

Atresia duodenal asociada a invaginación intestinal secundaria a divertículo de meckel en un lactante de tres meses

Rubén Martín Álvarez-Solís,⁽¹⁾ Fredy Chablé-Montero,⁽²⁾ Marcela Vargas-Vallejo,⁽¹⁾ David Bulnes Mendizábal,⁽³⁾ Armando Quero-Hernández,⁽⁴⁾ José Cabrera-Aguirre⁽⁵⁾

rubenalsol@hotmail.com

RESUMEN

La asociación entre atresia duodenal e invaginación intestinal no se ha reportado en la literatura. Presentamos las características clínicas y quirúrgicas de un paciente masculino de tres meses de edad que presenta atresia duodenal asociada a invaginación intestinal secundaria a un divertículo de Meckel perforado e invertido.

Dentro de las causas de vómitos en lactantes se incluyen las atresias intestinales. Aunque es raro se han reportado casos en otras edades pediátricas. La invaginación intestinal se presenta generalmente a los 9 meses de edad y los cuadros típicos de patología del Divertículo de Meckel a los 2 años de edad. Aun cuando se reportan casos a diferentes edades, se describe la rara asociación y presentación clínica de un Abdomen agudo en un lactante de 3 meses, donde se asoció una invaginación intestinal secundario a perforación invaginante de divertículo de Meckel y además una Atresia intestinal tipo membrana duodenal.

Palabras claves: *atresia duodenal, invaginación intestinal, divertículo de Meckel.*

ABSTRACT

The association between duodenal atresia and intestinal invagination has not yet been reported in literature. We show the clinical and surgical characteristics of a three months old male patient showing duodenal atresia associated to secondary intestinal invagination to a meckel's diverticulum punctured and inverted.

Intestinal atresias are included as vomiting cause in new born children. It has been reported in other pediatric ages

though it is strange. The intestinal invagination appears generally at the age of nine months and the typical pathology frame of meckel's diverticulum at two years of age. Although reporting cases at different ages, the strange association and presentation of a sharp abdomen is described in a three month old new born, being associated a secondary intestinal invagination to invaginant puncture of meckel's diverticulum and besides an intestinal atresia type duodenal membrane.

Key words: *duodenal atresia, intestinal invagination, meckel's diverticulum.*

INTRODUCCION

El síndrome de obstrucción intestinal se caracteriza clínicamente por la triada de: vómitos, distensión abdominal y ausencia de evacuaciones. El diagnóstico es clínico y las técnicas de imagen se emplean para confirmar el diagnóstico y para localizar la zona de obstrucción.¹

La obstrucción duodenal congénita es una anomalía relativamente frecuente en el periodo neonatal y puede ser parcial o completa, intrínseca o extrínseca. La obstrucción intrínseca ó por alteraciones en el desarrollo se presenta como atresia o estenosis, dependiendo si es una obstrucción parcial o total.

La atresia intestinal se refiere a la obstrucción completa de la luz del intestino, y la estenosis al bloqueo parcial de la luz. La atresia intestinal es frecuente en el duodeno, el yeyuno y el ileon, pero rara en el colon; representa aproximadamente el 33% de los casos de obstrucción intestinal neonatal y afecta por igual a ambos sexos.^{1,2}

La atresia duodenal se debe a la falta de recanalización de la

⁽¹⁾División de Cirugía Pediátrica. Hospital del Niño "Dr. Rodolfo Nieto Padrón" y Adscrito al servicio de Pediatría del Hospital General de Zona del IMSS No. 46, Villahermosa, Tabasco.

⁽²⁾Estudiante de Pregrado. Universidad Juárez Autónoma de Tabasco.

⁽³⁾Jefe de Servicio de Patología. Hospital del Niño "Dr. Rodolfo Nieto Padrón"

⁽⁴⁾Hemato-Oncólogo, Hospital Pediátrico. Oaxaca, Oaxaca.

⁽⁵⁾Servicio de Radiodiagnóstico del Hospital del Niño "Dr. Rodolfo Nieto Padrón"

luz intestinal que se presenta en el feto in útero. La incidencia de la atresia duodenal es de 1 por cada 6000 nacidos vivos y representa aproximadamente el 25-40% de todas las atresias intestinales. Un 20-40% de los afectados con atresia duodenal padece síndrome de Down.^{2,3,4} Para confirmar el diagnóstico se usa el ultrasonido prenatal y las radiografías simples de abdomen.⁵ La presencia de doble burbuja en radiografía simple de abdomen es diagnóstica de atresia duodenal.¹

Por su parte la invaginación intestinal se produce cuando un segmento de intestino delgado penetra en otro segmento inmediatamente distal a él.² Representa la causa más frecuente de obstrucción intestinal entre los 3 meses y los 6 años de edad, con un pico de presentación a los 9 meses. Es rara en los recién nacidos. La incidencia varía de 1-4 por cada 1000 nacidos vivos.⁶ Afecta cuatro veces más al sexo masculino que al femenino. La causa de la mayoría de las invaginaciones es idiopática (90%), pero también puede asociarse a condiciones médicas específicas (Púrpura de Henoch-Schönlein, fibrosis quística, discrasias hematológicas, etc.).⁶ Se clasifican en ileocólicas, ileoileocólicas, cecocólicas e ileoileales, de estas la más frecuente es la ileocólica. Su diagnóstico se basa en el cuadro clínico característico: Masa abdominal, dolor tipo “cólico” y evacuaciones en “jalea de grosella”. Se emplean enemas hidrostáticos para su diagnóstico y tratamiento.⁷

El divertículo de Meckel es la forma más común de malformación congénita del intestino delgado. Se presenta en el 2% de la población y ocurre como resultado de la obliteración incompleta del conducto onfalomesentérico o vitelino, que se puede presentar a cualquier edad, reportándose con mayor frecuencia a los 2 años.⁸ El fallo de la involución de este conducto da origen a varias estructuras residuales. Este divertículo solitario se encuentra en el borde antimesentérico del intestino, generalmente en los últimos 60 cm. del ileon anteriores a la válvula ileocecal. Es un divertículo verdadero, ya que posee las tres capas de la pared intestinal normal. En la mitad de los casos se encuentran restos heterotópicos de mucosa gástrica o de tejido pancreático.⁹

La presentación clínica puede ser por sangrado o por obstrucción intestinal siendo por sangrado la presentación clínica que ocurre con mayor frecuencia en pediatría.⁸ Se han descrito muchos casos en los cuales se asocian la invaginación intestinal y el divertículo de Meckel, tanto en pacientes pediátricos como en adultos. Pero hasta el momento no se ha reportado un solo caso de asociación entre invaginación intestinal, divertículo de Meckel y atresia duodenal. Para llegar a esta afirmación se revisó la base de datos de Pubmed, Medline y el Index Medicus, donde se encontraron reportes de series de atresia duodenal con otros tipos de malformaciones asociadas, dentro de los que destacan el Síndrome de Down y la Asociación VACTERL

pero no la que presentó nuestro paciente.¹⁰

El objetivo de este trabajo es presentar un caso inusual de atresia duodenal asociada a invaginación intestinal ileocólica secundaria a divertículo de Meckel invaginado y perforado en un paciente de tres meses, así como también hacer un análisis de literatura.

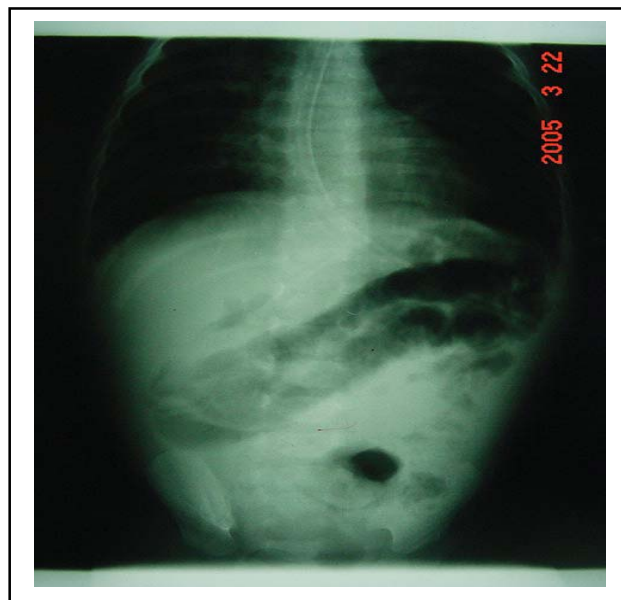
PRESENTACION DEL CASO

Se trata de un paciente masculino, lactante, de 3 meses de edad, producto de la primera gestación, el cual inicia su padecimiento desde el nacimiento con vómitos de aspecto gastrobiliar y distensión abdominal.

A la exploración física se presenta con un peso bajo para su edad 4,300 grs. Cardiopulmonar sin alteraciones. Abdomen: blando depresible con distensión abdominal leve y aumento de volumen en hipocondrio derecho, peristaltismo presente, no puntos dolorosos, ni datos de abdomen agudo.

La radiografía simple de abdomen demuestra mala distribución de aire, y presencia de asa fija diagonal en la porción media del abdomen y No presenta la típica imagen en doble burbuja, que es característica de atresia duodenal. (Fig. 1) Se solicita Ultrasonido reporta cámara gástrica dilatada no valorable el piloro.

FIGURA 1. Radiografía simple de abdomen.



Con el diagnóstico de obstrucción intestinal probablemente secundaria a atresia o estenosis duodenal, mediante incisión transversa supraumbilical derecha se realiza laparotomía exploradora, en la cual se descubre un “salchichón”

secundario a invaginación intestinal ileocecólica (Fig. 2) secundaria a divertículo de Meckel invertido y perforado (Fig. 3). Se realiza desinvaginación por taxis y resección del divertículo de Meckel perforado y entero-enteroanastomosis (Fig. 4). En el transoperatorio se corrobora permeabilidad duodenal pasando una sonda orogastrica hasta duodeno 2ª porción. Se recomendó ayuno por 5 días y doble manejo antibiótico (Metronidazol y amikacina).

FIGURA 2. Invaginación Ileocecólica.

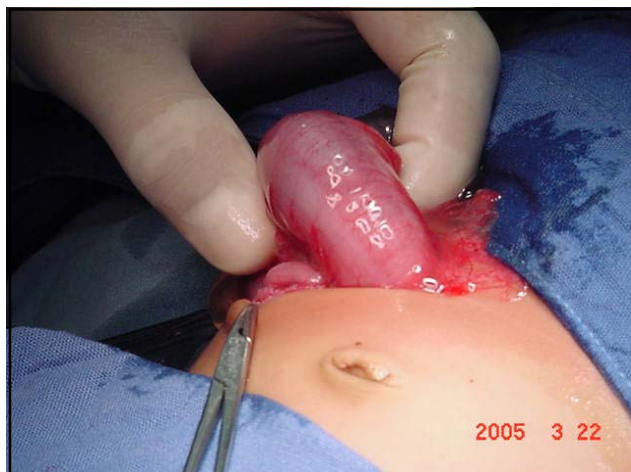


FIGURA 3. Divertículo de Meckel Invertido.



Durante los días siguientes se presenta con gasto por sonda orogástrica de importante cantidad (250-500ml por día) y de aspecto gastrobiliar. A los 7 días postoperatorios se decide realizar SEGD, la cual demuestra imagen con medio de contraste con doble burbuja compatible con atresia intestinal, con paso de medio de contraste en forma escasa a yeyuno. (Figura 5) Razón por la cual se decide realizar un segundo tiempo quirúrgico. Durante la revisión, se localiza una zona

de transición con atresia duodenal tipo I o membrana duodenal fenestrada a nivel de la tercera porción del duodeno, por lo que se realiza resección de la membrana y duodeno-duodeno-anastomosis en diamante de Ken-Kimura, que es la técnica quirúrgica recomendada^{11,12} (Figura 6) Después de la segunda intervención, continuo con su manejo médico presentando a los cinco días, tolerancia a la vía oral, con buena evolución, siendo dado de alta al octavo día de la segunda intervención por mejoría.

DISCUSION

La mayor parte de las atresias duodenales son diagnosticadas en la infancia (hasta en 54% en las primeras dos semanas de vida), y del 14 al 28% se manifiesta en edad adulta.²

El diagnóstico diferencial del vómito del lactante debe incluir mala técnica alimentaria, hipertrofia congénita de piloro y enfermedad por reflujo gastroesofágico que son las patologías más comunes. Sin embargo diversas formas de obstrucción intestinal alta como atresia pilórica, atresia duodenal u obstrucción duodenal pueden tener como principal manifestación el vómito. La dificultad diagnóstica de la obstrucción intestinal secundaria a atresia duodenal se incrementa cuando no existe la sospecha clínica del padecimiento. Se ha relacionado la edad de inicio de los síntomas y el grado de la obstrucción; mientras más estrecha sea la luz intestinal (- 2 mm) más temprano presentará la sintomatología, y mientras más amplia sea la luz (Mas de 6 mm), más tardía será la sintomatología.³

En la primera intervención quirúrgica se encontró como hallazgo “sorpresa”, es decir, no esperado la presencia de invaginación intestinal ileocecólica asociada a un divertículo de Meckel perforado e invertido. Diversas series han demostrado que la incidencia de invaginación intestinal es de 30-35 por cada 100,000 para niños menores de 24 meses y de 45-55 por cada 100,000 niños menores de 12 meses. Esto hace notar que la tasa de prevalencia por edad, el grupo de mayor riesgo para presentar una invaginación intestinal son todos aquellos pacientes menores de 12 meses de edad. De manera similar estas tasas se observan de igual los Estados Unidos; el reporte más alto de invaginación se registra en Venezuela y el más bajo en Hong Kong.⁹

El 90% aproximadamente de las invaginaciones intestinales son idiopáticas, y el resto se asocia a una entidad médica específica.¹³ En nuestro estudio, por ejemplo, la causa que originó la invaginación fue la presencia de un divertículo de Meckel que durante el transoperatorio se apreció invertido y perforado en su punta. Dentro de otras causas de invaginación intestinal se han reportado infecciones virales e inflamación de placas de Peyer, principalmente secundaria

a entero virus, y actualmente se ha reportado su presentación con el uso de la vacuna contra Rotavirus.^{14,15,16}

FIGURA 4. Resección del divertículo de Meckel Perforado en su punta.

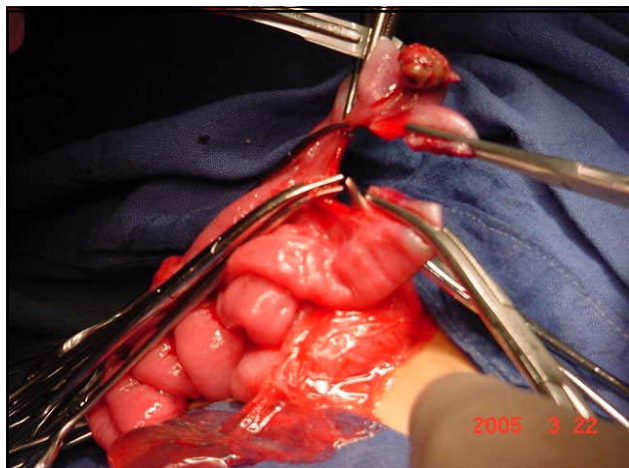


FIGURA 5. S.E.G.D. Imagen en doble burbuja.



El paciente no presenta cuadro clínico típico y característico de invaginación por lo que no se sospecho la presencia de invaginación intestinal en forma preoperatorio, ni clínica ni con apoyo de imagen, ni dentro de los diagnósticos diferenciales preoperatorios. En base a lo anterior podría ser de utilidad tener en cuenta los parámetros establecidos recientemente por Bines y cols.¹⁷ Ellos definieron entidades clínicas propias de la invaginación intestinal. La primera entidad es la *invaginación definitiva*, esto es cuando existen criterios que apoyan rotundamente el diagnóstico, entre los que se incluyen criterios quirúrgicos (de manera

intraoperatoria) como en nuestro estudio, criterios radiológicos y criterios de autopsia. La segunda entidad corresponde a una *probable invaginación*, y este se aplica a aquellos pacientes que presentan dos criterios mayores o un criterio mayor más tres criterios menores. Cabe mencionar que estos autores establecieron como criterios mayores: a) Evidencia de obstrucción intestinal, b) Características de invaginación intestinal, y c) Evidencia de compromiso vascular o congestión venosa; y se consideran como criterios menores: menor de un año, sexo masculino, dolor abdominal, vomito, letargia, shock hipovolémico, entre otros. La tercera entidad que ellos definen corresponde a una *posible invaginación*, y se considera esta entidad cuando se reúnen cuatro o más criterios menores. Por lo tanto los parámetros que sugiere Bines y cols¹⁷ deben ser tomados en cuenta para ayudarnos hacer diagnóstico en forma oportuna en los pacientes.

El cuadro clínico, la edad del paciente y los estudios de gabinete apoyaban el diagnóstico de obstrucción intestinal secundaria a una patología de origen congénito. Aunque, el ultrasonido preoperatorio, no aportó datos para el diagnóstico de invaginación intestinal. Al respecto se ha reportado que para el diagnóstico de invaginación intestinal se pueden usar varios métodos, entre los que se incluyen placas simples de abdomen, enemas de bario, y en algunos estudios sugieren el uso de ultrasonido.¹⁸ El ultrasonido guiado con reducción neumática ha demostrado ser un método muy eficaz en el diagnóstico y tratamiento de la invaginación intestinal.¹⁹ Otras series demuestran que el uso del ultrasonido tiene una sensibilidad diagnóstica de 81%, por lo que puede ser usado como método de diagnóstico de primera instancia.²⁰ Por lo que en ocasiones también juega un papel importante la experiencia del ultrasonografista.

El divertículo de Meckel es una de las entidades médicas que se ha asociado a invaginación intestinal.²¹ En la mayoría de los casos en niños mayores de 2 años. Aunque existe el reporte de un caso aislado de un paciente de 16 años con invaginación intestinal secundaria a un divertículo de Meckel perforado e invertido, similar a la condición que nosotros presentamos, pero a diferencia de nuestro caso es un paciente adolescente y no un lactante.²² De manera general un estudio presenta una serie de 1476 pacientes con divertículo de Meckel, entre los datos importantes que obtuvieron en pacientes pediátricos fue que la edad de presentación más frecuente fue en menores de 1 año. La relación masculino-femenino se reporta de 3:1. Las manifestaciones clínicas más comunes en estos pacientes fueron obstrucción secundaria a invaginación, sangrado transrectal y diverticulitis.²³ Estos datos son de relevancia porque apoyan que la presencia del divertículo si esta ampliamente relacionado a la invaginación, como ocurrió en el presente estudio, además de que si se tiene en cuenta la

edad y el sexo se podrá sospechar de manera más frecuente²³. Su evolución posquirúrgica insidiosa y ante la presencia de drenaje biliar por sonda orogástrica y vomito biliar se reconsidero tomar de nuevo una SEG D ya que cuando un lactante presenta vomito biliar se debe sospechar necesariamente una condición quirúrgica de urgencia^{1,2,5}. La obstrucción intestinal que se presenta con vómito biliar en lactantes puede ser causada por atresia duodenal, malrotación y vólvulos, atresia yeyuno ileal, ileo meconial o enterocolitis necrosante. Sin embargo al revisar el caso con los estudios clínicos, se decidió reintervenir ante la sospecha de una atresia duodenal tipo membrana duodenal, confirmándose la misma en el transoperatorio localizada en la tercera porción del duodeno.

La atresia duodenal es una obstrucción de origen congénito que frecuentemente se encuentra en la segunda porción de duodeno en el 80% de los casos. Su etiología se debe a falta de recanalización del segmento intestinal durante los primeros estadios de la gestación y generalmente asociada a Polihidramnios prenatal que no fue confirmado, ni observado, en el paciente en estudio.^{1,2}

El síndrome de Down se encuentra asociada hasta en un 30% de los casos en la atresia duodenal, cosa que no ocurrió en nuestro paciente.^{2,3}

La duodeno duodeno anastomosis en diamante descrita por Ken Kimura^{11,12} es el procedimiento de elección para este tipo de lesión, donde la membrana duodenal (atresia duodenal tipo I) es tratada por simple escisión. Aunque algunos autores describen otras técnicas como cirugía laparoscópica con buenos resultados.^{24,25}

Este caso clínico que presentamos deja mucha enseñanza, ya que se puede pensar en varias premisas de abordaje medico-quirúrgico que puedan dejarnos mucha experiencia. Dentro de las cuales nos preguntamos: ¿Qué hubiera pasado si en el primer acto quirúrgico hubiéramos resuelto la atresia duodenal y la invaginación y el divertículo de Meckel hubieran pasado desapercibido? Sin duda alguna que la evolución del paciente también se presentaría tórpida.

Por otra parte, el diagnóstico preoperatorio de la primera cirugía fue de una probable atresia duodenal, sin embargo se corroboró permeabilidad de la segunda porción del duodeno, por lo que el diagnóstico transoperatorio se desechó, pensando que la obstrucción intestinal, el cuadro clínico y los estudios de gabinete no apoyaban el diagnóstico de atresia duodenal. Posiblemente el error fue no revisar la tercera porción del duodeno y yeyuno proximal. Lo interesante del caso clínico es la muy rara coincidencia de presentación de invaginación ileocecolíca, divertículo de Meckel y atresia duodenal en un lactante de tres meses.

Como conclusión y corolario es bueno decir que a pesar de que el abordaje medico quirúrgico fue adecuado, la evolución del paciente fue satisfactoria, en ocasiones tenemos que pensar que un paciente puede ser portador de dos o más patologías asociadas y no fijarnos en una patología como causa de toda la sintomatología del paciente.

FIGURA 6. Resección de Membrana en 3a porción duodeno.



REFERENCIAS

1. Nerwich N, Shi E. Neonatal duodenal obstruction: a review of 30 consecutive cases. *Pediatr Surg Int* 1994; 9: 47-50
2. Cragan JD, Martín ML, Moore CA, et al. Descriptive epidemiology of small intestinal atresia in Atlanta, Georgia. *Teratology* 1993;48:441.
3. Jiménez UP, Estrada MA, Gallego GJ. Estenosis duodenal congénita de presentación tardía: Informe de tres casos. *Rev Mex Cir Pediatr* 2003 Julio-Septiembre; 10(3):152-157.
4. Dalla V Vecchia LK, Grosfeld JL, West KW, et al. Intestinal atresia and stenosis: a 25-year experience with 277 cases. *Arch Surg* 1998 May; 133(5): 490-6.
5. Grosfeld JL, Rescorla FJ. Duodenal atresia and stenosis: reassessment of treatment and outcome based on antenatal diagnosis, pathologic variance, and long-term follow-up. *World J Surg* 1993; 17: 301-9.
6. Di Fiore JW. Intussusception. *Semin Pediatr Surg* 1999 Nov; 8(4): 214-20.
7. O’Ryan M, Lucero Y, Peña A, et al. Two year review of intestinal intussusception in six large public hospitals of Santiago, Chile. *Pediatr Infect Dis J*, 22,(8), 2003.
8. Vane DW, West KW, Grosfeld JL : Vitelline duct anomalies : Experience with 217 childhood cases. *Arch J Surg* 1982;69: 493-496.
9. Turgeon DK, Barnett JL: Meckel’s diverticulum. *Am J Gastroenterol* 1990 Jul; 85(7): 777-81.

10. Tashjian DB, Moriarty KP. Duodenal atresia with an anomalous common bile duct masquerading as a midgut volvulus. *J Pediatr Surg* 2001 Jun; 36(6): 956-7.
11. Kimura K, Tsugawa C, Ogawa K. Diamond-shaped anastomosis for congenital duodenal obstruction. *Arch Surg* 1977; 112:1262.
12. Kimura K, Mukohara N, Nashijima e., et al. Diamond-shape anastomosis of duodenal atresia: na experience with 44 patients over 15 years. *J Pediatr Surg* 1990; 25:977.
13. Tárnok A, Méhes K. Gastrointestinal malformations, associated congenital abnormalities, and intrauterine growth. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2002 April; 34(4) 2002.
14. Bines JE. Rotavirus vaccines and intussusception risk. *Curr Opin Gastroenterol*, 2005, 21:20-25.
15. Kombo LA, Gerber MA, Pickering LK, et al. LA y cols. Intussusception, infection, and immunization: Summary of a Workshop on rotavirus. *Pediatrics* 2001 August; 108(2).
16. Haber P, Chen RT, Zanardi LR, et al. An análisis of rotavirus vaccine reports to the vaccine adverse event reporting system: More than intussusception Alone?. *Pediatrics* 2004 April; 113(4).
17. Bines JE, Ivanoff B, Justice F, et al. Clinical case definition for the diagnosis of acute intussusception. *J pediatr Gastroenterol Nutr* 2004 November; 39(5).
18. Peh WCG Khong PL, Lam C, et al. Ileoileocolic intussusception in children: Diagnosis and significance. *Brit J Radiol* 1997;70:891-896
19. Yuoon CH, Kim HJ, Goo HW. Intussusception in children: US-guided Pneumatic Reduction_initial experience. *Radiology* 2001; 218:85-88.
20. Duarte VJ, Bobadilla Chávez JJ, Ariza Ampudia FA, y cols. Tratamiento de la invaginación intestinal en lactantes y niños. Análisis de 130 casos. *Acta Pediatr Mex* 1998; 19(2):50-9.
21. Simas MH, Corkery JJ: Meckel's diverticulum: Its association sith congenitalmalformation and the significance of atypical morphology. *Br J Surg* 1980; 67: 216-219.
22. Tatsumi T. Inverted Meckel Diverticulum with intussusception: Demostracion by TC. *J Comput Assist Tomogr* 1996 March-April; 20(2).
23. Park JJ Wolff BG, Tollefson MK, et al. Meckel Diverticulum: The Mayo Clinic experience with 1476 patients (1950-2002). *Ann Surg* 2005 March; 241(3).
24. Nakajima K. Wasa M, Soh H, et al. Laparoscopically assisted surgery for congenital gastric or duodenal diaphragm in children. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2003;13:1.
25. Andrade Zaroni EC, Averbach M, Alvim Borges JL, et al. Laparoscopic treatment of intestinal intussusception in the Peutz-Jeghers syndrome. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2003; 13:4.

ACUERDOS DE GESTIÓN

Los proyectos con acuerdos de gestión, emanan de la Cruzada Nacional por la Calidad, la que a su vez depende del Plan Nacional de Desarrollo 2001-2006 emitido por el Ejecutivo Federal.

El objetivo de los proyectos con acuerdos de gestión es, mejorar los indicadores de trato digno y atención médica efectiva normados por la Cruzada Nacional por la Calidad de los Servicios de Salud.

El estímulo consiste en otorgar \$100,000.00 o bien, \$70,000.00 a los hospitales y a los centros de salud respectivamente, dinero que pertenece al ramo 12 del presupuesto federal.

Recursos asignados:

2001	2002	2003	2004	2005	Total
\$ 97,510	\$1,152,612	\$ 1,165,000	\$ 960,000	\$ 1,190,000	\$ 4.565.122

Para medir el cumplimiento de los proyectos existe una (cédula de evaluación de acuerdos de gestión) la que verifica el cumplimiento de los objetivos específicos, y permite establecer compromisos y fechas de cumplimiento.

Beneficios:

Para la unidad; contar con artículos (bienes) que de otra forma le resultaría difícil adquirir tales, como lap-tops, cañones, cámaras digitales, climas, diversos materiales de oficina, equipos de diagnóstico y de curación, etc.

Para los usuarios; satisfacción de sus necesidades de salud.

Fuente: Dirección de Calidad y Enseñanza en Salud, Secretaría de Salud del Estado de Tabasco.