



Iatreia

ISSN: 0121-0793

revistaiatreia@udea.edu.co

Universidad de Antioquia

Colombia

Pachajoa, Harry; Urrea, María Fernanda; Torres, Javier  
Gastrosquisis en la unidad de cuidados intensivos neonatales del Hospital Universitario del Valle, Cali,  
Colombia, 2000-2004  
Iatreia, vol. 22, núm. 3, septiembre, 2009, pp. 213-218  
Universidad de Antioquia  
Medellín, Colombia

Disponible en: <http://www.redalyc.org/articulo.oa?id=180519034002>

- Cómo citar el artículo
- Número completo
- Más información del artículo
- Página de la revista en redalyc.org

redalyc.org

Sistema de Información Científica  
Red de Revistas Científicas de América Latina, el Caribe, España y Portugal  
Proyecto académico sin fines de lucro, desarrollado bajo la iniciativa de acceso abierto

# Gastrosquisis en la unidad de cuidados intensivos neonatales del Hospital Universitario del Valle, Cali, Colombia, 2000-2004

Harry Pachajoa<sup>1</sup>, María Fernanda Urrea<sup>2</sup>, Javier Torres<sup>3</sup>

## Resumen

**Introducción:** la gastrosquisis es una malformación congénita de la pared abdominal, cuya prevalencia ha aumentado notablemente en varios países, por lo que conviene estudiarla en diferentes centros pediátricos.

**Objetivos:** definir las características epidemiológicas y clínicas de los recién nacidos con gastrosquisis en la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales del Hospital Universitario del Valle (Cali, Colombia).

**Métodos:** se hizo un estudio de tipo descriptivo-retrospectivo en el que se incluyeron 29 de los 35 recién nacidos con diagnóstico clínico de gastrosquisis, atendidos en la Unidad entre el 1 de enero de 2000 y el 31 de diciembre de 2004.

**Resultados:** el promedio de edad materna fue de 18,8 años, 20 madres (69,0%) eran menores de 24 años y 22 (75,9%), primigestantes. El estudio incluyó a 16 niñas (55,2%) y 13 niños (44,8%). Quince (51,7%) nacieron por cesárea y 14 (48,3%), por vía vaginal. Doce (41,4%) nacieron a término y 17 (58,6%) fueron pretérmino. Diecinueve (65,5%) tuvieron peso bajo al nacer. En 10 casos (34,5%) el diagnóstico fue prenatal. El promedio del diámetro del defecto –registrado en 19 casos– fue 4,28 cm. Hubo malformaciones asociadas en 16 pacientes (55,2%), en 12 de ellos gastrointestinales. Diez (66,6%) de los 15 niños nacidos por cesárea tuvieron otras malformaciones. Sufrieron complicaciones 28 niños (96,6%), principalmente sepsis (23 casos) y murieron 10 (34,5%), ocho de ellos en choque séptico.

**Conclusiones:** en este estudio predominaron la edad materna menor de 20 años y la primigestación. La principal causa de morbilidad fue la sepsis; se encontraron diferencias en la tasa de mortalidad según la procedencia, pues fue mayor en los niños remitidos de municipios diferentes a Cali. La distancia entre el sitio de procedencia y por ende el tiempo requerido para llegar a la UCI pueden estar asociados con la probabilidad de morir, pero el número de casos es pequeño para sacar conclusiones definitivas al respecto. La tasa de mortalidad de niños con gastrosquisis encontrada en este estudio fue similar a la informada en otros hospitales latinoamericanos, pero excedió a la reportada en hospitales de países desarrollados.

<sup>1</sup> Médico, estudiante de Doctorado en Ciencias Biomédicas, Profesor Auxiliar, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia.

<sup>2</sup> Estudiante de Medicina, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia.

<sup>3</sup> Médico neonatólogo, Profesor Auxiliar, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia.  
Direcciones: harrympl@yahoo.com; mafer\_u8@hotmail.com; torres1@uniweb.net.co

Recibido: agosto 28 de 2008

Aceptado: mayo 22 de 2009

## Palabras clave

*Cuidado intensivo neonatal, Gastrosquisis, Malformaciones congénitas, Morbilidad neonatal, Mortalidad neonatal*

## SUMMARY

**Gastroschisis in the Neonatal Intensive Care Unit of the Hospital Universitario del Valle (Cali, Colombia): 2000-2004**

**Introduction:** Gastroschisis is a congenital malformation of the abdominal wall. It is convenient to study it in different pediatric centers because its prevalence rate has markedly increased in several countries.

**Objectives:** To define the epidemiological and clinical characteristics of a group of newborn infants with gastroschisis.

**Methods:** A descriptive-retrospective study was carried out between January 1, 2000, and December 31, 2004. It included 29 of the 35 newborn infants with gastroschisis treated at the Neonatal Intensive Care Unit, Hospital Universitario del Valle, in Cali, Colombia.

**Results:** Average maternal age was 18.8 years. Twenty of the mothers (69.0%) were younger than 20 years, and 22 (75.9%) were primiparae. The study included 16 girls (55.2%) and 13 boys (44.8%). Fifteen infants (51.7%) were born by caesarean section and 14 (48.3%), by natural birth. Twelve (41.4%) were born at term and 17 (58.6%) were preterm babies. Nineteen (65.5%) had low birth weight. In 10 cases (34.5%) the diagnosis of gastroschisis was prenatally established. Average diameter of the defect (registered in 19 cases) was 4.28 cm. There were associated malformations in 16 patients (55.2%), 12 of which were of the gastrointestinal tract. Ten (66.6%) of the 15 infants born by caesarean section had associated malformations. Complications occurred in 28 infants (96.6%), mostly sepsis (23 cases). Ten infants (34.5%) died, 8 of them in septic shock.

**Conclusions:** Maternal age under 20 years and primiparous women predominated in this study. The main morbidity cause was sepsis. Differences in the mortality rate were found according to the place of origin of the patients: it was higher in those referred from towns different from Cali. Distance and, consequently, the time required for reaching the ICU may have been associated with the probability of death; however, the small number

of cases does not allow definitive conclusions in this respect. The death rate found in our study was similar to that reported from other Latin American hospitals for similar patients, but exceeded the one from institutions in developed countries.

## Key words

*Congenital malformations, Gastroschisis, Neonatal intensive care, Neonatal morbidity, Neonatal mortality*

## INTRODUCCIÓN

La gastrosquisis es una malformación congénita de la pared abdominal caracterizada por presentar un defecto lateral a la inserción del cordón umbilical, generalmente derecha, por el que se produce la evisceración de órganos abdominales.<sup>1</sup> Su etiología es multifactorial e incluye diferentes circunstancias maternas, entre ellas la edad menor de 20 años, las deficiencias nutricionales, el consumo de cigarrillo o la exposición al humo del mismo y el uso de aspirina en el primer trimestre.<sup>2,3</sup>

La frecuencia de gastrosquisis ha aumentado en todo el mundo: el promedio mundial de prevalencia es de 1,33 por 10.000 nacimientos, y el latinoamericano fue, según datos del *Estudio Colaborativo Latinoamericano de Malformaciones Congénitas (ECLAMC)* durante el período 1982-2001, de 1,4 por 10.000 nacimientos.<sup>4,5</sup>

En el Hospital Universitario del Valle (HUV), las malformaciones congénitas mayores como la gastrosquisis constituyen la tercera causa de mortalidad en la Unidad de Cuidados Intensivos del Recién Nacido (CIRENA);<sup>6</sup> en este hospital la tasa de prevalencia general de malformaciones congénitas durante el período 2004-2006 fue de 11,06 por 10.000 nacimientos, una de las más altas informadas en la literatura,<sup>7</sup> posiblemente por tratarse de un centro especializado de referencia.

El objetivo de este estudio fue determinar las características epidemiológicas y clínicas relacionados con las tasas de morbilidad y mortalidad de los recién nacidos con diagnóstico de gastrosquisis, hospitalizados en la unidad de cuidados intensivos neonatales del HUV, durante el período 2000-2004.

## MATERIALES Y MÉTODOS

Se llevó a cabo un estudio descriptivo de serie de casos en el que se incluyeron recién nacidos (RN) con

diagnóstico clínico de gastrosquisis atendidos en la unidad de cuidados intensivos neonatales del HUV, entre el 1 de enero de 2000 y el 31 de diciembre de 2004.

El HUV es el mayor centro de referencia de la red pública hospitalaria para la ciudad de Cali y toda la región del suroccidente colombiano; por el nivel de complejidad de sus servicios, la unidad de cuidados intensivos neonatales recibe la mayoría de los RN con enfermedades que necesitan atención de los niveles 3 ó 4, incluidos los que tienen diagnóstico de malformaciones congénitas. La región de influencia del HUV abarca principalmente el departamento del Valle del Cauca, pero además atiende población de los departamentos de Cauca y Nariño.

Se aplicó un protocolo en el que se investigaron en las historias clínicas de los RN atendidos por gastrosquisis variables referentes a las características clínicas y antropométricas, los antecedentes maternos, sepsis, complicaciones (morbilidad), datos de la hospitalización, enfermedades y malformaciones congénitas asociadas y datos sobre la mortalidad. Se excluyeron los recién nacidos cuyas historias clínicas no se encontraron o no incluían al menos el 80% de las variables del protocolo.

## RESULTADOS

Entre el 1 de enero de 2000 y el 31 de diciembre de 2004 ingresaron 8.085 recién nacidos a la unidad de cuidados intensivos neonatales; 35 de ellos (1 de cada 231; 0,43%) tenían diagnóstico de gastrosquisis pero se excluyeron cuatro por no estar disponible la historia clínica y dos más por no incluir esta todas las variables necesarias para el estudio; por tanto, el estudio se hizo sobre 29 niños.

### Características generales

Hubo 13 niños (44,8%) y 16 niñas (55,2%). Doce (41,4%) nacieron a término y 17 (58,6%) fueron pretérmino. Diez (34,5%) provenían de Cali y 19 (65,5%), de otros municipios. Quince nacieron por cesárea (51,7%) y 14 (48,3%), por vía vaginal. Dieciséis (55,2%) nacieron en el HUV; los restantes fueron remitidos de otras entidades de salud.

La mediana y la desviación estándar (DE) de las medidas antropométricas fueron: peso  $2.302 \pm 398$  gramos; 10 de los 29 (34,5%) tenían peso adecuado y en 19 (65,5%) el peso era bajo. Talla  $45 \pm 2,36$  cm; perímetro cefálico  $32 \pm 3,72$  cm.

Se encontró para la edad materna un rango de 14 a 32 años (promedio y DE:  $18,8 \pm 3,97$  años); 20 (69,0%) eran menores de 20 años y 27 (93,1%) tenían menos de 24 años. Veintidós madres (75,9%) eran primigestantes. En 10 casos (34,5%) se hizo el diagnóstico prenatal de gastrosquisis. En los 19 casos en que se reportó el diámetro del defecto, el promedio fue de 4,28 cm. Se les hizo control prenatal a 22 madres (75,9%) y la mediana de los controles prenatales fue de 6.

### Distribución por tiempo

De los 29 recién nacidos con gastrosquisis, 7 ingresaron en 2000, 2 en 2001, 5 en 2002, 7 en 2003 y 8 en 2004.

### Morbilidad

En 16 niños (55,2%) se encontraron malformaciones asociadas a la gastrosquisis, que fueron gastrointestinales en 12 casos (75,0%), genitourinarias en 3 (18,8%) y del sistema nervioso central en uno (6,2%). (Tabla n.º 1).

Hubo complicaciones en 28 niños (96,6%), que en orden de frecuencia fueron: sepsis (23 casos; 82,1%), desequilibrio hidroelectrolítico (15; 53,6%), atelectasia pulmonar (9; 32,1%), hipertensión pulmonar (6; 21,4%), bridas (4; 14,3%), insuficiencia renal aguda (3; 10,7%), neumonía (2; 7,1%); hubo también un caso de cada una de las siguientes: insuficiencia hepática, colestasis, disfunción miocárdica y síndrome compartimental. (Tabla n.º 2).

Se les hizo ecocardiograma a 13 niños; resultó normal en siete (53,8%) y anormal en seis (46,2%), todos ellos con hipertensión pulmonar.

### Mortalidad

En total murieron 10 niños (34,5%) cuyo promedio de supervivencia fue de 16 días. Según su procedencia se halló que murieron 1 de los 10 niños de Cali (10,0%) y 9 de los 19 de otros municipios (47,4%). Según la vía del nacimiento, murieron 7 de los 15 nacidos por cesárea (46,7%) y 3 de los 14 nacidos por vía vaginal (21,4%). Hubo otras malformaciones en 10 (66,6%) de los nacidos por cesárea y en 4 (28,6%) de los nacidos por vía vaginal.

En la tabla n.º 3 se puede ver que la tasa de mortalidad aumenta con la mayor distancia entre el lugar de procedencia y el HUV. Sin embargo, el pequeño número de casos no permite sacar conclusiones definitivas al respecto.

**Tabla n.º 1. Malformaciones asociadas a gastrosquisis en 16 de 29\* niños atendidos en el Hospital Universitario del Valle en 2000-2004\*\***

Sistema	Tipo	Número	%	Total (%)
Gastrointestinal	Malrotación	11	68,8	12 (75,0)
	Atresia del yeyuno	1	6,2	
Genitourinario	Criptorquidia	2	12,6	3 (18,8)
	Riñón poliquístico	1	6,2	
Sistema nervioso central	Disrafismo	1	6,2	1 (6,2)
Total				16 (100,0)

\* Porcentajes calculados sobre 16 niños.

\*\* Un RN con gastrosquisis puede presentar simultáneamente varias malformaciones.

**Tabla n.º 2. Complicaciones en 28 de 29\* niños con gastrosquisis atendidos en el Hospital Universitario del Valle, 2000-2004.**

Morbilidad	Número	(%)*
Sepsis	23	82,1
Desequilibrio hidroelectrolítico	15	53,6
Atelectasia	9	32,1
Hipertensión pulmonar	6	21,4
Bridas	4	14,3
Insuficiencia renal aguda	3	10,7
Neumonía	2	7,1
Insuficiencia hepática	1	3,6
Colestasis	1	3,6
Disfunción miocárdica	1	3,6
Síndrome compartimental	1	3,6

\* Porcentajes calculados sobre 28 niños.

**Tabla n.º 3. Relación entre la distancia (en kilómetros) del lugar de procedencia de 29 niños con gastrosquisis y el Hospital Universitario del Valle y la tasa de mortalidad**

Distancia (en km)	Casos N (%)	Mortalidad N (%)
Menor de 10	10 (34,5)	1 (10,0)
10 a 50	9 (31,0)	2 (22,2)
51 a 100	3 (10,3)	1 (33,3)
101 a 150	5 (17,2)	4 (80,0)
Mayor de 150	2 (6,9)	2 (100,0)
Total	29 (100,0)	10 (100,0)

## DISCUSIÓN

Como se ha evidenciado en diferentes estudios, el riesgo de tener hijos con gastrosquisis es mayor en las madres

jóvenes; en este estudio se encontró un promedio de edad materna de 18,8 años y el 69% de las madres eran menores de 20 años; los recién nacidos de estas madres pueden presentar más frecuentemente prematuridad y bajo peso al nacer.<sup>4,8,9</sup>

A diferencia de otros estudios de niños con gastrosquisis, en este no predominó el sexo masculino.<sup>7,10,11</sup>

En cuanto a la vía del parto, 15 niños (51,7%) nacieron por cesárea y 14 (48,3%) por vía vaginal; la mortalidad fue más alta en los primeros (46,7%) que en los segundos (21,4%); sin embargo, cabe tener en cuenta que la mortalidad en los pacientes nacidos por cesárea puede haber estado influenciada por un efecto *confusor*, debido a que presentaban con mayor frecuencia malformaciones asociadas (66,6%) en comparación con los nacidos por vía vaginal (28,5%). En el caso de los diez pacientes fallecidos este efecto *confusor* pudo influir en las diferencias de mortalidad según la vía del parto, pues los siete niños fallecidos que nacieron por cesárea presentaban al menos una malformación congénita además de la gastrosquisis, situación que no se dio en los tres niños fallecidos que habían nacido por vía vaginal ninguno de los cuales presentaba otras malformaciones. Se ha propuesto que una indicación para la cesárea es el diagnóstico prenatal de gastrosquisis, porque resulta en menor estancia hospitalaria, disminución de la sepsis y menos necesidad de utilizar mallas protésicas en la intervención quirúrgica; sin embargo, existen estudios que no muestran diferencias al respecto entre la cesárea y el parto natural.<sup>12-15</sup> Debido a que este es el estudio de una serie de casos en el que describimos la ocurrencia de una malformación infrecuente en una unidad de cuidados intensivos neonatales y por su diseño mismo no podemos afirmar que la cesárea sea un factor de riesgo para la mortalidad de recién nacidos con gastrosquisis; para ello se necesitarían otros estudios locales encaminados a encontrar o no dicha asociación.

El nacimiento por cesárea está claramente indicado cuando existen indicaciones obstétricas y cuando el hígado fetal es extracorpóreo, debido al riesgo de una hemorragia letal.<sup>16</sup>

Se encontró en nuestro estudio que las complicaciones de los recién nacidos con gastrosquisis, que se presentaron en 96,5% de los casos, fueron semejantes a las informadas en la literatura, con predominio de las infecciones.<sup>2,17</sup>

La tasa de mortalidad de los recién nacidos con gastrosquisis ha sido tan baja como del 4% y tan alta como del 46%; en nuestro estudio se encontró que fue del 34,5%, semejante a la informada en otros estudios latinoamericanos, pero mucho mayor que la hallada en países desarrollados.<sup>2,7,10,18</sup>

La tasa de mortalidad más alta (47,4%) en los pacientes remitidos de fuera de Cali que en los provenientes de esta ciudad (10,0%) sugiere que la distancia del lugar de procedencia y, por ende, el tiempo necesario para llegar a la unidad de cuidados intensivos neonatales del HUV pueden estar asociados con la posibilidad de morir. Cuando el nacimiento ocurre en áreas remotas, generalmente las condiciones no permiten el diagnóstico prenatal y, por tanto, no se puede hacer una programación del parto ni controlar las posibles complicaciones perinatales. El transporte neonatal debe ser adecuado, haciendo énfasis en la estabilización respiratoria, el tratamiento de la hipovolemia y el control de la temperatura; una vez estabilizado el niño, se lo debe remitir rápidamente a una institución de nivel III o IV para que sea atendido por el equipo de pediatría, neonatología y cirugía pediátrica.<sup>19</sup>

Entre los factores relacionados con la mortalidad de estos pacientes están la prematuridad, las malformaciones asociadas, las complicaciones como sepsis y la duración de la estancia hospitalaria. Encontramos malformaciones asociadas en 55,2% de nuestros pacientes y complicaciones en 96,6%, principalmente la sepsis; la totalidad de los niños fallecidos tuvieron complicaciones, principalmente el choque séptico, presente en ocho de los diez.

Aunque en la mayoría de los casos la gastrosquisis es un defecto aislado, se han encontrado malformaciones asociadas en 5,5-20,8% de los casos,<sup>20,21</sup> más comúnmente del sistema gastrointestinal, lo cual se explica por el desarrollo embriológico; nuestro hallazgo de malformaciones asociadas en 16 de los 29 niños (55,2%) fue el más alto en comparación con lo informado en la literatura revisada. En diferentes estudios se ha encontrado asociación con otros defectos por *disrupción* vascular, entre ellos la artrogriposis, la atresia intestinal y la secuencia de Poland.<sup>22</sup> Encontramos asociación con atresia intestinal en un solo paciente.

El tratamiento de la gastrosquisis ha mejorado considerablemente en los últimos años, con lo que ha

aumentado la posibilidad de supervivencia y disminuido la mortalidad; esto, que ha sido evidente en diferentes estudios en países desarrollados, contrasta con lo informado en este trabajo en el que la tasa de mortalidad fue alta (34,5%) y en que hubo diferentes complicaciones; todo ello implica la necesidad de darles especial atención a los aspectos preventivos.

El número de casos estudiado fue muy pequeño por la baja prevalencia de esta malformación, pero es un estímulo para hacer otros trabajos encaminados a buscar factores etiológicos y otros asociados a las complicaciones y a la mortalidad de los recién nacidos con gastrosquisis en países en vías de desarrollo como Colombia donde es escasa la información sobre esta enfermedad.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Martínez-Frías ML, Bermejo E, Rodríguez-Pinilla E. Body stalk defects, body wall defects, amniotic bands with and without body wall defects, and gastroschisis: comparative epidemiology. *Am J Med Genet* 2000; 92: 13-18.
2. Ramos A, Mata D, Limardo L, Smaili S, Palmero M, Trejo E. Onfalocele y gastrosquisis en la Maternidad "Concepción Palacios" 1995 – 1999. *Rev Obstet Ginecol Venez* 2001; 61: 223-228.
3. Martínez-Frías ML, Rodríguez-Pinilla E, Prieto L. Prenatal exposure to salicylates and gastroschisis: A case-control study. *Teratology* 1997; 56: 241-243.
4. Chabra S, Gleason CA. Gastroschisis: Embryology, pathogenesis, epidemiology. *NeoReviews* 2005; 6: 493 - 499.
5. Castilla EE, Orioli I. ECLAMC: The Latin-American Collaborative Study of Congenital Malformations. *Community Genet* 2004; 7: 76-94.
6. Gartner E. Base de datos. Fundación CIRENA 2004. Calle 5, n.º 36-08, Cali, Colombia.
7. Pachajoa H, Saldarriaga W, Isaza C. Gastrosquisis en un hospital de tercer nivel de la ciudad de Cali, Colombia durante el período marzo 2004 a febrero 2006. *Colomb Med* 2008; 39 (s2): 35-40.
8. Emusu D, Salihu HM, Aliyu ZY, Pierre-Louise BJ, Druschel CM, Kirby RS. Gastroschisis, low maternal age, and fetal morbidity outcomes. Birth defects research (Part A): *Clin Molec Teratol* 2005; 73:649-654.
9. Fajardo F, Olivas MR. Gastrosquisis y onfalocele, caracterización clínica. *Bol Clin Hosp Infant Edo Son (México)* 2001; 18: 44-50.

10. Suita S, Okamatsu T, Yamamoto T, Handa N, Nirasawa Y, Watanabe Y, et al. Changing profile of abdominal wall defects in Japan: Results of a national survey. *J Pediatr Surg* 2000; 35: 66-72.
11. Baerg J, Kaban G, Tonita J, Pahwa P, Reid D. Gastroschisis: A sixteen-year review. *J Pediatr Surg* 2003; 38: 771-774.
12. Dunn J, Fonkalsrud E, Atkinson J. The influence of gestational age and mode of delivery on infants with gastroschisis. *J Pediatr Surg* 1999; 34: 1393-1395.
13. Quirk J jr, Fortney J, Breckenridge H, West J, Asad S, Wagner Ch. Outcomes of newborns with gastroschisis: The effects of mode of delivery, site of delivery and interval from birth to surgery. *Am J Obstet Gynecol* 1996; 174: 1134-1140.
14. Rinehart BK, Terrone DA, Isler CM, Larmon JE, Perry KG Jr, Roberts WE. Modern obstetric management and outcome of infants with gastroschisis. *Obstet Gynecol* 1999; 94: 112-116.
15. Hunter A, Soothill P. Gastroschisis-an overview. *Prenat Diagn* 2002; 22: 869-873.
16. Chabra S. Management of gastroschisis: Prenatal, Perinatal and neonatal. *NeoReviews* 2006; 7: 419-427.
17. García H, Gutiérrez MF, Chávez R, Villegas R, Xequé J. Morbilidad y mortalidad en recién nacidos con defectos de pared abdominal anterior (onfalocele y gastrosquisis). *Gac Méd Méx* 2002; 138: 519-526.
18. Alfonso CA, Dávalos FE, Guerra A, Rodríguez I. Incidencia y factores asociados a mortalidad en recién nacidos con gastrosquisis en el Hospital Universitario Dr. José E. González. *Medicina Universitaria (México)* 2005; 7: 71-75.
19. Houska C, Bauer K, Berrios M. Gastroschisis: Incidence, complications, and clinical management in the neonatal intensive care unit. *J Perinat Neonat Nurs* 2007; 21: 63-68.
20. Calzolari E, Bianchi F, Dolk H, Milan M. Omphalocele and gastroschisis in Europe: a survey of 3 million births 1980-1990. EUROCAT Working Group. *Am J Med Genet* 1995; 58: 187-194.
21. Rankin J, Dillon E, Wright C, on behalf of the Northern Congenital Abnormality Survey Steering Group. Congenital anterior abdominal wall defects in the North of England, 1986-1996: occurrence and outcome. *Prenat Diagn* 1999; 19: 662-668.
22. Robertson WL, Glinski LP, Kirkpatrick SJ, Pauli RM. Further evidence that arthrogryposis multiplex congenita in the human sometimes is caused by an intrauterine vascular accident. *Teratology* 1992; 45: 345-351.

