

DUPLICACIONES DEL TRACTO GASTROINTESTINAL EN NIÑOS: PRESENTACIÓN DE DOS CASOS. HOSPITAL INFANTIL DOCTOR ROBERT REID CABRAL (HIRRC), REPÚBLICA DOMINICANA

*Duplication of the gastrointestinal tract in children, Presentation
of two cases. Robert Reid Cabral Children's Hospital,
Dominican Republic*

Manuel Perez^a, Aura Carrasco^b, Carlos Cabrera Valerio^c, Emmanuel Pérez^d, Erick Félix^e
y Eliana Toral^f

Recibido: 2 de octubre, 2019 • Aprobado: 6 de diciembre, 2019

Cómo citar: Pérez M, Carrasco A, Cabrera Valerio C, Pérez E, Félix E, Toral E. Duplicaciones del tracto gastrointestinal en niños, presentación de dos casos. Hospital Infantil Doctor Robert Reid Cabral (HIRRC), República Dominicana. *cysa* [Internet]. 3 de marzo de 2020 [citado 4 de marzo de 2020];4(1):79-5. Disponible en: <https://revistas.intec.edu.do/index.php/cisa/article/view/1660>

Resumen

Introducción: la duplicación gastrointestinal es una anomalía relativamente rara que puede ocurrir en cualquier nivel desde la cavidad bucal hasta el recto, los casos de duplicación gástrica son aún más raros, y la mayoría de ellos se han reportado en niños.

Material y método: en el siguiente trabajo se expone dos casos; número 1: paciente de sexo femenino de 2 años de edad, con presentación clínica de vómitos de contenido alimentario que luego se tornaron biliosos en número de 3-4 ocasiones por día, de 2 días de evolución, dolor abdominal difuso de 2 días de evolución, masa abdominal localizada en hemiabdomen derecho. Caso número 2:

Abstract

Introduction: Gastrointestinal duplication is a relatively rare anomaly that can occur at any level from the oral cavity to the rectum, cases of gastric duplication are even more rare, and most of them have been reported in children.

Material and method: In the following work two cases are exposed: number 1 female patient of 2 years of life, with clinical presentation of vomiting of food content that later became bilious in number of 3-4 occasions per day of 2 days of evolution, diffuse abdominal pain of 2 days of evolution, abdominal mass located in the right hemiabdomen. Case number 2 male patient of 4 days of life,

^a Cirujano Pediátrico del Hospital Infantil Dr. Robert Reid Cabral (HIRRC), Santo Domingo, República Dominicana
Correo-e: manuelpereznova@gmail.com

^b Cirujano Pediátrico del Hospital Infantil Dr. Robert Reid Cabral (HIRRC), Santo Domingo, República Dominicana
Correo-e: aurayokastacarrasco@gmail.com

^c Cirujano Pediátrico del Hospital Infantil Dr. Robert Reid Cabral (HIRRC), Santo Domingo, República Dominicana
Correo-e: carloscabrera84@gmail.com

^d Cirujano Pediátrico del Hospital Infantil Dr. Robert Reid Cabral (HIRRC), Santo Domingo, República Dominicana
Correo-e: dr.ept84@gmail.com

^e Cirujano Pediátrico del Hospital Infantil Dr. Robert Reid Cabral (HIRRC), Santo Domingo, República Dominicana
Correo-e: ev.fp82@gmail.com

^f Cirujano Pediátrico del Hospital Infantil Dr. Robert Reid Cabral (HIRRC), Santo Domingo, República Dominicana
Correo-e: elianatoral@gmail.com



paciente masculino de 4 días de vida, a quien se realiza ultrasonido obstétrico a las 34 semanas de gestación, donde se evidencia imagen quística nivel abdominal. A ambos casos se le realiza laparotomía exploratoria evidenciando en caso número 1: duplicación gástrica al que se le realiza exéresis total y rafia gástrica, y el caso número 2: malrotación intestinal con vólvulo de intestino medio más duplicación intestinal (ileal), al que se le aplica procedimiento de Ladd más resección y anastomosis terminal ileoileal, ambos pacientes evolucionan de manera satisfactoria.

Conclusión: el propósito consiste en describir la presentación de ambos casos en la infancia, lo importante de los métodos diagnósticos y de la corrección quirúrgica por diferentes técnicas según la localización del quiste en el tracto gastrointestinal.

Palabras Clave: tracto gastrointestinal; duplicación gastrointestinal; duplicación gástrica; República Dominicana; anomalía congénita.

Introducción

Las Duplicaciones del Tracto Gastrointestinal (DTG) son anomalías congénitas poco comunes que pueden ocurrir en cualquier parte del tracto gastrointestinal (TG).^{1,2} La mayoría de las duplicaciones se detectan en niños (prenatal o en los primeros dos años de vida) y menos del 30 % de todas las duplicaciones son detectadas en adultos.³ Las duplicaciones del tracto gastrointestinal, generalmente, corresponden al 15 % de las masas abdominales en pediatría.⁴ La incidencia global de las duplicaciones digestivas estaría entre 4.000 y 6.000 recién nacidos. La forma más frecuente es quística (94 %).⁵

La mayoría de las duplicaciones son benignas, pero la presencia de mucosa gástrica ectópica y el potencial de degeneración maligna siguen siendo una preocupación.⁶ La manifestación de la duplicación gástrica varía en niños con diferentes edades y puede presentar dolor abdominal, vómitos, heces con

to whom obstetric ultrasound is performed at 34 weeks of gestation where abdominal cystic image is evidenced. Both cases are performed exploratory laparotomy evidencing in case number 1 gastric duplication to which total exeresis and gastric raffia is performed and case number 2 evidences intestinal malrotation with volvulus of the middle intestine plus intestinal duplication (ileal) to which procedure is performed From Ladd plus resection and ileoileal terminal anastomosis, both patients evolve satisfactorily.

Conclusion: The purpose is to describe the presentation of both cases in childhood, the importance of diagnostic methods and surgical correction by different techniques according to the location of the cyst in the gastrointestinal tract.

Keywords: Gastrointestinal tract; gastrointestinal duplication; gastric duplication; cystic duplication; Dominican Republic.

sangre, dificultad para alimentarse u otros síntomas gastrointestinales inespecíficos.⁷

Presentación de caso

Caso 1

Femenina de dos años de vida, historia de vómitos de contenido alimentario que luego se tornaron biliosos en número de 3-4 ocasiones por día, de dos días de evolución; dolor abdominal difuso de dos días de evolución, como hallazgo positivo, masa abdominal localizada en hemiabdomen derecho, indurada, de bordes regulares, no móvil. Sonografía que reporta con imagen hipocógena de bordes regulares, avascular al doppler que mide 9.7 x 7.7 cm, tomografía con imagen hipodensa de densidad líquida, homogénea de bordes neto, pared ligeramente hiperdensa bien regular de 70 x 50 mm, con reporte a favor de quiste mesentérico descarta un quiste de colédoco.

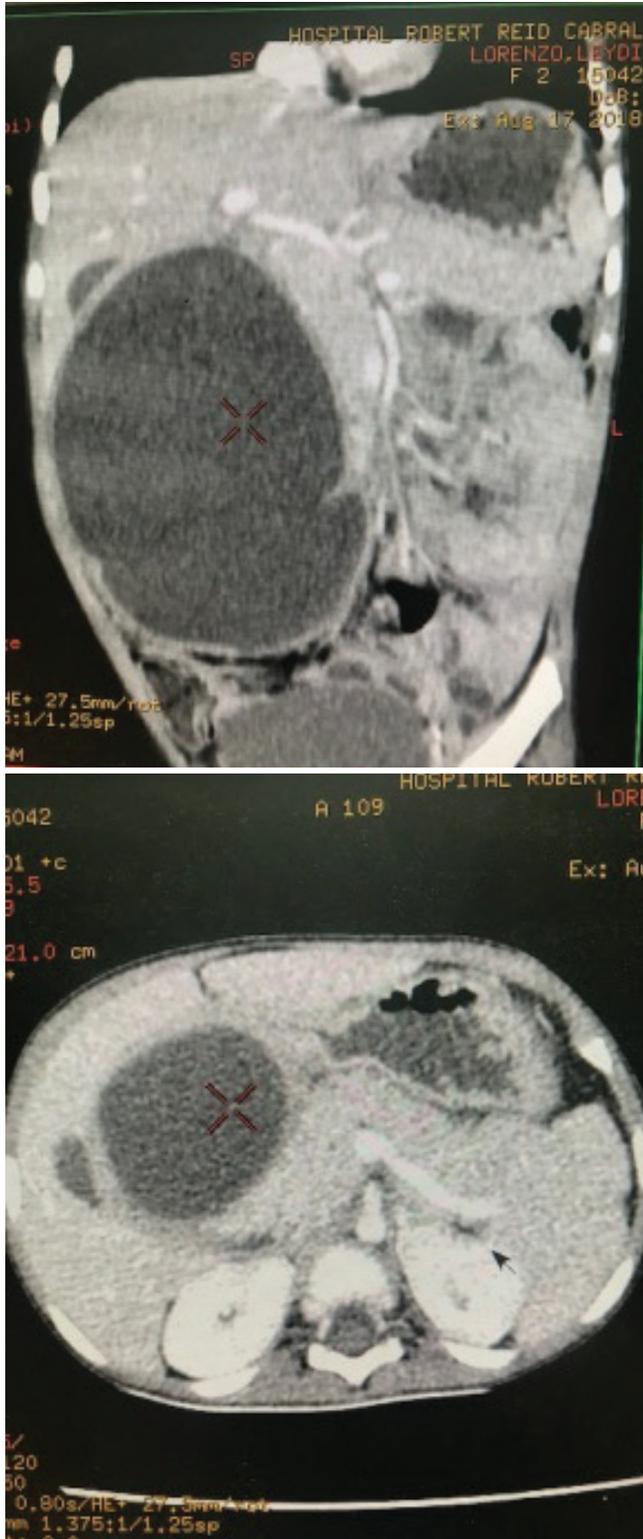


Figura 1. Tomografía Axial Computarizada de abdomen donde se evidencia imagen hipodensa de bordes regulares y aspecto quístico en hemiabdomen derecho.

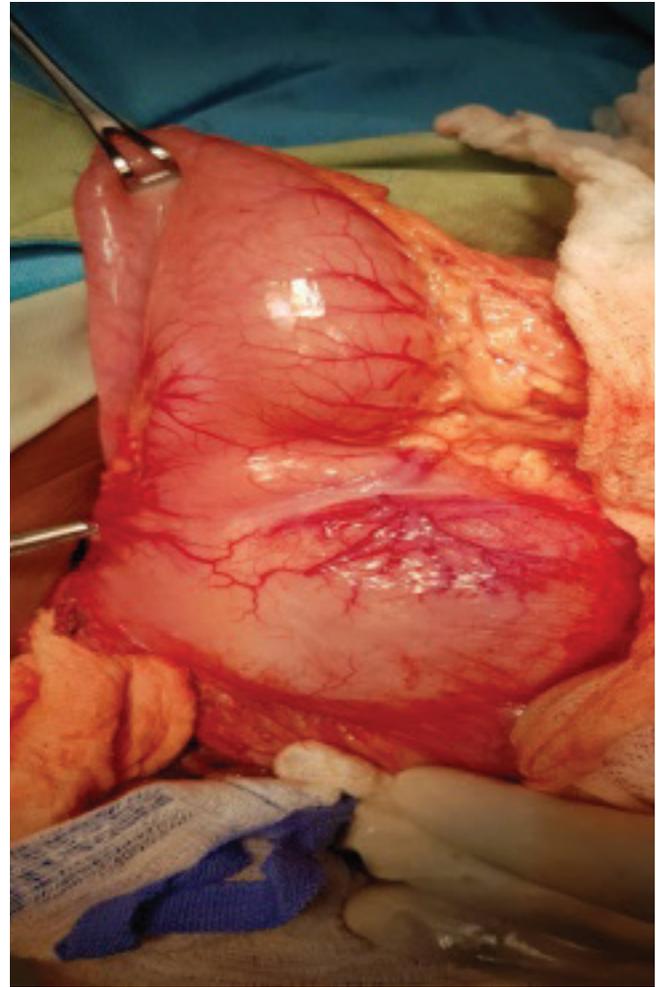


Figura 2. Imagen transquirúrgica de duplicación gástrica in situ.

Se le realiza laparotomía exploratoria, evidenciando duplicación gástrica, localizada en la curvatura mayor del antropilórico extendiéndose hacia la cara anterior y posterior de esta zona gástrica, con gran vascularidad, se drena contenido líquido de aspecto claro espeso, luego se realiza exéresis extirpando pared muscular común de la curvatura mayor del estómago, se realiza rafia de la pared del estómago, se verifica adecuado paso de contenido del estómago al duodeno. Se recibe biopsia de muestra enviada a Patología, la cual reporta duplicación gástrica. Paciente con adecuada evolución, iniciando tolerancia de vía oral al cuarto día del posquirúrgico.

Caso 2

Paciente masculino de cuatro días de vida hijo de madre 35 años G2C2 quien cursó con chequeos prenatales regulares, se realiza ultrasonido obstétrico a las 34 semanas de gestación donde se evidencia a nivel abdominal imagen anecogénica redondeada de bordes definidos con cambios al doppler color con medidas 4,3 x 3,7 con la cual no se logra asociar con ningún órgano específico sugerente de quiste mesentérico. Se le realiza tomografía axial computarizada de abdomen en el primer día de vida, en la cual se aprecia imagen ocupante de espacio a nivel intraperitoneal que muestra bordes parcialmente regulares y densidad homogénea, aspecto de masa desplazando asas intestinales adyacentes, localizada a nivel del abdomen izquierdo con medidas aproximadas de 3,8 x 4,1 cm. Se lleva a sala de cirugía al 9no día de vida donde se le realiza laparotomía exploratoria encontrando malrotación intestinal con vólvulo de intestino medio y duplicación intestinal quística (ileal) por lo que se le realiza procedimiento de Ladd y resección y anastomosis término-terminal ileo-ileal. Se recibe reporte de muestra enviada a Patología, la cual concluye: duplicación intestinal ileal.

Paciente evoluciona de manera satisfactoria, iniciando la vía oral al 6to día del posquirúrgico.

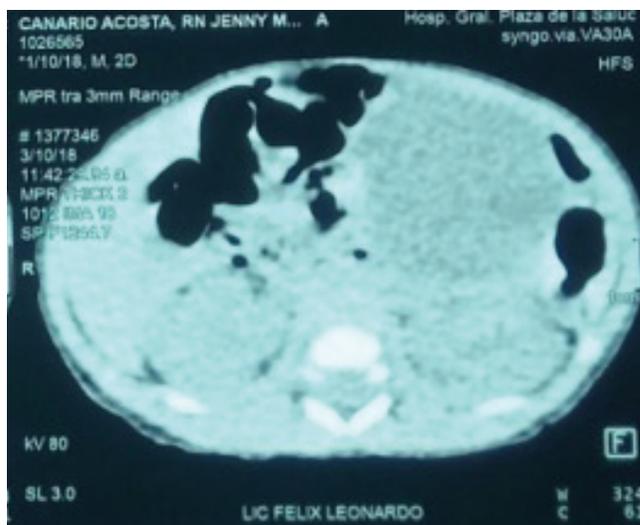


Figura 3. (A) Ecografía obstétrica evidenciando masa quística intraabdominal. (B) Tomografía Axial computarizada evidencia masa quística de bordes regulares en hemiabdomen izquierdo.

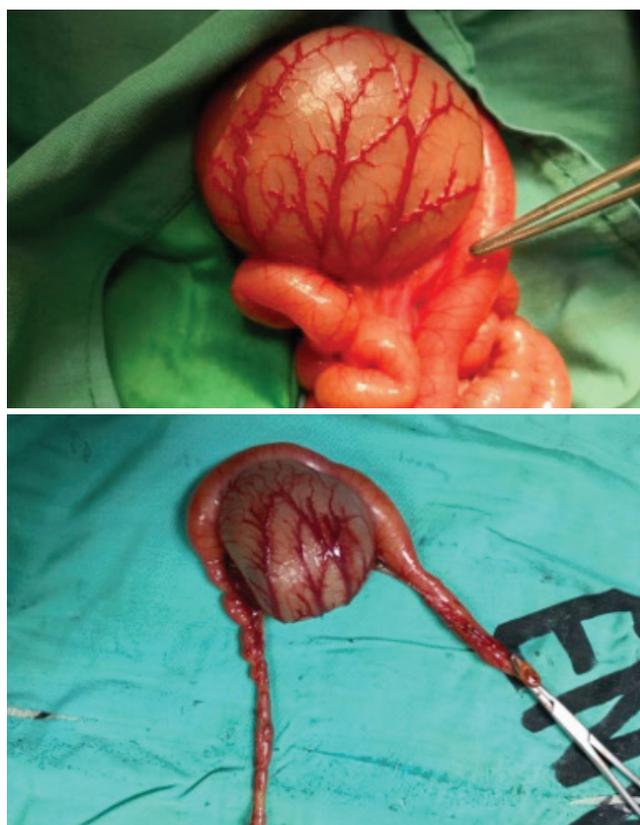


Figura 3. (A) Duplicación intestinal en segmento ileal in situ con vólvulo intestino medio. (B) Duplicación intestinal en segmento ileal resecado.

Discusión

En 1884 Reginald Fitz introdujo el término “duplicación intestinal” para describir y explicar las anomalías quísticas congénitas del tracto gastrointestinal, las que él pensó que eran remanentes del conducto onfalomesentérico. En 1937 Ladd recomendó el uso del término “duplicaciones del tracto alimentario”, y las observaciones de este autor consolidaron la clasificación de esta entidad y clarificaron su diferenciación de otras malformaciones quísticas del tracto gastrointestinal. Posteriormente, Gross y Holcomb en 1952, con la intención de simplificar la nomenclatura retrocedieron hasta los trabajos de Fitz, y propusieron que el término “duplicación intestinal” fuera utilizado para todas estas anomalías independientemente de su sitio de origen, morfología o derivación embriológica. Esta nomenclatura es la que actualmente continúa en uso.^{2, 5, 8}

Las DTG pueden ser únicas, múltiples o complejas y pueden representar un reto diagnóstico y terapéutico. La patogenia aún permanece ambigua, a pesar de que se han sugerido errores en la canalización embriológica o parte de síndrome de la notocorda.^{1, 8} Los síntomas de la DTG dependen de la localización de la lesión.¹ Se reportan aproximadamente un 75 % de las duplicaciones en cavidad abdominal, mientras que el resto son intratorácica (20 %) o toracoabdominal (5 %). Las lesiones ileales son las más frecuentes (53 %), seguidas de medias-tínicas (18 %), colónicas (13 %), gástricas (7 %), duodenales (6 %), rectales (4 %), esofágicas (2 %) y cervicales (1 %).³ Se pueden encontrar en borde mesentérico así como en lado contralateral.

Existen dos tipos de duplicación quística intestinal, en general pueden ser quísticas, que corresponde al 80 % de los casos, son de forma esférica y no se comunican por el lumen del intestino; o tubulares, que corresponden al 20 % de los casos y comunican directamente con lumen de intestino. Son generalmente masas saculares o tubulares con adherencia

íntima al tracto gastrointestinal, una capa de músculo liso en la pared y un revestimiento epitelial parecido a alguna parte del tracto gastrointestinal. Los quistes pueden verse incorporados a la pared intestinal y compartir irrigación sanguínea con la pared. Li et al., clasificaron la DTG de intestino delgado con base en su irrigación sanguínea en dos tipos: (a) paralelas (Tipo I) definido como duplicación más hacia el mesenterio, teniendo irrigación sanguínea separada de intestino nativo; (b) intramesentérico (Tipo II) definido como duplicación entre mesenterio, teniendo vasos de ambos lados del mesenterio. Se pueden presentar como tumores quísticos o sólidos, invaginaciones, perforaciones o sangrado gastrointestinal. El tipo de célula que más comúnmente reviste esta condición es mucosa gástrica, responsable del 50 % de los casos seguido de mucosa intestinal, pancreática o epitelio respiratorio.^{3, 9, 10}

La mucosa gástrica heterotópica puede causar sangrado o perforación por ulceración péptica. Esta condición puede estar asociada a otras anomalías como duplicación colónica completa, divertículo gástrico y quistes neuroentéricos. Se han encontrado varias anomalías congénitas asociadas a la DTG, en particular malformaciones vertebrales y genitourinarias.^{9, 10, 11}

Los métodos diagnósticos comunes incluyen ultrasonografía (USG), tomografía computarizada (TC), imagen de resonancia magnética (IRM), gammagrafía y serie gastrointestinal alta. Se han reportado varios casos prenatales por USG e IRM. El diagnóstico prenatal de la DTG es difícil y la sonografía identifica 20-30 % de las lesiones. La USG de los quistes de duplicación demuestran una capa de mucosa interna ecogénica y una capa muscular externa hipocogénica signo de “doble pared” que es altamente indicativo de duplicaciones entéricas, por lo que la USG se considera la modalidad diagnóstica de primera opción. El estudio contrastado demuestra una masa submucosa con efecto de masa extendiéndose hacia el lumen del tracto

gastrointestinal. La TC e IRM no se utilizan de rutina, pero son de gran ayuda en casos difíciles. La gammagrafía con Tecnecio-99m pueden ser útil en casos con sospecha de la presencia de mucosa gástrica heterotópica.⁸ El diagnóstico diferencial de quistes intraabdominales prenatales incluyen quistes ováricos, duplicación entérica quística, quistes renales, quistes de colédoco, quistes hepáticos, quistes mesentéricos u omentales y asas intestinales dilatadas por atresia intestinal.^{1, 11}

El manejo de elección de la DTG es la exéresis total. Sin embargo, se pueden requerir otros métodos terapéuticos dependiendo de la localización y el tipo de DTG, así como la longitud del segmento afectado. Se han reportado múltiples modalidades incluyendo enucleación, formación de cistogastrostomía e incluso extirpación endoscópica. Se sugiere la resección de la duplicación quística junto al intestino involucrado debido a la posibilidad de cambios malignos y el riesgo de obstrucción, ulceración y hemorragia gastrointestinal por mucosa gástrica ectópica. Sin embargo, las duplicaciones grandes son difíciles de reseccionar debido al riesgo de síndrome de intestino corto. Para estos casos, una buena opción quirúrgica es la disección de la mucosa, eliminando la posibilidad de ulceración péptica o carcinogénesis. A pesar de que la malignidad originada de quistes de duplicación particularmente en niños es bastante rara (3 % sarcoma, linfangiosarcoma).^{10, 12}

Conclusión

Las duplicaciones del tracto gastrointestinal son poco comunes en la población pediátrica, siendo la presentación clínica bastante diversa y, a menudo, imita otras afecciones intraabdominales, lo que plantea un gran desafío para los cirujanos pediátricos para llegar al diagnóstico clínico antes de la operación. Por lo tanto, se debe tener en cuenta un alto índice de sospecha cuando se trata de

pacientes que presentan características de obstrucción intestinal. Además, con los avances en el diagnóstico prenatal, muchas de estas anomalías pueden ser alertadas para que el niño nazca en centros que cuenten con la infraestructura y los profesionales necesarios para su diagnóstico y tratamiento oportuno.

En general, la cirugía abierta es segura, con buena tolerancia, siendo la resección el método de tratamiento para las duplicaciones, la extracción de la mucosa es bastante útil en los casos con cirugía restringida. La intervención quirúrgica frecuentemente se realiza a la edad del diagnóstico.

Bibliografía

1. Okur MH, Arslan MS, Arslan S, Aydogdu B, Türkçü G, Goya C, et al. Gastrointestinal tract duplications in children. *European Review for Medical and Pharmacological Sciences*. Diyarbakir, Turkey. 2014;18: 1507-12.
2. Letelier M A, Barría M, Beltrán S A, Moreno Ch C. Duplicación intestinal: Diagnóstico y tratamiento de una condición inusual. *Rev ChilCir [Internet]*. 2009 Abr [citado 2018 Oct 22];61(2): 171-5. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.4067/S0718-40262009000200011>.
3. Sharma S, Yadav A K, Mandal AK., Zaheer S, Yadav DK, Samie A. Enteric duplication cysts in children: a clinicopathological dilemma. *Journal of clinical and diagnostic research*. 2015 Aug;9(8).
4. Motta Ramírez G A. Duplicación gástrica. *Acta médica Grupo Ángeles*. julio-septiembre 2014;12(3).
5. Moran Penco, JM, Vázquez J, Forsheden Ahs E, Sanjuan Rodriguez S, Pairola A, García Martínez V. Duplicidad Esofagogástrica completa e invertida. *Cir pediátr*. 2017; 30: 169-71

6. Balakrishnan K, Fonacier F, Sood S, Bamji N, Bostwick H, Stringel G. Foregut Duplication Cysts in Children. *Journal of the Society of Laparoendoscopic Surgeons*. April-June 2017;(21).
7. Zhang L, Chen Q, Gao Z, Xiong Q, Shu Q. Diagnosis and treatment of gastric duplication in children: a case report. *Experimental and Therapeutic medicine* May 15 2017; (14): 3062-6.
8. Cannizzaro C, Martínez Ferro M, Chattas G. Fetoneonatología quirúrgica. Volumen 1, Aspectos clínicos. (1ª ed). En Rubio y Bossi; *Patología del cordón umbilical y del conducto onfalomesentérico*. Ciudad Autónoma de Buenos Aire: ediciones Journal; 2018. p. 693-694.
9. Rattan KN, Bansal S, Dhamija A. Gastrointestinal duplication presenting as neonatal intestinal obstruction: An experience of 15 years at tertiary care centre. *J Neonat Surg*. 2017; 6: 5.
10. Neazy A, Almatrfi A, Alharbi W, Abokrecha A. Two different presentations of intestinal duplication cyst in pediatric age group. *Saudi Surg J* 2018; 6:100-3.
11. Basany L, Aepala R, Bellary MMR, Chitneni M. Intestinal obstruction due to ileal duplication cyst and malrotation in a preterm neonate. *J Neonat Surg*. 2015; 4: 48.
12. Matthew P, Doepker, Syed A. Ahmad. Gastric duplication cyst: a rare entity. *Journal of Surgical Case Reports*, 2016;5: 1–3