

REPORTE DE CASO

Duplicación digestiva múltiple: estómago y duodeno con tejido pancreático ectópico

Multiple gastrointestinal duplication: stomach and duodenum with ectopic pancreatic tissue / Duplicação digestiva múltipla: estômago e duodeno com tecido pancreático ectópico

Natalia Herrera Toro¹, Juliana Lucía Molina Valencia²

Fecha de recibido:
15 de febrero de 2018

Fecha de aprobación:
14 de junio de 2018

RESUMEN

Las duplicaciones del tracto gastrointestinal son anomalías congénitas que comprenden lesiones quísticas o tubulares halladas en cualquier segmento del tracto digestivo. Están en el borde mesentérico del segmento comprometido con el que comparten irrigación, son de rara ocurrencia y de etiología embriológica múltiple. Requieren de tres factores para el diagnóstico: estar rodeadas de músculo liso, tener una pared común e involucrar mucosa del sitio de origen. Las duplicaciones múltiples se presentan en el 15% de las duplicaciones y se asocian con malformaciones esqueléticas, del tracto digestivo y genitourinario. Se presenta el caso de una paciente pediátrica con una rara duplicación múltiple del tracto digestivo que incluye duplicación gástrica y duodenal con tejido pancreático ectópico, que representó un reto diagnóstico y terapéutico.

Palabras clave: abdomen agudo; anomalías congénitas; vómitos; intestino delgado.

ABSTRACT

Intestinal duplications are congenital anomalies representing cystic or tubular lesions that can be found in any segment of the digestive tract. They are in the mesenteric border of the compromised segment with which they share irrigation. They are of rare occurrence and of multiple embryological etiology. The three essential factors for diagnosis include being surrounded by smooth muscle, sharing a common wall, and having mucous from the place of origin. Multiple duplications occur in 15% of duplications and are frequently associated with skeletal, digestive, and genitourinary tract malformations. We present the case of a pediatric patient with a rare multiple duplication of the digestive tract that includes gastric and duodenal duplication with pancreatic ectopic tissue, which represented a challenge for diagnosis and therapeutic management.

Key words: abdomen, acute; congenital abnormalities; vomiting; intestine, small.

RESUMO

As duplicações do trato gastrointestinal são anomalias congénitas que compreendem lesões quísticas ou tubulares encontradas em qualquer segmento do trato digestivo. Estão no borde mesentérico do segmento comprometido com o que compartilham irrigação, são de rara ocorrência e de etiologia embriológica múltipla. Requerem de três fatores para o diagnóstico: estar rodeadas de músculo liso, ter uma parede comum e envolver mucosa do lugar de origem. As duplicações múltiplas se apresentam em 15% das duplicações e se associam com malformações esqueléticas, do trato digestivo e geniturinário. Se apresenta o caso de uma paciente pediátrica com uma rara duplicação múltipla do trato digestivo que inclui duplicação gástrica e duodenal com tecido pancreático ectópico, que representou um reto diagnóstico e terapêutico.

Palavras chave: abdômen agudo; anomalias congénitas; vómitos; intestino delgado.

Forma de citar este artículo: Herrera N, Molina JL. Duplicación digestiva múltiple: estómago y duodeno con tejido pancreático ectópico. Reporte de caso. Med UPB. 2019;38(1):67-70. DOI:10.18566/medupb.v38n1.a08

1. Cirujana Pediátrica, Hospital Pablo Tobón Uribe. Profesora de la sección de cirugía y urología pediátrica de la Universidad de Antioquia. Medellín, Colombia.
2. Médica, Universidad Pontificia Bolivariana. Medellín, Colombia.

Dirección de correspondencia: Natalia Herrera Toro. Correo electrónico: nataherrerat@gmail.com

INTRODUCCIÓN

La duplicación intestinal es una rara anomalía congénita del tracto gastrointestinal que fue descrita por primera vez en 1733 por Calder, y en 1937 fue caracterizada por Ladd con tres elementos fundamentales para su diagnóstico: el quiste de duplicación intestinal que se rodea de músculo liso, la pared común y la mucosa gastrointestinal del sitio de origen¹. Las duplicaciones pueden estar ubicadas en cualquier lugar del tracto, pero son más comunes en el intestino delgado (40% en íleon), más raras en el recto, duodeno, estómago y toracoabdominales. Habitualmente se presentan como duplicaciones únicas, pero pueden ser múltiples hasta en el 15% de los casos².

Son poco frecuentes, con una incidencia de 1/100,000 nacidos vivos. Su presentación clínica depende de las características del quiste de duplicación (tamaño, localización, número). Los casos sintomáticos, en su mayoría, se presentan en la edad pediátrica con manifestaciones clínicas inespecíficas como náuseas, vómito, dolor abdominal recurrente, presencia de masa abdominal o distensión abdominal; también se pueden presentar manifestaciones clínicas secundarias a sus complicaciones, que incluyen, sangrado del quiste, obstrucción, perforación, fistulización y, rara vez, malignidad^{1,2}.

Se presenta aquí el caso de una niña con duplicación gástrica y duodenal con tejido pancreático ectópico. Es interesante por la poca frecuencia de esta patología.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 9 años de edad con episodios de emesis y distensión abdominal a repetición. Antecedentes de enfermedad ácido-péptica y acidosis tubular renal. En el 2014 fue hospitalizada por cuadro de abdomen agudo asociado a emesis y fiebre. Se realizó en ese entonces una tomografía de abdomen que mostró una imagen de absceso entre el lóbulo hepático izquierdo y el duodeno. Se diagnosticó una úlcera duodenal perforada contenida con absceso y se realizó drenaje percutáneo en el que se obtuvo líquido cetrino. Por la sospecha de patología duodenal se hizo endoscopia, la que evidenció duodenitis crónica con ulceración, gastritis crónica no atrófica y negatividad para *Helicobacter pylori*. Posteriormente, se realizó resonancia magnética que reportó: mínimo líquido libre abdominal, cambios inflamatorios en región subhepática derecha y ausencia de colecciones. Ordenaron tránsito intestinal que muestra vaciamiento gástrico lento, engrosamiento de las paredes del antro y de la primera porción del duodeno, compatibles con duodenitis. Se da el alta con terapia inhibidora de bomba de protones.

En el 2015 presentó cuadro similar. Estuvo hospitalizada en otra institución y allí se realizó una laparoscopia exploratoria, sin hallazgos patológicos según la descripción operatoria.

Consulta nuevamente en el 2016 por epigastralgia, sin alteraciones al examen físico. El dolor mejoró durante la observación por lo cual se consideró que se trataba de una exacerbación de la enfermedad ácido-péptica y fue dada de alta. Días después, presenta recurrencia del dolor asociado a distensión abdominal y múltiples episodios de vómito. Consultó al hospital local donde le realizaron ecografía de abdomen que muestra, a nivel del mesogastrio, imagen ovalada, de aspecto quístico, anecogénica, con ecos difusos en su interior, paredes regulares y refuerzo acústico posterior, que mide 45 x 31 x 47 mm. Se hace tomografía de abdomen que evidencia, a nivel de la segunda porción duodenal, una imagen de características líquidas con bordes definidos que miden 46 x 36 mm, asociada a dilatación del intestino delgado, además lesión en el antro gástrico de 17 x 13 mm, con cambios inflamatorios y múltiples adenopatías. Por dichos hallazgos se decide remisión a hospital de alto nivel.

A nuestra institución ingresa remitida por primera vez y con los estudios diagnósticos previos. Se encuentra estable hemodinámicamente, afebril, hidratada, con leve distensión abdominal sin signos de irritación peritoneal. Presenta dolor leve a la palpación en hipocondrio derecho y en epigastrio. Se realiza ecografía de abdomen total institucional y se evalúa tomografía previa por radiología pediátrica quien hace el diagnóstico de duplicación intestinal (Figura 1). Se programa para cirugía, que se inicia con laparoscopia diagnóstica en la que se identifican quistes de duplicación gástrica y duodenal no comunicantes. Durante la resección, se encuentra que dicha lesión está firmemente adherida al páncreas y la anatomía es poco clara, por lo que se pasa a laparotomía



Figura 1. Duplicación intestinal. Cortesía de la doctora Lina Cadavid (radióloga pediátrica).

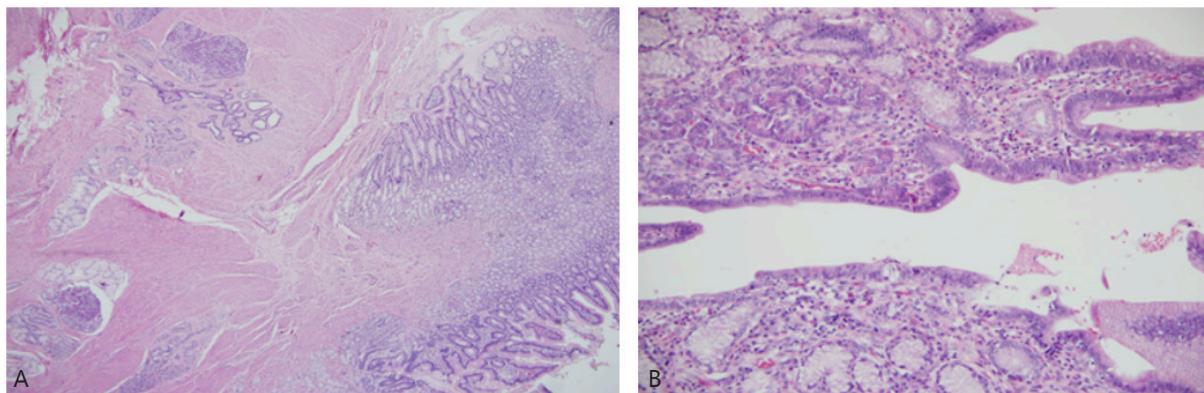


Figura 2. A: se observa la mucosa gástrica, la muscular propia y el tejido pancreático ectópico. B: mucosa pilórica y glándulas. Cortesía del doctor Juan Camilo Pérez (patólogo).

en la que se confirman los hallazgos de lesión compatible con quiste de duplicación gástrica y duodenal; se hace resección completa. El resultado de la biopsia confirma el diagnóstico de duplicación gástrica y duodenal con tejido pancreático ectópico (Figura 2).

La paciente se recupera adecuadamente de su posoperatorio. Se da el alta a los cinco días y se valora a la semana y al mes siguiente por consulta externa, con mejoría de sus síntomas.

DISCUSIÓN

La duplicación intestinal es una patología poco frecuente, se presenta como lesiones quísticas o tubulares en cualquier localización del tracto gastrointestinal. Existen varias teorías para explicar su etiología, pero ninguna es totalmente concluyente. Se ha descrito la teoría del gemelo abortivo, divertículos embriológicos remanentes, recanalización luminal aberrante, accidente vascular intrauterino y síndrome de la notocorda dividida².

La incidencia reportada es de 2/10 000 a 1/100 000 nacidos vivos^{1,3}. En Colombia se encontraron dos casos. El primero publicado por Tawil *et al.* (1998), en un hombre de 57 años con dolor en hipocondrio derecho, náuseas y vómito; con episodios previos tratados como enfermedad ácidopéptica; el diagnóstico definitivo fue duplicación gástrica⁴. El segundo, en 2010, fue un caso de duplicación de intestino posterior primitivo en una niña de 13 años con duplicación sagital de la vejiga, dos úteros completos y dos canales vaginales, duplicación de los labios mayores y menores, colon e íleon redundantes⁵.

Según plantean Letelier *et al.*, habitualmente las duplicaciones intestinales se presentan, diagnostican y resuelven en edades tempranas. El 72% de ellas antes de los dos primeros años de vida². Nuestra paciente inició con síntomas desde los seis años, sin embargo, la baja

incidencia de esta enfermedad y las confusiones diagnósticas en las imágenes llevaron a que el diagnóstico definitivo se realizara tres años después.

Los síntomas descritos con mayor frecuencia son el dolor abdominal recurrente, náuseas y vómitos, masa abdominal, distensión y sintomatología asociada a las complicaciones, como hemorragia digestiva, obstrucción intestinal, perforación y compresión de estructuras adyacentes⁶. Síntomas inespecíficos que se pueden presentar en diversas patologías gastrointestinales comunes, como la enfermedad ácido-péptica que representa una de cada 3000 admisiones hospitalarias en niños⁷, y que había sido diagnosticada en nuestra paciente desde el 2014, a pesar de no haber en la historia clínica ningún factor desencadenante. Se han presentado casos similares en los que se ha realizado manejo para otra patología, como lo describen Baeza *et al.* en un niño de 5 años con dolor abdominal crónico y distensión abdominal que fue tratado para colitis inespecífica hasta que presentó abdomen agudo por vólvulo secundario a quiste de duplicación ileal⁸.

Erginel *et al.*, analizaron 40 pacientes en 26 años. El 70% era de sexo masculino, con una edad promedio de 24.17 ± 84.14 meses, 21 de los 40 tenían quistes ileales, cinco tenían duplicación de colon, cuatro de ciego, tres de yeyuno, tres de duodeno, dos gástricos y dos esofágicos. Estas cifras coinciden con la frecuencia de la localización reportada en todo el mundo⁹. No se encontró ningún caso de duplicación múltiple como en nuestra paciente, con duplicación gástrica, duodenal y tejido pancreático ectópico.

Las duplicaciones múltiples se dan en el 15% de los casos y se asocian a malformaciones esqueléticas, del tracto genitourinario y del tracto gastrointestinal. Existe una mayor frecuencia de anomalías de la columna, médula, malformaciones anorrectales, malrotación

intestinal, atresia duodenal, síndrome de poliesplenía y anomalías genitales; no se ha encontrado asociación con alteraciones genéticas¹⁰.

Actualmente, la amplia disponibilidad de estudios imagenológicos ha permitido el diagnóstico preoperatorio, incluso el diagnóstico prenatal. Las ayudas más usadas son la radiografía de abdomen, la ecografía abdominal, la tomografía y la resonancia magnética. Con la ecografía, el radiólogo puede sospechar la patología cuando encuentra una capa muscular interna ecogénica y una capa muscular externa hipocogénica (signo de la doble pared) hallazgo con alta sensibilidad que hace de la ecografía la primera modalidad de elección¹¹. La radióloga pediátrica de nuestra institución observó en la ecografía abdominal paredes gástricas y antro gástrico engrosados con colección adyacente a la primera porción del duodeno, cambios inflamatorios alrededor y adenopatías, con una lesión que presentaban todas las capas intestinales fijas con detritus en su interior de 40 x 43 x 4 mm, que sugirieron como primera posibilidad el quiste de duplicación intestinal.

El tratamiento de elección es la escisión quirúrgica. Dependiendo de las características la duplicación se reseca por completo y en algunos casos se requiere resección de algún segmento del órgano de origen, anastomosis o derivaciones y reconstrucciones mayores. En las últimas dos décadas la cirugía mínimamente invasiva ha ganado

campo en la cirugía pediátrica abdominal, pero hay pocos reportes en cuanto al manejo de las duplicaciones intestinales. Shehi *et al.* intentaron la escisión laparoscópica de una duplicación gástrica en un neonato, por la dificultad para separar el quiste del estómago la convirtieron en laparotomía como ocurrió con nuestra paciente¹², en quien la duplicación pancreática hacía más difícil el procedimiento laparoscópico por la falla en la definición exacta de la anatomía.

Finalmente, toda lesión debe tener estudio anatomopatológico que define el diagnóstico, del 16% al 39% de los quistes de duplicación hay mucosa gástrica o pancreática ectópica¹³.

Consideraciones éticas

Los autores solicitaron consentimiento al Comité de Investigaciones y Ética en Investigaciones del Hospital Pablo Tobón Uribe para la publicación del presente caso.

DECLARACIÓN DE CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

REFERENCIAS

1. Arslan MS, Basuguy E, Zeytun H, Arslan S, Aydogdu B, Okur M, et al. A rare cause of intestinal obstruction in infants: Ileum duplication cyst and literature review. *Case Reports in Gastrointestinal Medicine* 2015;ID362478.
2. Letelier A, Barría C, Beltrán MA, Moreno C. Duplicación intestinal: diagnóstico y tratamiento de una condición inusual. *Rev Chil Cir* 2009; 61(2):171-175.
3. Soares-Oliveira M, Castañón M, Carvalho JL, Ribo JM, Bello P, Estevo-Costa J, et al. Duplicaciones intestinales: análisis de 18 casos. *An Esp Pediatr* 2002; 56(5):430-433.
4. Tawil M, Vera A, Rosero G, Arias F. Duplicación gástrica. *Rev Colomb Cir* 1998; 13(2):86-88.
5. García V, Tamayo M, Montoya C, Acosta F, Cano J, Mejía F. Duplicación del intestino posterior primitivo. Reporte de caso. *Rev Colom Radiol* 2010; 21(4):3062-3066.
6. Plummer JM, McFarlane ME, Torrence DE, Duncan N, Shah S, Roberts P. Intestinal duplication presenting with recurrent abdominal pain. *Can J Surg* 2009; 52(4):103-104.
7. Sullivan P. Peptic ulcer disease in children. *Paediatrics and Child Health* 2010; 20(10):462-464.
8. Baeza C, Romero EA, Toledo OA, Ibarra CR. Duplicación y vólvulo ileal. *Rev Mex Pediatr* 2013; 80(2):69-71.
9. Erginel B, Soysal F, Ozbey H, Keskin E, Celik A, Karadag A, et al. Enteric duplication cysts in children: A single-institution series with forty patients in twenty-six years. *World J Surg* 2017; 41(2):620-624.
10. Hoyos F. Duplicaciones del tubo digestivo. En Arango ME, Herrera N, Uribe FL. *Cirugía pediátrica. Segunda edición*. Medellín: Editorial Universidad de Antioquia; 2017. p 674-679.
11. 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(1):5.
12. Khan RA, Wahab S, Ghani I. Neonatal intestinal obstruction: When to suspect duplication cyst of bowel as the cause. *Journal of Neonatal Surgery* 2016; 5(4): 52.
13. Hamza AR, Bicaj BX, Kurshumliu FI, Zejnnullahu VA, Sada FE, Krasniqi AS. Mesenteric Meckel's diverticulum or intestinal duplication cyst: A case report with review of literature. *International Journal of Surgery Case Reports* 2016; 26:50-52.