal appearing intestinal mucosa in between ("cobblestone appearance") were found in the large bowel. Histopathological samples were also collected

Leśniowskiego-Crohna podjęto liczne próby przekazania pacjenta do jednostki o wyższym poziomie referencyjności, które z uwagi na okres świąteczno-noworoczny zakończyły się niepowodzeniem. Obserwowano dalsze pogarszanie stanu ogólnego chorego, postępowała anemizacja – poziom hemoglobiny obniżył się do wartości 6,4 g/dL. Ze względu na pogarszający się stan ogólny, brak możliwości wykonania kolejnych transfuzji, brak możliwości zatamowania krwawienia do światła jelita cienkiego, brak możliwości przekazania pacjenta do leczenia w ośrodku referencyjnym, chorego zakwalifikowano do operacji, na którą wyraził zgodę. Śródoperacyjnie stwierdzono niewielką ilość płynu w jamie otrzewnej, jelito cienkie od więzadła Treitza wydawało się być niezmiennione makroskopowo, odcinkowo w jego świetle widoczna była ciemna, prawdopodobnie krwista treść. Końcowy odcinek, ok. 10 cm przed zastawką Bauhina, na długości ok. 30 cm miał pogrubiałą, przekrwioną, nacieczoną zapalnie ścianę, w licznych twardych zrostach m.in. z esicą, tworząc guzowaty konglomerat. Tuż przy zastawce Bauhina ostatnie 5-7 cm wydawało się makroskopowo niezmiennione. Zdecydowano o resekcji końcowego, zmienionego zapalnie fragmentu jelita krętego (ok. 40 cm jelita), wykonując operację Hartmana i zachowując kątnicę. W trakcie preparowania zrostów i oddzielania konglomeratu jelita cienkiego od jelita grubego stwierdzono miniprzetokę do esicy. Otwór wielkości ok. 4 mm w esicy zaopatrzone dwoma piętami szwów.

W przebiegu pooperacyjnym stan pacjenta ulegał stopniowej poprawie. Włączono antybiotykoterapię zgodnie z posiewem (wankomycyna), częściowe żywienie pozajelitowe. Utrzymane zostały leki przeciwzapalne i immunosupresyjne. W 11. dobie po zabiegu operacyjnym pacjenta wypisano do domu w stanie ogólnym dobrym, umawiając mu wizytę w poradni gastroenterologicznej, w ośrodku zajmującym się leczeniem nieswoistych chorób zapalnych jelit. Łącznie w trakcie hospitalizacji pacjentowi przetoczono 5 j. KKCz oraz 2 j. FFP (osocze świeżo mrożone). Przez 8 dni otrzymywał żywienie pozajelitowe. Wynik badania histopatologicznego preparatu jelita wyciętego podczas operacji potwierdził rozpoznanie choroby Leśniowskiego-Crohna.

OMÓWIENIE I DISKUSJA

Przedstawiono przypadek pacjenta w młodym wieku, który ze względu na pewne czynniki społeczne i ekonomiczne nie został we właściwym czasie poddany prawidłowej diagnostyce, a przez to nie był leczony przyczynowo, a jedynie objawowo, dodatkowo w niewłaściwy sposób. Pacjenta od września do grudnia leczono z powodu ropnia odbytu kilkukrotnymi nakłuciami w obrębie zmienionej zapalnie skóry nad ropniem i odsysaniem treści ropnej. Procedura przynosiła jedynie minimalną i krótkotrwałą poprawę, dość szybko obserwowano nawrót dolegliwości. Każdy tego typu ropień, który nie poddaje się standardowemu leczeniu, powinien wzbudzić u lekarza podejrzenie nieswoistej choroby zapalnej jelit. Dodatkowo, ropień powinien być prawidłowo nacięty i zdrenowany. Przy przyjęciu na oddział pacjent był w stanie ogólnym średnim. Ze względu na brak wcześniejszej dokumentacji medycznej, a jedynie na podstawie wywiadu uzyskanego od pacjenta, pierwszą przyjętą tezą był nieprawidłowo leczony ropień

from ulcers. After PRBC transfusion, the haemoglobin level was 8.5 g/dL. After endoscopic confirmation of the diagnosis of Crohn's disease, numerous attempts were made to transfer the patient to a unit with a higher reference level. This, however, was unsuccessful due to the Christmas and New Year period. Further deterioration of the patient's general condition was observed, with progressing anaemisation (haemoglobin decreased to 6.4 g/dL). Due to the deteriorating general condition, the inability to perform further transfusions and control the GI bleeding, as well as impossible transfer to a reference centre, the patient was qualified and agreed for surgery. Intraoperatively, a small amount of peritoneal fluid was found, the small intestine from the Treitz ligament appeared macroscopically normal, with dark, possibly bloody content in some of its sections. The final section, approx. 10 cm before the Bauhin valve, had a thickened, bloodshot, inflamed wall, with multiple hard adhesions, e.g. with the sigmoid colon, forming a lumpy conglomerate over the length of approx. 30 cm. Just at the Bauhin valve, the final section of 5-7 cm appeared macroscopically normal. A decision was made to resect the final, inflamed segment of the ileum (approx. 40 cm of the intestine) by performing Hartmann's procedure and preserving the cecum. During isolation of adhesions and separation of the small intestinal conglomerate from the large bowel, a small fistula to the sigmoid colon was found. The fistulous opening of about 4 mm in the sigmoid was closed with two levels of sutures.

The patient's condition gradually improved after the surgery. Culture-based antibiotic therapy (vancomycin) and partial parenteral nutrition were included. Anti-inflammatory and immunosuppressive treatments were continued. The patient was discharged home in good general condition on day 11 after surgery. An appointment was made at a gastroenterological clinic, in a centre specialised in inflammatory bowel diseases. A total of 5 units of PRBCs and 2 units of Fresh Frozen Plasma (FFP) were transfused. Parenteral nutrition was continued for 8 days. Histopathological findings from the intraoperative intestinal specimen confirmed the diagnosis of Crohn's disease.

DISCUSSION

We presented a case of a young patient who, due to certain social and economic factors, was not properly diagnosed in a timely manner, and therefore received symptomatic rather than causative treatment, which was additionally inappropriately implemented. From September to December, the patient was treated for an anal abscess with multiple punctures in the inflamed skin over the abscess and with evacuation of the purulent contents. The procedure brought only minimal and short-term improvement, with relatively rapid symptom recurrence. Any such abscess unresponsive to standard treatment should raise doctor's suspicion of IBD. Additionally, the abscess should be properly incised and drained. On admission to

odbytu. Istniało prawdopodobieństwo, że schorzenie pacjenta było jedynie „zaleczone”, a nie prawidłowo leczone. Nie istniały przesłanki do podejrzenia nieswoistej choroby zapalnej jelit na tym etapie leczenia. Takie podejrzenie wysunięto dopiero później, kiedy po prawidłowym – wydawało się – zdrenowaniu ropnia odbytu stan pacjenta nie ulegał poprawie, co więcej, dość szybko się pogarszał. Podczas ponownej rewizji okolicy odbytu i kanału odbytu, nie mając możliwości wykonania przed operacją diagnostyki obrazowej (USG rektalnego), udało się zidentyfikować i zadrenować trzy kanały przetok odbytu. Ze względu na podejrzenie nieswoistej choroby zapalnej jelita, pacjenta zakwalifikowano do kolonoskopii. Uzyskany w kolonoskopii obraz potwierdzał podejrzenie choroby Leśniowskiego-Crohna. Na tym etapie, po skutecznym drenażu ropni, po identyfikacji i zaopatrzeniu przetok odbytu, po uzyskaniu miejscowej poprawy, pacjent powinien być poddany kwalifikacji do leczenia biologicznego. Niemożliwym jest jednak wdrożenie tego typu leczenia w ramach szpitala powiatowego, gdzie nie funkcjonuje oddział gastroenterologiczny. Podjęte próby przekazania chorego do jednostki o wyższej referencyjności były nieudane. Stan ogólny mężczyzny pogarszał się pomimo poprawy stanu miejscowego. Postępująca anemizacja, osłabienie, brak możliwości wykonania enteroskopii pomimo podejrzenia krwawienia do przewodu pokarmowego z jelita cienkiego spowodowały, że konieczne było wykonanie laparotomii, w trakcie której wycięto chorobowo zmieniony odcinek jelita krętego i wyłoniono ileostomię końcową. Najczęściej wymienianymi przyczynami operacji u pacjentów z chorobą Leśniowskiego-Crohna są powikłania tej choroby, takie jak: zwężenia, przetoki, perforacje, niedrożności (2). Poważnym powikłaniem choroby jest też krwawienie skutkujące anemizacją pacjenta, co było przyczyną kwalifikacji do operacji w opisywanym przypadku.

Najczęściej stosowaną skalą do oceny nasilenia aktywności choroby jest Indeks Aktywności Choroby Leśniowskiego-Crohna (Crohn's Disease Activity Index – CDAI) (tab. 1) (3). Według tego indeksu pacjent tuż przed kwalifikacją do operacji uzyskał 202 punkty, przy przyjęciu ze względu na brak rozpoznania nie był oceniany w tej skali. Pomimo uzyskanego wyniku był w stanie ogólnym średnim, a brak natychmiastowej interwencji chirurgicznej mógł zakończyć się nawet zgonem.

Drugą pod względem częstości skalą wykorzystywaną do oceny pacjentów cierpiących na chorobę Leśniowskiego-Crohna jest klasyfikacja montrealaska choroby Crohna (tab. 2). Pacjent oceniony w klasyfikacji montrealaskiej został zakwalifikowany jako: A2, L1, B3 + p.

Dodatkowo, kiedy wysunięto podejrzenie nieswoistej choroby zapalnej jelita, przeanalizowano możliwe czynniki agresywnego przebiegu choroby (2):

- wiek < 40 lat w momencie rozpoznania (+),
- konieczność stosowania glikokortykosteroidów podczas pierwszego epizodu zaostrzenia (+/-?),
- zmiany okołoodbytowe (+),
- lokalizacja w górnym odcinku przewodu pokarmowego i jelicie cienkim (+) (4),
- ciężkie zmiany endoskopowe (+),
- palenie tytoniu (-).

the ward, the general condition of the patient was moderate. Due to missing previous medical documentation, improperly treated anal abscess was accepted as the first thesis based on medical history obtained from the patient. It was possible that the patient's condition had been only "temporarily managed" rather than properly treated. There were no reasons to suspect IBD at this stage of treatment. Such a suspicion was raised only later, when the patient's condition relatively rapidly deteriorated instead of improving despite seemingly correct abscess evacuation. During another revision of the peri-anal region and the anal canal, when it was not possible to perform diagnostic imaging (rectal ultrasound) prior to surgery, three fistulous tracts were identified and drained. Due to the suspicion of IBD, the patient was qualified for colonoscopy. Colonoscopic findings confirmed the suspicion of CD. At this stage, after effective drainage of abscesses, identification and treatment of anal fistulas and local improvement, the patient should be qualified for biological treatment. However, it is impossible to implement this type of treatment in a county hospital, where there is no gastroenterology department. The attempts to transfer the patient to a unit with higher reference level were unsuccessful. The general condition of the man deteriorated despite some local improvement. Progressive anaemisation, asthenia, and the inability to perform enteroscopy despite suspected small bowel bleeding made it necessary to perform laparotomy, during which the involved segment of the ileum was excised and an end ileostomy was created. Complications of Crohn's disease, such as: strictures, fistulas, perforation, and obstruction, are the most commonly reported reasons for surgery in these patients (2). Bleeding leading to anaemisation, which was the reason for qualifying our patient for surgery, is also a serious complication of the disease.

Crohn's Disease Activity Index (CDAI) is the most common tool for assessing CD (tab. 1) (3). Our patient had a CDAI score of 202 just before qualification for surgery. This tool was not used on admission due to missing diagnosis at this time point. Despite the obtained score, his general condition was moderate, and the lack of immediate surgical intervention could have had fatal consequences.

The Montreal Classification for Crohn's Disease is the second most common tool used to assess CD patients (tab. 2). Our patient was classified in this system as A2, L1, B3 + p.

Additionally, when IBD was suspected, possible factors for the aggressive behaviour of the disease were assessed (2):

- age at diagnosis < 40 years (+),
- the need for glucocorticoids during the first episode of exacerbation (+/-?),
- perianal involvement (+),
- upper GI and small intestinal involvement (+) (4),
- severe endoscopic lesions (+),
- smoking tobacco (-).

Tab. 1. CDAI – Crohn's Disease Activity Index

Oceniany parametr	Punkty	Punkty pacjenta
Liczba luźnych stolców (w ciągu 7 dni)	x 2	14
Ból brzucha w skali 0-3 (w ciągu 7 dni)	x 5	10
Ogólne samopoczucie w skali 0-4 (w ciągu 7 dni)	x 7	8
Obecność powikłań – 1 pkt za każde z powikłań: – ból stawów lub zapalenie stawów, – zapalenie tęczówki lub naczyńówki oka, – obecność rumienia guzowatego, piodermii zgorzelinowej lub owrzodzeń aftowych, – obecność szczelin, przetok lub ropni odbytu, – obecność innych przetok, – temp. > 37,8°C w ciągu 7 dni	x 20	20
Stosowanie leków przeciwbiegunkowych w ciągu ostatnich 7 dni (0 – nie, 1 – tak)	x 30	0
Wyczuwalny guz w jamie brzusznej (0 – brak, 2 – wątpliwy, 5 – pewny)	x 10	0
Deficyt hematokrytu (47% u mężczyzn, 42% u kobiet)	x 6	150
Procentowy deficyt masy ciała (0% poniżej masy należnej)	x 1	0
CDAI Wyniki: < 150 – remisja, 150-220 – łagodne zaostrzenie, 220-300 – umiarkowane zaostrzenie, > 300 – ciężkie zaostrzenie		202

Tab. 1. CDAI – Crohn's Disease Activity Index

Parameter	Score	Patient's score
Number of loose stools (in the last 7 days)	x 2	14
Abdominal pain from 0-3 (in the last 7 days)	x 5	10
General well-being from 0-4 (in the last 7 days)	x 7	8
Complications: – a score of 1 for each complication: – arthritis/arthralgias, – iritis/uveitis, – erythema nodosum, pyoderma gangrenosum, or aphthous stomatitis, – anal fissure, fistula, or abscess, – other fistula, – fever/temperature > 37.8°C in the last 7 days	x 20	20
Anti-diarrhea drug use in the last 7 days (0 – no, 1 – yes)	x 30	0
Palpable abdominal mass (0 – no, 2 – questionable, 5 – definite)	x 10	0
Hematocrit deficit (47% in males, 42% in females)	x 6	150
Percentage of body weight loss (0% below ideal)	x 1	0
CDAI Interpretation: < 150 – remission, 150-220 – mild exacerbation, 220-300 – moderate exacerbation, > 300 – severe exacerbation		202

Tab. 2. Klasyfikacja montrealaska choroby Crohna

Kryterium	Klasyfikacja	
Wiek w momencie rozpoznania [lata]	A1	≤ 16
	A2	16-40
	A3	> 40
Lokalizacja zmian chorobowych	L1	Jelito kręte
	L2	Okreźnica
	L3	Jelito kręte i okreźnica
	L4	Górny odcinek przewodu pokarmowego
Przebieg choroby	B1	Bez zwężeń i przetok
	B2	Postać zwężająca
	B3	Postać przetokowa
	p (należy dodać do B1-3 przy współistnieniu zmian okołodbytowych)	Zmiany okołodbytowe

Brak było możliwości pobrania przeciwciał przeciwko antygenom bakteryjnym *Saccharomyces cerevisiae* – ASCA. Pomimo tego istniało duże prawdopodobieństwo, że przebieg choroby u pacjenta jest agresywny.

Większość prac naukowych na temat terapii choroby Crohna podkreśla znaczenie leczenia immunosupresyjnego, w tym najlepiej biologicznego. Postępowanie chirurgiczne jest pozostawione do leczenia powikłań choroby, takich jak: przetoki, ropnie i zwężenia. W 2008 roku przeprowadzono badanie, w którym pacjentów podzielono na dwie grupy: otrzymującą leczenie immunosupresyjne bez GKS oraz tych, którzy na pierwszym etapie leczenia otrzymali GKS (5). We wnioskach podkreślono, że w grupie pacjentów, którzy nie otrzymali glikokortykosteroidów, obserwowano szybszą remisję, nie wymagali oni interwencji chirurgicznej (60 vs 35,9% – pacjenci, którym włączono GKS). Autorzy podkreślają, że zsynchronizowane leczenie immunosupresyjne zapewnia znacznie lepsze wyniki niż standardowa terapia immunosupresyjna glikokortykosteroidami. Niestety, w większości prac nie jest poruszany temat dostępności do leczenia biologicznego. Tak jak w opisanym przez nas przypadku, nie zawsze możliwe jest natychmiastowe włączenie pacjenta do programu leczenia biologicznego pomimo uzyskania potwierdzenia rozpoznania choroby. Konwencjonalna terapia choroby Crohna składa się z kortykosteroidów, azatiopryny, metotreksatu, ale podkreśla się korzyści wynikające z wczesnego włączenia leczenia biologicznego (np. infliksimabu) (6, 7). Włączając terapię biologiczną, uzyskuje się lepszy stan ogólny pacjenta, remisję endoskopową pod postacią braku zmian w obrębie przewodu pokarmowego, a także zmniejszenie częstotliwości komplikacji, interwencji chirurgicznych oraz śmiertelności (8-11). Standardowa terapia immunosupresyjna była zwykle stosowana jako strategia „step up” – na początku

Tab. 2. The Montreal Classification for Crohn's Disease

Criterion	Classification	
Age at onset [years]	A1	≤ 16
	A2	16-40
	A3	> 40
Disease location	L1	Ileal
	L2	Colonic
	L3	Ileocolonic
	L4	Isolated upper disease
Disease behaviour	B1	Nonstricturing, nonpenetrating
	B2	Stricturing
	B3	penetrating
	p (to be added to B1-3 if concomitant perianal disease is present)	Perianal disease

Although it was not possible to assess anti-*Saccharomyces cerevisiae* antibodies (ASCA) in the patient, there was a high probability that the course of CD was aggressive.

Most of the scientific papers on the treatment of Crohn's disease emphasise the importance of immunosuppressive treatment, preferably biological. Surgical management is reserved for complications such as fistulas, abscesses and strictures. In 2008, a study was conducted in two groups of patients: those receiving immunosuppressive treatment without GCS and those who received GCS in the first stage of treatment (5). The conclusions emphasised faster remission and no need for surgery in the group of patients who did not receive glucocorticoids (60 vs 35.9% – patients on GCS). The authors emphasised that synchronized immunosuppressive therapy produces much better outcomes than standard immunosuppressive therapy with GCS. Unfortunately, most papers do not discuss the availability of biological treatment. As in the described case, it is not always possible to immediately include the patient in a biological treatment programme despite confirmed diagnosis. Although conventional treatment of CD consists of corticosteroids, azathioprine, and methotrexate, the benefits of early biological treatment (e.g. infliximab) are emphasised (6, 7). Inclusion of biological therapy improves patient's general condition and allows for endoscopic remission (no GI involvement), as well as reduces complication rates, surgical interventions and mortality (8-11). Standard immunosuppressive therapy was usually used as a “step-up” strategy, where high doses of corticosteroids were introduced at treatment onset,

leczenia włączano duże dawki kortykosteroidów, przy braku reakcji dołączano inne leki immunosupresyjne, a dopiero w przypadku nieskuteczności tych dwóch grup włączano leczenie biologiczne (2, 6). Możliwą modyfikacją tej strategii było jednoczesne włączenie kortykosteroidów wraz z innym lekiem immunosupresyjnym. Obecnie podkreślane jest znaczenie strategii „top down” – od początku leczenia choroby stosuje się leki biologiczne w połączeniu z lekami immunosupresyjnymi (najczęściej infliksimab + azatiopryna) (12). Taka terapia ma lepsze wyniki w indukcji remisji, podtrzymaniu remisji, a także uzyskaniu endoskopowej remisji (13, 14). Jednocześnie jednak takie leczenie jest związane z dużymi kosztami, a – o czym przekonaliśmy się w trakcie leczenia opisywanego pacjenta – bywa również trudne do włączenia od razu po rozpoznaniu choroby. Z jednej strony podkreśla się negatywne skutki długotrwałego stosowania GKS, a także możliwość rozwoju steroidooporności. Z drugiej jednak, czy każdego pacjenta z chorobą Leśniowskiego-Crohna należy kwalifikować do leczenia biologicznego? Opisany przypadek przedstawia pacjenta, u którego przebieg choroby był agresywny. Dodatkowo, choroba objęła końcowy odcinek jelita cienkiego, co prawdopodobnie jest związane z większym ryzykiem konieczności mnogich laparotomii w ciągu życia (4). Niestety, pomimo podjętych prób, nie udało się przekazać pacjenta do jednostki o wyższym poziomie referencyjności na tyle wcześniej, aby można było uniknąć leczenia chirurgicznego. Od razu po ustaleniu rozpoznania pacjentowi włączono glikokortykosteroidy, mesalazynę oraz azatioprynę, jednak stan pacjenta nie poprawił się na tyle, aby nie była konieczna interwencja chirurgiczna. W wykonanej kolonoskopii stwierdzono obecność krwistej treści w świetle jelita cienkiego. Nie było możliwości wykonania dokładniejszej oceny krwawienia w obrębie jelita cienkiego lub podjęcia próby interwencji endoskopowej. Obecnie podkreśla się rolę endoskopii kapsułkowej/enteroskopii (15, 16), jednak dostępność w Polsce do tego rodzaju badania jest znacząco ograniczona. Wszystkie wyżej opisane czynniki sprawiły, że pacjent, ze względu na wyczerpanie lub brak dostępności innych możliwości, wymagał leczenia chirurgicznego.

WNIOSKI

1. Choroba Leśniowskiego-Crohna jest przewlekłą chorobą autoimmunologiczną, której leczeniem powinny zajmować się oddziały gastroenterologii. Mają one możliwość kwalifikacji pacjentów do leczenia biologicznego, którego głównym celem jest ograniczenie procesu zapalnego i zapobieganie powikłaniom choroby poprzez podtrzymanie remisji.
2. Jako pierwszy objaw choroby Leśniowskiego-Crohna mogą wystąpić trudne w leczeniu ropnie i przetoki odbytu. Powinny one nasuwać podejrzenie nieswoistej choroby zapalnej jelit, co powinno skutkować wykonaniem diagnostyki w tym kierunku.
3. Leczenie chirurgiczne powinno być zarezerwowane do powikłań występujących w przebiegu choroby. Niemniej jednak zdarzają się pacjenci, którzy trafiają na oddział w stanie zagrożenia życia bez wcześniejszego rozpoznania choroby. Niemożliwe wtedy jest szybkie przekazanie pacjenta do ośrodka referencyjnego. Jedynym rozwiązaniem jest leczenie chirurgiczne, aby uratować pacjenta.

with other immunosuppressants included in the absence of response, and biological treatment initiated only when these two groups failed (2, 6). Simultaneous inclusion of corticosteroids with another immunosuppressant was a possible modification of this strategy. Currently, the importance of the “top down” strategy, where biological agents are used in combination with immunosuppressants (most often infliximab + azathioprine) from the treatment onset, is emphasised (12). Such therapy produces better outcomes in terms of inducing and maintaining remission, as well as achieving endoscopic remission (13, 14). At the same time, however, such treatment is associated with high costs, and, as we learned during the treatment of the described patient, it can also be difficult to start immediately after the diagnosis. On the one hand, the negative effects of long-term use of glucocorticoids, as well as the possibility of developing steroid resistance are emphasised. However, should we qualify every patient with CD for biological treatment? In the described case, the disease had an aggressive behaviour. Additionally, the end-segment of the small intestine was involved, which is probably associated with a higher risk of multiple laparotomies over the course of life (4). Unfortunately, the attempts to transfer the patient to a unit with a higher reference level early enough to avoid surgical treatment were unsuccessful. Although the patient was started on glucocorticoids, mesalazine and azathioprine immediately after the diagnosis, his condition did not improve to the extent allowing to avoid surgical intervention. Colonoscopy revealed the presence of blood in the small intestine. A more detailed assessment of small intestinal bleeding or an attempt at endoscopic intervention were not possible. Currently, the role of capsule endoscopy/enteroscopy is emphasised (15, 16). However, its availability is significantly limited in Poland. As a result of all the factors described above, the patient required surgical treatment due to the exhaustion or unavailability of other options.

CONCLUSIONS

1. CD is a chronic autoimmune disorder requiring treatment in gastroenterology clinics, which can qualify patients for biological treatment. The main goal of this approach is to reduce the inflammatory process and prevent disease complications by maintaining remission.
2. Difficult-to-treat anal abscesses and fistulas may be the first manifestation of CD. They should raise a suspicion of IBD, which should in turn lead to targeted diagnosis.
3. Surgery should be reserved for complications. Nevertheless, cases of undiagnosed patients admitted already in a life-threatening condition are still encountered. In such cases, rapid transfer to a reference centre is not possible and surgical approach remains the only solution to save the patient's life.

Konflikt interesów
Conflict of interest

Brak konfliktu interesów
None

Adres do korespondencji
Correspondence

*Sławomir Glinkowski
Oddział Chirurgii Ogólnej
i Onkologicznej
Tomaszowskie Centrum Zdrowia
ul. Jana Pawła II 35,
97-200 Tomaszów Mazowiecki
tel.: +48 608-177-914
drsg@wp.pl

nadesłano/submitted:
04.10.2021

zaakceptowano do druku/accepted:
25.10.2021

Piśmiennictwo/References

1. Szmidt J, Gruca Z, Krawczyk M et al.: Podstawy chirurgii. Tom 2 – podręcznik dla specjalizujących się w chirurgii ogólnej. MP, Kraków 2013: 780-786.
2. Radwan P: Czy można przewidzieć przebieg choroby Leśniowskiego-Crohna? Jak reagować? *Gastroenterologia Kliniczna* 2018; 10(1): 32-38.
3. Hebzda A, Górecka M, Dembiński M, Kukła M: Choroba Leśniowskiego-Crohna – diagnostyka i możliwości terapeutyczne. *Medycyna po Dyplomie* 2020; 29(12): 23-25.
4. Lazarev M, Huang C, Bitton A et al.: Relationship between proximal Crohn's disease location and disease behavior and surgery: A cross-sectional study of the IBD Genetics Consortium. *Am J Gastroenterol* 2013; 108(1): 106-112.
5. Haens G, Baert F, Assche G et al.: Early combined immunosuppression or conventional management in patients with newly diagnosed Crohn's disease: an open randomised trial. *Lancet* 2008; 371(9613): 660-667.
6. Lowenberg M, Peppelenbosch M, Hommes D: Biological therapy in the management of recent – onset Crohn's disease: why, when and how? *Drugs* 2006; 66(11): 1431-1439.
7. Jones J, Panaccione R: Biologic therapy in Crohn's disease: state of art. *Curr Opin Gastroenterol* 2008; 24(4): 475-481.
8. Ramadas AV, Gunesh S, Thomas GAO et al.: Natural history of Crohn's disease in a population – based cohort from Cardiff (1986-2003): a study of changes in medical treatment and surgical resection rates. *Gut* 2010; 59(9): 1200-1206.
9. Picco MF, Zubiaurre I, Adluni M et al.: Immunomodulators are associated with lower risk of first surgery among patients with non-penetrating non-stricturing Crohn's disease. *Am J Gastroenterol* 2009; 104(11): 2754-2759.
10. Feagan BG, Panaccione R, Sandorn WJ et al.: Effects of adalimumab therapy on incidence of hospitalization and surgery in Crohn's disease: results from the CHARM study. *Gastroenterology* 2008; 135(5): 1493-1499.
11. Lichtenstein GR, Yan S, Bala M et al.: Infliximab maintenance treatment reduces hospitalizations, surgeries, and procedures in fistulizing Crohn's disease. *Gastroenterology* 2005; 128(4): 862-869.
12. Antunes O, Filippi J, Hebuterne X, Peyrin-Biroulet L: Treatment algorithms in Crohn's – up, down or something else? *Best Pract Res Clin Gastroenterol* 2014; 28(3): 473-483.
13. Sandborn WJ, Hanauer S, Assche GV et al.: Treating beyond symptoms with a view to improving patient outcomes in inflammatory bowel diseases. *J Crohns Colitis* 2014; 8(9): 927-935.
14. Guizzetti L, Zou G, Khanna R et al.: Development of Clinical Prediction Models for Surgery and Complications in Crohn's Disease. *J Crohn Colitis* 2018; 12(2): 167-177.
15. Skannelos A, Lazaridis N, Vlachou E et al.: The role of small-bowel endoscopy in inflammatory bowel disease: an updated review on the state-of-the-art in 2021. *Ann Gastroenterol* 2021; 34(5): 599-611.
16. Tai FWD, Ellul P, Elosua A et al.: Penetrating capsule endoscopy identifies proximal small bowel disease guiding upstaging and treatment intensification in Crohn's disease: A European multicentre observational cohort study. *UEG Gastroenterol J* 2021; 9: 248-255.