Case report. ACNES als oorzaak van buikpijn in de urologische praktijk

Fleurine M. N. Rasenberg¹ · Rik de Jongh¹ · Rudi M. H. Roumen¹

Published online: 19 March 2018
© The Author(s) 2018.

Samenvatting

Buikpijn kan vele oorzaken hebben en wordt vaak toegeschreven aan disfunctionerende organen (viscerale pijn). Buikklachten kunnen ook worden veroorzaakt door afwijkingen in de buikwand zelf. Een voorbeeld hiervan is het *anterior cutaneous nerve entrapment syndrome* (ACNES). ACNES wordt echter in de hedendaagse kliniek vaak niet (h)erkend als oorzaak van (chronische) buikpijn. Urologen zien geregeld patiënten met buik- en flankpijnen zonder een duidelijk urologisch substraat. Aan de hand van deze casuïstiek willen wij de diagnose ACNES bij urologen onder de aandacht brengen om zodoende onnodig *delay* en frustrerend negatief onderzoek bij deze patiëntengroep te voorkomen.

Trefwoorden anterior cutaneous nerve entrapment syndrome (ACNES) · chronische buikpijn · flankpijn · neurectomie

Case report. ACNES as cause of abdominal pain in a urology clinic

Abstract

Abdominal pain can have many causes and is often attributed to dysfunctional organs (visceral pain). Abdominal complaints can also be caused by abnormalities in the abdominal wall itself. Anterior cutaneous nerve entrapment syndrome (ACNES) is a common but relatively unknown source of abdominal wall pain. Urology specialists regularly see patients with abdominal and flank pain without any urological substrate. We present a case report of two patients seen at the urology outpatient clinic, who were eventually diagnosed with ACNES. Our cases illustrate the importance of considering ACNES in the differential diagnosis. Early diagnosis can avoid unnecessary investigations, treatment and considerable cost.

Keywords anterior cutaneous nerve entrapment syndrome (ACNES) · chronic abdominal pain · flank pain · neurectomy

Introductie

Anterior cutaneous nerve entrapment syndrome (ACNES) is een pijnsyndroom dat conceptueel ontstaat door ‘entrapment’ van anterieure cutane eindtakken van de thoracale intercostaalzenuwen (Th 8–12) door de musculus rectus abdominis (fig. 1 en 2; [1]). Het syndroom werd voor het eerst in 1926 beschreven door chirurg Carnett [2]. Uit de literatuur blijkt dat dit pijnsyndroom tegenwoordig nog behoorlijk onbekend is, zowel in de eerste als in tweede lijn. Uit een overzicht uit 2006 bleek dat 85 % van de chirurgen en assistenten nog nooit van ACNES had gehoord [1].

Dit is overigens een tiental jaren later sterk verbeterd. De bekendheid onder urologen is nooit onderzocht.

Onbekendheid met ACNES leidt onvermijdelijk tot het uitstellen van behandeling en vaak tot een langdurige onsuccesvolle en frustrerende rondgang in het medisch circuit [1]. Zonder duidelijke diagnose worden de klachten van de patiënt uiteindelijk vaak toegeschreven aan een functioneel of psychisch probleem.

Aan de hand van urologische casuïstiek die wij in onze kliniek zagen, brengen wij de diagnose ACNES onder de aandacht. Het karakteristieke verhaal van de patiënt en een simpel lichamelijk onderzoek door de arts blijken veelal voldoende voor het stellen van de diagnose.

✉ drs. Fleurine M. N. Rasenberg
fleurinerasenberg@gmail.com

¹ afdeling Urologie, SolviMáx, Máxima Medisch Centrum, Veldhoven, Nederland

Figuur 1 Het verloop en de distributie van een intercostale zenuw ramus (r.) cutaneus anterior op abdominaal niveau [3]

Figuur 2 Klinisch aanwijsbare punten (X) die ter hoogte van de intercostale zenuwdoorgangen door de rechter m. rectus abdominis gaan, waar pijn kan ontstaan. Ter hoogte van de navel bevindt zich het dermatoom T10 [4]

Casus

Patiënt A

Patiënt A, een 42-jarige vrouw met in de voorgeschiedenis urolithiasis, presenteert zich op de Spoedeisende Hulp (SEH) met acute, zeurende buikpijn met bewegingsdrang, misselijkheid en braken. De pijn is gelokaliseerd in de linkerflank en onderbuik zonder uitlokkend moment. Zij heeft sinds de nacht wel aandrang, maar geen mictie. Haar laatste defecatie was twee dagen geleden.

Bij lichamelijk onderzoek bestaat er drukpijn in het linker hemiabdomen en de blaasregio en slagpijn in de linkernierloge. Bloedonderzoek en urineonderzoek laten geen bijzonderheden zien. Op de CT-abdomen wordt een klein calixconcrement in de onderpool van de linkernier gezien, zonder verdere afwijkingen. Met als werkdiagnose urolithiasis wordt zij opgenomen op de afdeling Urologie voor pijnstilling. Ondanks scopolaminebutyl, diclofenac en tamsulosine verbeteren de klachten onvoldoende.

Tijdens herbeoordeling de volgende ochtend valt op dat de buikpijn met één vingertop in de buikwand valt aan te wijzen. Klachten bestaan op het moment van herbeoordeling ongeveer 12 uur. Het maximale pijnpunt is zeer lokaal en valt binnen de laterale grens van de musculus rectus abdominis. De gevoeligheid neemt toe als de buikspieren

worden aangespannen. De *Visual Analog Scale* (VAS) score bedraagt 9/10. Bovendien bestaan er sensibiliteitsstoornissen, zoals veranderd gevoel voor tast en koude in een klein gebied rondom het triggerpunt. De huid reageert opvallend pijnlijk bij licht knijpen (*pinch test*), zeker in vergelijking met de niet-aangedane kant.

Bij afwezigheid van urologische symptomatologie en verdenking op ACNES wordt de chirurg in consult gevraagd. Op grond van een vermoeden van ACNES wordt de buikwand (subfasciaal) geïnfilteerd met lidocaïne 8 ml 1 %, waarna patiënt direct pijnvrij is. Helaas keert de pijn na twee uur terug.

Patiënt bezoekt daarna de chirurgische expertisepolikliniek SolviMáx, in verband met aanhoudende pijnklachten, en na slechts tijdelijk effect van lokale injecties wordt uiteindelijk een zogenaamde voorste neurectomie Th11 links uitgevoerd. Na deze kleine ingreep is patiënt geheel pijnvrij, met een follow-up van zes maanden.

Patiënt B

Patiënt B, een 50-jarige man, wordt gezien op de polikliniek Urologie met sinds enkele weken toename van buikpijn middenin de onderbuik, met uitstraling naar de penis en regio pubica. De pijn is stekend en brandend van aard en wordt opgewekt door een stugge broek die in het midden van de onderbuik drukt.

Bij lichamelijk onderzoek zijn er specifieke pijnpunten: op 2 cm van de onderrand van de navel en 2 cm lateraal van de mediaanlijn beiderzijds. Bij aanspannen van de buikspieren neemt de pijn toe en bovendien is er sprake van lokale sensibiliteitsstoornissen: hypo-esthesie met veranderde koudesensatie en een positieve *pinching* van de huid. Uitgebreid aanvullend onderzoek (bloedonderzoek, urineonderzoek, echo abdomen, renogram en cystoscopie) geeft geen urologisch substraat voor de pijnklachten. Gezien het vermoeden op ACNES wordt patiënt verwezen naar de Polikliniek SolviMáx.

De chirurg heeft op proef ter plaatse van de twee specifieke pijnpunten (VAS-score 8) de buikwand lokaal geïnfilteerd met lidocaïne 8 ml 1 %. Na 20 minuten is het gebied pijnvrij (VAS-score 2). Met een follow-up van twee jaar blijkt er nog steeds een positief effect te bestaan van deze eenmalige behandeling.

Discussie

Epidemiologie en etiologie

De incidentie van ACNES is onbekend, maar wordt geschat op circa 1:4–5000. Dit pijnsyndroom treft vooral vrouwen, maar komt ook voor bij mannen en kinderen van alle leef-

tijdscategorieën [1, 5, 6]. Ongeveer 1 op de 50 patiënten met (acute) buikklachten die zich presenteren op de SEH heeft klachten die zijn gerelateerd aan ACNES [6].

ACNES kan geleidelijk ontstaan of zich in acute vorm presenteren [1].

Oorzaken van ACNES zijn een verhoogde intra-abdominale druk, bijvoorbeeld na een bevalling, en alle mogelijke vormen van abdominale chirurgie. In 50–60 % van de gevallen is de oorzaak van ACNES echter onbekend [2].

Diagnostiek en behandeling

Zorgvuldige anamnese en gericht lichamelijk onderzoek helpen de arts om tot een diagnose te komen. Patiënten met ACNES vermelden vaak een zeer lokaal pijnpunt binnen de laterale grenzen van de musculus (m.) rectus abdominis (fig. 2). De pijn wordt veelal beschreven als scherp en brandend, is geassocieerd met activiteit en kan gepaard gaan met non-specifieke maar viscerale symptomen, zoals misselijkheid, een opgeblazen gevoel, verlies van eetlust en zelfs neiging tot braken. De pijn kan ook uitstralen via de ribbenboog naar rug, flanken en zelfs de regio pubica en genitalia, wat ook het geval is bij patiënt B. Hierdoor kan de indruk ontstaan dat de buikorganen bij de klachten zijn betrokken. De relatie tussen een viscerale afwijking enerzijds en de huid van de buikwand met sensibiliteitsstoornissen en neuropathische pijn anderzijds is al eerder beschreven door Head en MacKenzie [8, 9]. Van hen is de term *referred pain* afkomstig, waarmee zij bedoelen dat de pijn van inwendige organen wordt geprojecteerd op een specifiek huidgebied. Uitgangspunt van *referred pain* is het bestaan van viscerocutane reflexen. Deze theorie berust op het feit dat de viscerale zenuwen en de somatische huidzenuwen uittraden op hetzelfde niveau van de dorsale wortel en het ruggenmerg [10, 11]. Dit maakt het voor onze hersenen moeilijk om onderscheid te maken tussen orgaanpijn en neuropathische pijn van de buikwand.

Indien viscerale oorzaken van acute buikpijn zijn uitgesloten met gedegen anamnese, lichamelijk onderzoek, bloedonderzoek en beeldvormende technieken, kunnen enkele simpele testen bij lichamelijk onderzoek in de richting van ACNES wijzen.

Carnett beschrijft een simpel uit te voeren test om te discrimineren tussen pariëtale en viscerale pijn [2]. De betrouwbaarheid van deze test is herhaaldelijk bevestigd in de literatuur [12, 13]. De Carnett-test is positief als de liggende patiënt het hoofd buigt of de gestrekte benen heft, en daarbij de buikwandpijn (pariëtale pijn) toeneemt onder de palperende onderzoeksvinger. Neemt de pijn echter af, dan is de Carnett-test negatief, wat wijst in de richting van pijn van viscerale oorsprong, doordat de buikwandmusculatuur beschermt tegen palpatiepijn (fig. 3; [1, 2]).

Figuur 3 a Testen van de gnostische huidsensibiliteit met een wattenstokje. b Testen van de vitale huidsensibiliteit met een gaasje gedrenkt in alcohol. c *Pinch test*: Vastpakken van huid en onderhuids vet tussen duim en wijsvinger, waarbij de aangedane zijde gevoeliger zal zijn dan de contralaterale, niet-aangedane zijde [7]. d Lokalisatie van het maximale pijnpunt met de palperende wijsvinger. De gevoeligheid neemt toe als de buikspieren worden aangespannen als de patiënt het hoofd of de benen omhoog brengt (een positieve Carnett-test)

Verder treden bij ACNES vaak sensibiliteitsstoornissen op rondom het maximale pijnpunt. De gnostische sensibiliteit kan worden geëvalueerd met bijvoorbeeld een wattenstaafje, waarbij hypo-esthesie, hyperesthesie/algesie en zelfs allodynie kan worden vastgesteld. Een in alcohol gedrenkt gaasje kan de vitale sensibiliteit (koude) in kaart brengen. Bij de *Pinch test* wordt met duim en wijsvinger in de huid en het onderhuids vet geknepen en de mate van pijn bepaald. De test is positief als knijpen in het aangedane gebied pijnlijker is dan knijpen in het niet-aangedaan gebied. Uit onderzoek van Assen et al. bleek dat de *Pinch test* een heel sensitieve test is en zij concludeerden dat de hier beschreven simpele handelingen een standaardplek verdienen bij het onderzoek van de acute buik (fig. 3; [6]).

Als de diagnose ACNES aannemelijk is, wordt een lokale buikwandinjectie geadviseerd. Een injectie met 5–10 ml lidocaïne 1–2 % ter plaatse van het pijnpunt net onder rectusfascie, geeft in het algemeen directe pijnreductie en bevestigt het vermoeden van de diagnose. Het pijnstillend effect kan enkele uren duren, maar soms ook langdurig aanhouden. Dit laatste blijkt te berusten op een stabiliserend effect van de zenuwmembraanbegeleiding en de gunstige invloed op de Na- en K-kanalen bij dit proces. [7].

Uit onderzoek van Boelens et al. bleek dat ongeveer één op de drie patiënten blijvend pijnvrij wordt met één of meer injecties [1]. De rol van het toevoegen van corticosteroiden wordt door deze onderzoeksgroep momenteel in een gerandomiseerde trial onderzocht.

De SolviMáx-groep heeft twee dubbelblinde gecontroleerde onderzoeken uitgevoerd naar de behandeling van volwassenen met ACNES [7, 14]. In een single center onderzoek werd één patiëntengroep geïnjecteerd met lidocaïne en de andere groep met een placebo NaCl-oplossing [7]. 54 % van de lidocaïne-groep tegenover 17 % van de NaCl-groep toonde een positief resultaat na 15–20 minuten. De auteurs concludeerden op grond daarvan dat pijnreductie gebaseerd is op de anesthesische mechanismen en niet op placebo, een mechanisch (volume) of zelfs een *dryneedling*-effect. Een operatieve ingreep (waarbij de eindtakjes van de intercostaalzenuw op het voorste fascieniveau worden verwijderd), vindt pas plaats wanneer patiënten onvoldoende reageren op conservatieve behandelmethoden. In een daaropvolgend dubbelblind gerandomiseerd chirurgisch onderzoek werd aangetoond dat een neurectomie een effectieve chirurgische procedure is bij de behandeling van ACNES. 73 % van de neurectomie-groep versus 18 % van de placebo-groep (sham-operatie) gaf significante pijnverlichting aan na de ingreep [15]. Na een mediane follow-up van 18 maanden was 71 % van de patiënten nog steeds zeer tevreden met het resultaat van de neurectomie. Bij 6 % van deze groep ontstond een recidief ACNES-pijnbeeld [14]. Een secundaire neurectomie bleek gunstig bij aanhoudende of recidiverende klachten. Bij twee derde van deze selecte populatie verminderde de pijn na een tweede neurectomie alsnog [1, 16, 17].

Conclusie

Deze case reports illustreren het belang van de inclusie van ACNES in de differentiaaldiagnose van de uroloog bij patiënten met acute en chronische buikwandklachten. Op basis van een gerichte anamnese en eenvoudig lichamelijk onderzoek kan men tot de juiste diagnose komen, wat een jaren durende, frustrerende rondgang door het medische circuit kan voorkomen.

Open Access This article is distributed under the terms of the Creative Commons Attribution 4.0 International License (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided you give appropriate credit to the original author(s) and the source, provide a link to the Creative Commons license, and indicate if changes were made.

Literatuur

1. Roumen RM, Scheltinga MR. Abdominal intercostal neuralgia: a forgotten cause of abdominal pain. *Ned Tijdschr Geneesk.* 2006;150(35):1909–15.
2. Carnett JB. Intercostal neuralgia as a cause of abdominal pain and tenderness. *Surg Gynecol Obstet.* 1926;42:625–32.
3. Schünke M, Schulte E, Schumacher U. Anatomische atlas Prometheus. Algemene anatomie en bewegingsapparaat. 2e druk. Houten: Bohn Stafleu van Loghum; 2007.
4. Assen T van, Jager-Kievit JW de, Scheltinga MR, Roumen RM. Chronic abdominal wall pain misdiagnosed as functional abdominal pain. *J Am Board Fam Med.* 2013;26(6):738–44.
5. Costanza CD, Longstreth GF, Liu AL. Chronic abdominal wall pain: clinical features, health care costs, and long-term outcome. *Clin Gastroenterol Hepatol.* 2004;2(5):395–9.
6. Assen T van, Brouns JA, Scheltinga MR, Roumen RM. Incidence of abdominal pain due to the anterior cutaneous nerve entrapment syndrome in an emergency department. *Scand J Trauma Resusc Emerg Med.* 2015;23:19.
7. Boelens OB, Scheltinga MR, Houterman S, Roumen RM. Randomized clinical trial of trigger point infiltration with lidocaine to diagnose anterior cutaneous nerve entrapment syndrome. *Br J Surg.* 2013;100(2):217–21.
8. Head H. On disturbances of sensation with especial reference to the pain of visceral disease. *Brain.* 1893;16(1–2):1–133.
9. Mackenzie J. Contribution to the study of sensory symptoms associated with visceral disease. *Med Chron.* 1892;16:293–322.
10. Hansen K, Schliack H. Segmentale Innervation. Ihre Bedeutung für Klinik and Praxis. Stuttgart: Thieme; 1962.
11. Luz LL, Fernandes EC, Sivado M, et al. Monosynaptic convergence of somatic and visceral C-fiber afferents on projection and local circuit neurons in lamina I: a substrate for referred pain. *Pain.* 2015;156(10):2042–51.
12. Takada T, Ikusaka M, Ohira Y, et al. Diagnostic usefulness of Carnett's test in psychogenic abdominal pain. *Intern Med.* 2011;50:213–7.
13. Thomson H, Francis DM. Abdominal-wall tenderness: a useful sign in the acute abdomen. *Lancet.* 1977;2(8047):1053–4.
14. Boelens OB, Scheltinga MR, Houterman S, Roumen RM. Management of anterior cutaneous nerve entrapment syndrome in a cohort of 139 patients. *Ann Surg.* 2011;254(6):1054–8.
15. Boelens OB, Assen T van, Houterman S, et al. A double-blind, randomized, controlled trial on surgery for chronic abdominal pain due to anterior cutaneous nerve entrapment syndrome. *Ann Surg.* 2013;257(5):845–9.
16. Assen T van, Boelens OB, Eerten PV van, et al. Surgical options after a failed neurectomy in anterior cutaneous nerve entrapment syndrome. *World J Surg.* 2014;38(12):3105–11.
17. Oor JE, Unlu C, Hazebroek EJ. A systematic review of the treatment for abdominal cutaneous nerve entrapment syndrome. *Am J Surg.* 2016;212(1):165–74.

drs. Fleurine M.N. Rasenberg anios urologie

dr. Rik de Jongh uroloog

dr. Rudi M.H. Roumen chirurg