



Revista Chilena de Cirugía

ISSN: 0379-3893

editor@cirujanosdechile.cl

Sociedad de Cirujanos de Chile
Chile

ZÚÑIGA R., SERGIO; SKORIN B., ILONA; GEJMAN E., ROGER
Duplicación esofágica. Caso clínico
Revista Chilena de Cirugía, vol. 62, núm. 4, agosto-, 2010, pp. 395-398
Sociedad de Cirujanos de Chile
Santiago, Chile

Disponible en: <http://www.redalyc.org/articulo.oa?id=345531943013>

- 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

Duplicación esofágica. Caso clínico*

Dr. SERGIO ZÚÑIGA R.¹, Int. ILONA SKORIN B.², Dr. ROGER GEJMAN E.³

¹ Sección Cirugía Pediátrica. División de Cirugía.

² Interna Facultad de Medicina.

³ Departamento de Anatomía Patológica.

Hospital Clínico Pontificia Universidad Católica de Chile, Santiago, Chile.

Abstract

Esophageal duplication: a case report

We report an 11-month infant case, who consults electively to perform a laparoscopic Nissen fundoplication, given her background of gastro-esophageal reflux and hiatal hernia. Intraoperatively, a malformation of the distal third of the esophagus was found. The preoperative images showed no evidence of the lesion. The lesion was resected and sent to anatomopathologic analysis, confirming the diagnosis.

Key words: Esophageal cyst, esophagus malformation.

Resumen

Se presenta el caso de una lactante de 11 meses con antecedentes de reflujo gastroesofágico y hernia hiatal que ingresa electivamente a la Sección de Cirugía Pediátrica, con el objetivo de realizar una fundoplicatura de Nissen laparoscópica. En el intraoperatorio se detecta una malformación en el tercio distal del esófago. En las imágenes realizadas previamente no se observó una alteración compatible. La lesión fue reseada y luego analizada en anatomía patológica, confirmándose el diagnóstico de una duplicación esofágica.

Palabras clave: Duplicación esofágica, malformación esofágica.

Introducción

Las duplicaciones esofágicas (DE) corresponden a malformaciones de tipo quístico, muy poco frecuentes. Dentro de las duplicaciones del intestino anterior, corresponden a un 15-20%, luego de las duplicaciones de íleon distal. Hoy en día, la teoría más aceptada sobre su origen es la “teoría de la recanalización aberrante”. En la quinta o sexta semana de vida intrauterina ocurriría una falla en la unión de vacuolas dando origen a estas formaciones quí-

ticas¹. Presentamos el caso de una lactante en la que se encontró una DE como hallazgo intraoperatorio.

Caso clínico

Paciente femenino de 11 meses, prematura de 32 semanas, con antecedentes de depresión neonatal recuperada, reflujo gastro-esofágico con hernia hiatal y neumopatías a repetición. Ingresa electivamente para practicarle una hernioplastia diafragmática y

*Recibido el 28 de Octubre de 2009 y aceptado para publicación el 5 de Enero de 2010.

Correspondencia: Dr. Sergio Zúñiga R.
Marcoleta 352, Santiago, Chile.
E-mail: zuniga @ med.puc.cl

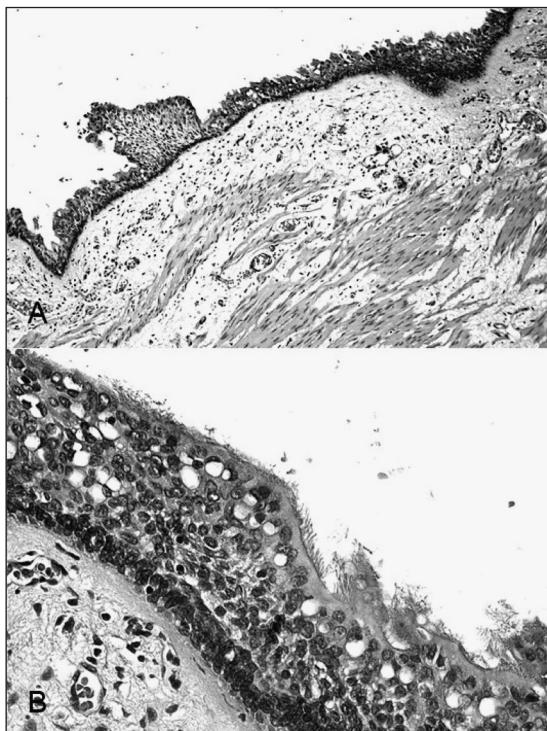


Figura 1. A) Pared de la duplicación esofágica constituida por tejido conectivo, túnica muscular lisa y epitelio, en partes de tipo respiratorio y en otras escamoso (X 200, hematoxilina eosina). B) Revestimiento por epitelio de tipo respiratorio en el cual se pueden observar abundantes cilios (X 400, hematoxilina-eosina).

funduplicatura de Nissen. El procedimiento fue inicialmente laparoscópico, pero al liberar el esófago para realizar la funduplicatura, se encuentra una masa de 2 x 3 x 2 centímetros en relación a la pared inferior izquierda del esófago, adherida al lóbulo inferior pulmonar. Esto fue observado a través del hiato esofágico. En ese momento se decide convertir el procedimiento efectuándose una laparotomía transversa supraumbilical, con la que se logra un buen acceso. La lesión fue resecada por completo, a través del hiato, sin ingresar al lumen esofágico, comprobándose que se trataba de una estructura quística. Se envía a análisis anatómo-patológico, donde se confirma el diagnóstico de duplicación esofágica (Figura 1).

La paciente contaba con un estudio baritado de esófago-estómago-duodeno (Figura 2), el cual mostraba la hernia hiatal y ninguna evidencia de una imagen compatible con el hallazgo quirúrgico. En el postoperatorio la paciente evoluciona favorablemente y es dada de alta a los 7 días. Luego de 6 meses de seguimiento, se encuentra en buenas con-



Figura 2. Radiografía de esófago-estómago-duodeno. Se observa la hernia hiatal por deslizamiento pero no hay evidencias de una imagen compatible con una duplicación esofágica.

diciones generales, asintomática y con un adecuado incremento pondo-estatural.

Al interrogar dirigidamente a los padres de la lactante, nunca presentó síntomas como alteraciones de la deglución, síntomas respiratorios obstructivos ni hemorragia digestiva.

Discusión

La duplicación esofágica (DE) corresponde a una malformación del intestino anterior y es muy poco frecuente. Algunos autores han reportado una incidencia de 1 en 8.200, constituyendo entre 0,5 al 2,5% de las masas esofágicas^{1,2}. Entre las malformaciones del intestino anterior, las DE dan cuenta del 15-20% de los casos, siendo la segunda causa después de las duplicaciones de íleon distal¹. En la literatura nacional, encontramos sólo una revisión que incluía 25 casos de duplicaciones del tubo digestivo, de las cuales, 5 eran esofágicas³.

Múltiples hipótesis han sido propuestas con el objetivo de comprender la embriogénesis de estas malformaciones gastrointestinales. Sin embargo, ninguna logra explicar todas las posibles combinaciones de duplicaciones, localizaciones y anomalías asociadas. La teoría de la “recanalización luminal aberrante” explica aquellas duplicaciones que pasan por la “fase sólida”, como el esófago, intestino delgado y colon. En la quinta o sexta semana de vida intrauterina, el epitelio que cubre el intestino anterior crece y oblitera el lumen, formando vacuolas. Algunas de estas vacuolas fallan en unirse a lo largo del eje longitudinal y se forma el quiste^{1,4,5}. Debido a la dextro-rotación del esófago, luego de completar

la tubulación, estas lesiones se encuentran preferentemente al lado derecho⁶.

De acuerdo a los criterios patológicos descritos por Palmer⁷, una DE es definida por: (a) adhesión a la pared esofágica, (b) presencia de epitelio del tracto gastrointestinal y (c) presencia de dos capas de muscular propia. Histológicamente, los hallazgos clásicos son epitelio ciliado columnar pseudoestratificado en asociación a dos capas de músculo liso. El diagnóstico diferencial de las DE incluye: masa mediastínica posterior, quiste broncogénico o neuromatérico, secuestro pulmonar, meningocele anterior y hemangioma. Las DE y los quistes broncogénicos son anomalías muy similares tanto en histología como ubicación. Sin embargo, las DE no contienen cartílago o glándulas respiratorias, como es el caso del quiste broncogénico^{8,9}.

Clinicamente, las DE son dos veces más frecuentes en hombres, y típicamente se presentan en neonatos y lactantes⁴. Los síntomas son variables dependiendo de tres factores: (a) nivel anatómico comprometido, (b) efecto de masa de la lesión y (c) complicaciones específicas relacionadas. Síntomas inespecíficos como malestar o dolor pueden ser secundarios a su efecto de masa. A medida que la lesión crece, pueden aparecer síntomas compresivos de estructuras vecinas, como disfagia, vómitos, tos, sibilancias y disnea¹⁰.

Según el nivel anatómico, se pueden clasificar como cervicales, media o distales. Las DE cervicales constituyen un 23% de los casos. Generalmente son asintomáticas, pero pueden presentarse como masas cervicales laterales, como dificultad respiratoria progresiva o como estridor agudo en el recién nacido, causado por el tamaño, o bien, infección de la lesión^{1,11}. Las DE del tercio medial corresponden a un 17% del total, debido a su proximidad a la tráquea pueden presentarse con síntomas severos de obstrucción de vía aérea superior. Cerca del 60% de las DE se localizan en el tercio distal del esófago y habitualmente son asintomáticas, tal como fue el caso de nuestra paciente¹.

Las DE pueden ser anomalías únicas o estar asociadas a otras malformaciones del tracto gastrointestinal, como atresia esofágica, fistulas, malformaciones broncopulmonares o duplicaciones intestinales^{6,12}. Anomalías vertebrales como la escoliosis, hemivértebra y espina bifida deben ser investigadas dirigidamente, ya que pueden acompañar a una DE⁸.

A pesar de que la mayoría de estas malformaciones son asintomáticas, sus complicaciones pueden ser graves, e incluso poner en riesgo la vida. Aproximadamente un tercio de las DE contienen mucosa gástrica, la cual puede ulcerarse y provocar hemorragias dentro del quiste. El riesgo de malignización también ha sido reportado en la literatura. Tapia y

White publicaron el caso de un carcinoma de células escamosas derivado de una DE^{8,13,14}.

Múltiples imágenes pueden ser utilizadas para estudiar las DE. En la radiografía de tórax, dependiendo de su tamaño y ubicación, las DE pueden pasar desapercibidas o ser descritas como masas mediastínicas posteriores. La mayoría se manifiesta como una lesión quística, esférica, que raramente se comunica con el esófago. Si el quiste se comunica con el esófago o el árbol traqueo-bronquial, puede encontrarse aire en su interior o una fase de aire-fluido que puede ser demostrada en radiografías de rayo horizontal⁴. La radiografía de tórax además puede evidenciar anomalías vertebrales asociadas.

La tomografía axial computarizada (TAC) es útil en definir la naturaleza del quiste y su relación con estructuras vecinas. Usualmente, las DE tienen una densidad similar a la del agua. En ocasiones, una DE con comunicación al árbol bronquial puede aparecer como quiste con relleno aéreo en la TAC. La resonancia magnética nuclear (RMN) provee información sobre localización y extensión de la DE y evalúa posibles anomalías asociadas. En la RMN, las DE presentan señal de baja intensidad en T1-W y señal de muy alta intensidad en T2-W^{4,8,15}.

El uso del ultrasonido en el estudio de las DE es limitado, su utilidad se remite a las duplicaciones de la porción cervical del esófago^{4,14}. La ecografía prenatal puede mostrar una masa torácica fetal que podría causar desplazamiento del mediastino y obstrucción al retorno venoso, provocando hidrops fetal no inmune. El shunt tóraco-amniótico a las 28 semanas de gestación ha sido una herramienta exitosa en el tratamiento de las DE diagnosticadas *in utero*^{10,16}.

Estudios con contraste podrían mostrar efecto de masa por compresión del esófago o desplazamiento intestinal¹⁰. Estudios con Tc-99m perteconetato definen la presencia de mucosa gástrica ectópica¹⁷. Algunos autores recomiendan la exploración imagenológica completa del tracto gastrointestinal, vía TAC o RMN, para evitar que una segunda lesión incidental pase desapercibida⁸.

El diagnóstico definitivo de las DE es anatómopatológico, luego de la resección quirúrgica de la lesión⁵. La resección completa de la lesión es el tratamiento de elección para todas las DE, tanto sintomáticas como incidentales. El manejo expectante de las lesiones asintomáticas no es recomendado debido a que la mayoría de éstas desarrollará síntomas o complicaciones. La resección del segmento esofágico puede ser necesaria en caso de que la relación entre la pared del quiste y la del esófago sea muy íntima y no permita la resección sólo del quiste. La mayoría de los autores recomienda que la vía más ventajosa para resecar lesiones intratorácicas es la toracoscópica. Sin embargo, si la DE requiere

mayor resección debido a otras lesiones concomitantes, o presenta extensión abdominal, la vía de acercamiento de elección es la toracotomía. Michel et al, no recomiendan la vía toracoscópica si existe una DE compresiva con distensión pulmonar y desplazamiento mediastínico¹⁸. Otros autores, señalan que la toracoscopía podría no estar contraindicada si el quiste primero es aspirado y luego resecado¹⁹. En conclusión, el hallazgo de la DE en la paciente no fue típico, ya que habitualmente se realiza gracias a las nuevas y mejores técnicas de imágenes, y no en una cirugía por otro motivo como fue nuestro caso. A pesar de esto, la paciente fue correctamente tratada y luego diagnosticada en la anatomía patológica, lo que se tradujo en su bienestar actual.

Agradecimientos

Dr. Claudio Berrios G. Departamento de Radiología Pontificia Universidad Católica de Chile.

Referencias

- Macpherson, R. Gastrointestinal Tract Duplications: Clinical, Pathologic, Etiologic and Radiologic Considerations. *Radiographics* 1993; 13: 1063-1080.
- Arbona JL, Fazzi JGF, Mayoral J. Congenital esophageal cysts: case report and review of literature. *Am J Gastroenterol* 1984; 79: 177-182.
- Matus C, Romanini MV, Correia G, Ibáñez R, Velozo L. Duplicaciones del tubo digestivo. *Rev de Cir Infantil* 2002; 12: 142-144.
- Hur J, Yoon C, Kim M. Imaging features of gastrointestinal tract duplications in infants and children: from oesophagus to rectum. *Pediatr Radiol* 2007; 37: 691-699.
- Kluth D, Fiegel H. The embryology of the foregut. *Semin Pediatr Surg* 2003; 12: 3-9.
- Secil M, Goktay A, Karabay N, Igci E, Pornar T. Esophageal duplication cyst coexisting with Bochdalek's hernia and polysplenia. *Eur Radiol* 1999; 9: 478-480.
- Palmer ED. Benign intramural tumors of the stomach: a review with special reference in gross pathology. *Medicine* 1951; 30: 81-88.
- Martin N, Kim J, Verma S, Rubin R, Mitchell D, Bergin D, et al. Intra-abdominal Esophageal Duplication Cysts: A Review. *J Gastrointest Surg* 2007; 11: 773-777.
- Nobuhara KK, Gorski YC, La Quaglia MP, Shamberger RC. Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. *J Pediatr Surg* 1997; 32: 1408-1413.
- Azzie G, Beasley S. Diagnosis and treatment of foregut duplications. *Semin Pediatr Surg* 2003; 12: 46-54.
- Sharma K, Ranka P, Meratiya S. Isolated cervical esophageal duplication. *J Pediatr Surg* 2005; 40: 591-592.
- Snyder CL, Bickler S, Gittes GK, Ramachandran V, Ashcraft KW. Esophageal duplication cyst with esophageal web and tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 1996; 31: 968-969.
- Tapia RH, White VA. Squamous cell carcinoma arising in a duplication cyst of the esophagus. *Am J Gastroenterol* 1985; 80: 325-329.
- Rattan K, Magu S, Rohilla S. Mediastinal foregut duplication cysts. *Indian J Pediatr* 2004; 71: 103-105.
- Rafal RB, Markisz JA. Magnetic resonance imaging of an esophageal duplication cyst. *Am J Gastroenterol* 1991; 86: 1809-1811.
- Ferro MM, Milner R, Voto L, Zapatero J, Cannizzaro C, Rodríguez S, et al. Intrathoracic alimentary tract duplication cysts treated in utero by thoracoamniotic shunting. *Fetal Diagn Ther* 1998; 13: 343-347.
- Carachi R, Azmy A. Foregut duplications. *Pediatr Surg Int* 2002; 18: 371-374.
- Michel JL, Revillon Y, Montupet P, Sauvat F, Sarnacki S, Sayegh N, et al. Thoracoscopic treatment of mediastinal cysts in children. *J Pediatr Surg* 1998; 33: 1745-1748.
- Bratu I, Laberge JM, Flageole H, Bouchard S. Foregut duplications: is there an advantage to thoracoscopic resection? *J Pediatr Surg* 2005; 40: 138-141.