

◆ CASO CLÍNICO

Duplicación gástrica. Reporte de un caso y revisión de la literatura

Frances Stock,¹ Francisco Cammarata-Scalisi,² Pierina Petrosino,³
Asmiria Arenas de Sotolongo,³ Melisse Milano,³ Mario Farias⁴

¹ Unidad de Oncología, Instituto Autónomo Hospital Universitario de Los Andes, ² Unidad de Genética Médica, Departamento de Puericultura y Pediatría, ³ Cátedra de Anatomía Patológica, ⁴ Interno de Pregñado, Facultad de Medicina, Universidad de Los Andes. Mérida, Venezuela.

Acta Gastroenterol Latinoam 2010;40:258-263

Resumen

Las duplicaciones del tracto alimentario son anomalías congénitas infrecuentes. Pueden ocurrir en cualquier nivel del tracto gastrointestinal. Las duplicaciones gástricas representan sólo 7% de todas las duplicaciones gastrointestinales. Los síntomas y signos con frecuencia pueden incluir vómitos, dolor abdominal y masa palpable, y en algunos casos pueden producir síntomas relacionados con sus complicaciones. La etiología no ha sido aún bien precisada. A pesar de que los estudios de radiología, ultrasonido y tomografía axial computarizada pueden ayudar al diagnóstico preoperatorio, éste es usualmente confirmado en la cirugía. El objetivo de este informe es reportar un caso de una niña de dos años de edad con vómitos recurrentes y masa abdominal palpable con diagnóstico histopatológico de duplicación gástrica.

Palabras claves. Duplicaciones del tracto alimentario, duplicación gástrica, etiología, diagnóstico.

Gastric duplication. A case report and review of the literature

Summary

Duplications of the alimentary tract are rare congenital anomalies. They can occur anywhere throughout the gastrointestinal tract. Gastric duplications represent only 7% of all gastrointestinal duplications. Symptoms and signs often can include vomiting, abdominal pain

and palpable mass, and in some cases symptoms related to its complications may be present. The etiology has not been well characterized yet. Although radiographic studies, ultrasonography and computerized axial tomography may help to the preoperative diagnosis, this diagnosis is usually confirmed at surgery. The objective of this paper was to report the case of a 2-year-old girl with recurrent vomiting and abdominal palpable mass with histopathology diagnosis of gastric duplication.

Key words. Duplications of the alimentary tract, gastric duplication, etiology, diagnosis.

En 1884 Fitz empleó la palabra "duplicación" para señalar lo que él pensó eran remanentes del conducto onfalomesentérico. Un siglo antes Calder había hecho la primera descripción de esta anomalía. Los términos "quiste enterógeno", "íleon doble", "divertículo gigante" y el inusual "divertículo de Meckel" fueron inicialmente utilizados, pero Ladd en 1937 acuñó el término "duplicaciones del tubo digestivo" para unificar la terminología de esta serie de patologías gastrointestinales.¹ La localización más frecuente de duplicación intestinal se presenta en el siguiente orden: yeyuno, íleon, ciego, recto, estómago, colon y piso de la boca.² Los signos y síntomas clínicos son variados. Sin embargo, los más comunes son vómitos, dolor abdominal y masa palpable.³

Por lo tanto, la duplicación gástrica corresponde a una de las variedades poco frecuentes de las duplicaciones del tracto digestivo,⁴ representando sólo el 7% del total de ellas.⁵ La causa puede ser debida a una falla embrionaria en la recanalización del tubo digestivo primitivo.⁶ Son malformaciones congénitas quísticas, tapizadas por epitelio gastrointestinal.⁷ La mayoría se localiza en la región antropilórica, a

Correspondencia: Francisco Cammarata-Scalisi
Unidad de Genética Médica, Departamento de Puericultura y Pediatría, Universidad de Los Andes. Instituto Autónomo Hospital Universitario de Los Andes. Nivel Mezzanina. Mérida 5101. Venezuela.
Tel. 0058 0274 2403208 / Móvil: 0058 0424 7296843
E-mail: francocammarata19@gmail.com

nivel del borde mesentérico y no tiene comunicación de su lumen con el estómago.^{6,7} En algunos pacientes la sintomatología puede ser derivada de alguna complicación como la obstrucción intestinal, la infección, el sangrado y la perforación.⁶ La ecografía abdominal y la tomografía axial computarizada (TAC) son de utilidad para el diagnóstico y permiten definir la localización de la masa y las relaciones con las estructuras vecinas.^{4,6} En muchos casos el diagnóstico sólo se confirma durante la exploración quirúrgica.⁴ El propósito de este informe es describir un caso de duplicación gástrica en una niña tratada en el Instituto Autónomo Hospital Universitario de Los Andes (IAHULA) que es el único observado en los últimos diez años en este importante centro asistencial del occidente venezolano.

Caso clínico

Se presenta una niña de 2 años y 2 meses de edad, referida a la Emergencia Pediátrica del IAHULA por presentar vómitos de contenido alimentario que aumentaron en frecuencia hasta producir intolerancia oral, de aproximadamente un mes de evolución, y masa abdominal palpable. Como antecedentes familiares la madre refiere cefalea ocasional y niega hábitos tabáquicos y alcohólicos. El padre, de 26 años de edad en el momento de la concepción, refiere litiasis renal, presenta hábitos tabáquicos pronunciados y alcohólicos moderados. La paciente es hija única de la unión de sus padres. Los antecedentes obstétricos y perinatales son: madre de 21 años de edad, primigesta, embarazo simple, controlado, sin complicaciones, unión no consanguínea, parto vaginal a las 38 semanas de gestación, respiración espontánea al nacer, peso al nacer de 3.500 g, talla al nacer de 51 cm y cianosis transitoria al nacimiento sin complicaciones. Los antecedentes alimentarios son: lactancia materna exclusiva durante tres meses, ablactación al cuarto mes e incorporación a la dieta familiar a partir del año de edad. Como antecedente personal tiene una hospitalización al año de edad por bronconeumonía. En el examen físico se constata: frecuencia cardíaca de 109 por minuto; tensión arterial de 99/54 mmHg; frecuencia respiratoria de 22 por minuto; temperatura 36,3 °C; peso, talla y circunferencia cefálica en los percentiles 3-10, 10-50 y 10-25, respectivamente; frente amplia; lesiones dispersas de tipo papular en región frontal; hendiduras palpebrales descendentes; narinas antevertidas; puente cóncavo; punta bulbosa; boca con ma-

laoclusión dentaria, paladar ojival y micrognatia; pabellones auriculares rotados posteriormente, en asa; tórax simétrico; examen cardiopulmonar normal; masa palpable en abdomen a nivel de hipocondrio izquierdo y epigastrio, de 8 x 6 cm, de consistencia dura, móvil, no dolorosa a la palpación; genitales normoconfigurados y adecuados para la edad; extremidades con clinodactilia bilateral en el quinto dedo, sin alteraciones en el resto; y examen neurológico normal.

Luego de la realización de una radiografía con administración de contraste de bario por vía oral en la que se visualiza una falta de progresión de éste hacia el duodeno, de una ecografía y de una TAC abdominal con contraste oral e intravenoso que reporta una lesión quística a nivel gástrico (Figura 1), la paciente es llevada a la mesa operatoria donde se realiza una laparotomía exploradora, una gastrectomía parcial del 50%, una reconstrucción tipo Billroth II, una resección y anastomosis término-terminal de colon transverso y una resección de la cola del páncreas. Posteriormente a la intervención la paciente ingresa a la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos presentando evolución clínica satisfactoria y egreso del área de hospitalización a los diez días del postoperatorio.

Figura 1. A la izquierda: radiografía donde se visualiza la falta de progresión del bario hacia el duodeno. A la derecha: tomografía computada abdominal donde se observa una lesión quística a nivel gástrico.



En los exámenes de laboratorio previos a la intervención quirúrgica se evidencia una trombocitosis y una química sanguínea dentro de la normalidad. Luego de la intervención se mantiene la trombocitosis y se observan una elevación inicial de las cifras de glicemia que se controlan inmediatamente y una leve hipocalcemia, sin que haya alteración de cualquier otro parámetro.

La descripción macroscópica de la anatomía patológica es: pieza quirúrgica correspondiente a estó-

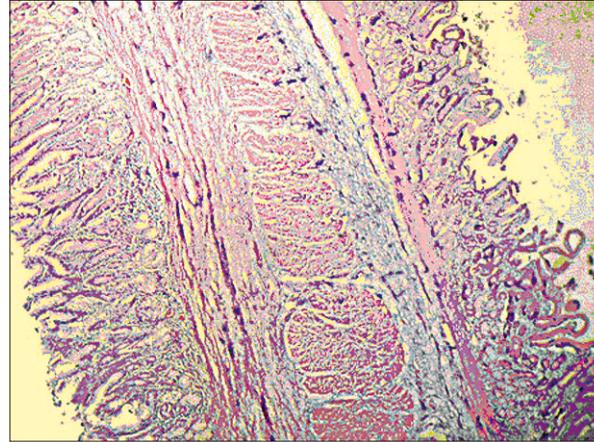
magro que mide 10 x 7 x 4 cm, margen quirúrgico proximal que mide 3 cm y distal que mide 2,6 cm de diámetro. La serosa se muestra lisa, brillante y la superficie externa deformada. Al corte es de consistencia elástica, con paredes de 0,4 cm de espesor y mucosa con pliegues aplanados. Adyacente a la cavidad gástrica se identifica una formación quística que mide 6,5 x 4 cm, con paredes de 0,3 a 0,4 cm de espesor y una superficie interna blanquecina (Figura 2). Se identifica un segmento de colon transverso que mide 3 x 2,5 cm. La serosa es lisa y brillante. Al corte es de consistencia semifirme, con paredes de 0,3 cm de espesor y pliegues discretamente edematosos. El epiplón menor mide 6 x 1 cm, con escaso epiplón mayor. En el espesor y próximo al borde duodenal se aprecia un nódulo de 0,9 cm de diámetro, de color pardo claro, consistencia semifirme y superficie de corte pardo clara. Se observa una cola de páncreas que mide 2 x 1 cm, de color pardo claro y consistencia semifirme.

Figura 2. Duplicación gástrica: formación quística a nivel antropilórico.



En la descripción microscópica los cortes histológicos muestran una pared muscular gástrica revestida por ambas caras (Figura 3). La mucosa gástrica está discretamente edematosa, con presencia de un moderado infiltrado inflamatorio de tipo mononuclear, con tendencia a formar folículos linfoides en algunas áreas. Los cortes histológicos correspondientes al margen quirúrgico distal muestran una mucosa duodenal con preservación del aspecto típico del epitelio superficial y glandular y moderada disminución del número de glándulas, dándole a la

Figura 3. Corte histológico que muestra la pared muscular gástrica revestida por ambas caras (HE X 40).



mucosa un aspecto parcialmente hipotrófico. La lámina propia muestra un moderado infiltrado inflamatorio crónico predominantemente linfoplasmocitario y una congestión vascular. Los cortes histológicos del material examinado correspondientes al margen de resección quirúrgica muestran una mucosa colónica revestida por un epitelio cilíndrico simple mucoso de histología conservada. El corion interglandular presenta un moderado infiltrado inflamatorio de tipo mononuclear. Los cortes histológicos correspondientes a un ganglio del borde duodenal muestran folículos linfoides con centros germinales de variados tamaños y sinusoides marcadamente distendidos y ocupados por abundantes histiocitos espumosos. Finalmente, los cortes correspondientes a la cola de páncreas muestran un parénquima pancreático con la arquitectura histológica conservada.

El diagnóstico final es: biopsia de estómago por gastrectomía parcial con duplicación gástrica; margen quirúrgico proximal con gastritis crónica moderada folicular; quiste en la pared gástrica; margen quirúrgico distal con duodenitis crónica severa inespecífica; ganglio del borde duodenal con hiperplasia folicular reactiva e histiocitosis sinusal; quiste con área fibrosa, inflamación crónica reagudizada abscedada y fibrosis; y margen de resección quirúrgico de colon con colitis crónica moderada inespecífica.

Discusión

Las masas abdominales de origen gastrointestinal más frecuentes en la época neonatal son también llamadas duplicaciones del tracto alimentario. Apare-

cen a cualquier nivel, desde la boca hasta el ano, siendo las más comunes en el íleon terminal. Se localizan en el borde mesentérico y tienen una capa muscular completa recubierta de mucosa gástrica o intestinal. A la palpación, se trata de una masa compresible y blanda que puede provocar dolor por distensión o ulceración de la mucosa, hemorragia o perforación. Inicialmente, la ecografía orienta al diagnóstico, el tránsito baritado puede ser útil y los estudios isotópicos pueden demostrar la presencia de mucosa gástrica ectópica.⁸ Los signos y síntomas clínicos dependen de la localización y tipo de duplicación. Una masa móvil es un hallazgo común en un examen de palpación rutinaria del abdomen. La acumulación de secreciones en la duplicación pueden causar dolor, distensión abdominal, obstrucción y compresión de los intestinos adyacentes. Algunas duplicaciones intestinales pueden producir hemorragias intraperitoneales ocultas, lo cual se sospecha cuando un lactante menor presenta vómitos, distensión abdominal, masa palpable y a veces dificultad para alimentarse. Al determinarse el hematocrito en tomas frecuentes se demuestra su descenso y mediante la punción abdominal se extrae líquido hemorrágico. La mayoría de los autores refieren en sus estudios que el inicio de los síntomas en los niños se presenta antes del primer año de vida en el 65% de los casos.³

Kuo y col revisaron los casos de duplicación del tracto alimentario en 16 pacientes admitidos en el *Mackay Memorial Hospital* de Taipei, Taiwan durante un período de diez años.⁹ Todos los casos, excepto uno, fueron duplicaciones quísticas. El restante fue de tipo tubular a nivel del colon. El principal tipo fue el de íleon con 12 casos, seguido de los de colon y estómago con 3 casos cada uno, y de los de apéndice y recto con 1 caso cada uno. Los síntomas más frecuentes fueron los vómitos intermitentes que ocurrieron antes del primer año de edad en la mitad de los casos. Entre otros síntomas se incluyeron dolor abdominal en el 50% de los pacientes, distensión abdominal en el 30%, masa palpable en el 20%, signos peritoneales en el 13%, hemorragias en el 6%, fiebre en el 6% y constipación en el 6%. La evolución clínica fue favorable excepto en dos pacientes: uno falleció por perforación de la duplicación del colon sigmoide y otro presentó múltiples anomalías congénitas. Karnak y col realizaron un estudio clínico retrospectivo durante un período de 26 años en 38 pacientes con duplicación del tracto alimentario evaluados en el Departamento de Ciru-

gía Pediátrica de la Universidad de Hacettepe, Ankara, Turquía.¹⁰ Las duplicaciones estudiadas fueron 42 en 20 pacientes de sexo masculino y 18 de sexo femenino. Los síntomas se presentaron antes del año de edad en el 66% de los casos y durante el período neonatal en el 24%. De las lesiones, una se encontró a nivel sublingual, 9 a nivel intratorácico, incluyendo 2 toracoabdominales, y 32 a nivel intraabdominal. Entre los signos y síntomas más frecuentemente encontrados se consignaron tumoración, distensión abdominal, constipación, vómitos y *distress* respiratorio. El 79% de las duplicaciones fueron quísticas y el 21% tubulares. En dos pacientes se encontraron múltiples duplicaciones. Cuarenta duplicaciones presentaron mucosa heterotópica, principalmente del tipo gástrico. Se encontró más de un tipo de mucosa heterotópica en la misma duplicación en el 10% de los casos. Se encontraron malformaciones adicionales en el 26% de los pacientes y el 15,8% murió por causas no precisadas.

En nuestro continente, en el Hospital de Niños Roberto del Río, Santiago de Chile, Matus y col analizaron 25 pacientes (17 varones y 8 mujeres) con registros histopatológicos de duplicaciones del tubo digestivo en un período de 30 años.¹¹ Las edades oscilaban entre un día y 14 años, con un promedio de 8 meses. Los principales hallazgos clínicos fueron dolor abdominal, vómitos, distensión abdominal y hemorragia digestiva. No hubo diagnóstico prenatal y sólo en el 25% de los casos existió una impresión clínica previa a la intervención quirúrgica. Las localizaciones más frecuentes fueron íleon en 16 casos, esófago en 5 y estómago, duodeno, apéndice e íleo-colon en 1 respectivamente. Histológicamente 21 casos correspondieron al tipo quístico y 4 al tipo tubular, todos ellos ileales. Se encontraron malformaciones asociadas en 5 pacientes, 3 con cardiopatías congénitas, 1 con obstrucción intestinal múltiple y 1 con un lóbulo pulmonar accesorio. Otra serie de casos es la presentada por Lachica y col en el Centro Médico del Noroeste del Instituto Mexicano del Seguro Social en Monterrey, México, durante 1969-1981.¹² Estos autores estudiaron 8 casos de duplicación del tubo digestivo en pacientes pediátricos. La edad promedio fue 62 días, 4 pacientes fueron varones y 4 mujeres. Los signos y síntomas predominantes fueron masa abdominal palpable, distensión abdominal, constipación y vómitos. La localización más frecuentemente encontrada fue el íleon en 5 casos y la variedad más común fue la quística en 6 casos. Histopatológicamente en todos

los casos se demostró la presencia de una pared común de músculo liso con revestimiento de mucosa intestinal tanto en la duplicación como en el intestino normal adyacente.

Se han propuesto múltiples hipótesis para explicar la etiología de la duplicación del tracto alimentario. La presencia de tejido heterotópico, con capa muscular bien formada circular o longitudinal, epitelio escamoso, transicional y glandular tubular y acinar, orientan a un origen en el desarrollo congénito.¹³ Una teoría se refiere a la persistencia del conducto neuroentérico (orificio transitorio que comunica el ectodermo con el endodermo en el embrión trilaminar). Este defecto embriológico sería el responsable de otras anomalías que son englobadas bajo la denominación de síndrome de la notocorda hendida e incluye la espina bífida, el mielomeningocele, la médula fibrosa con dehiscencia de la notocorda, el quiste entérico intrarraquídeo y el quiste neurentérico. La localización anatómica dorsal de la mayoría de las duplicaciones digestivas y su frecuente asociación con anomalías vertebrales, principalmente espina bífida, agenesia vertebral y hemivértebra, refuerzan esta teoría. Sólo no se corresponden con esta teoría las duplicaciones de tipo tubular del íleon terminal y del colon.¹⁴ Favara y col han postulado las oclusiones vasculares intrauterinas como causas y Lewis y col explican su aparición por cualquiera de los siguientes fenómenos: persistencia de un divertículo embrionario, intentos abortivos de tunelización, reversión filogenética, recanalización y fusión de pliegues longitudinales.¹

La duplicación del tracto alimentario es una entidad infrecuente y ocurre en uno de 4.500 nacimientos. La duplicación gástrica se presenta en 17 de cada 1.000.000 de nacimientos.¹⁵ Ladd y Gross las caracterizaron por el hallazgo histológico de dos capas musculares con células mientéricas en su interior. De tipo quístico o tubular, siempre se sitúan en el borde mesentérico del tracto gastrointestinal que es vascularizado por una fuente en común. La patogenia afecta el desarrollo fetal temprano por diversos mecanismos. Las manifestaciones clínicas varían de acuerdo a la localización del defecto. La edad de presentación es usualmente dentro del primer año de vida. El diagnóstico puede ser preoperatorio por diversos estudios, pero la malformación es frecuentemente descubierta durante la cirugía, como el caso presentado en este informe.⁶ Tang y col recientemente publicaron en China un único caso similar al presentado por nosotros, correspondiente a una ni-

ña de dos años de edad, con duplicación pilórica intraluminal quística y vómitos progresivos.¹⁷ El diagnóstico fue confirmado por estudios histopatológicos a pesar de los diversos estudios de imagen realizados. Por su parte, Daher y col reportaron el diagnóstico prenatal de duplicación gástrica quística por ultrasonido obstétrico a las 33 semanas de gestación.¹⁸ El paciente fue intervenido a los 19 días de nacido y el diagnóstico se confirmó histopatológicamente. Finalmente, entre los diagnósticos diferenciales de la duplicación gástrica se pueden mencionar principalmente los quistes de la vía biliar, los linfangiomas mesentéricos y otros tipos de duplicaciones intestinales.⁶

En síntesis, presentamos un caso de duplicación gástrica quística localizada en la región antropilórica, en una niña con antecedentes de vómitos de contenido alimentario que fueron aumentando de frecuencia hasta producir intolerancia oral, además de una masa palpable a nivel de hipocondrio izquierdo y epigastrio. El diagnóstico de la entidad fue histopatológico a pesar de los diferentes estudios de imágenes realizados. La paciente presentó una evolución clínica satisfactoria luego de la intervención quirúrgica y se mantiene asintomática. Este constituye el único caso de duplicación gástrica evaluado en el IAHULA en los últimos diez años, centro de referencia de la mayor parte del estado Mérida y algunas regiones vecinas de estados aledaños. Realizamos además una revisión de la literatura de las duplicaciones del tracto alimentario, en especial de la concerniente a este caso, poniendo especial énfasis en los casos publicados en Latinoamérica.

Referencias

1. Arita JA, Amador L, Rivera C. Duplicación gástrica a nivel del píloro. Informe de un caso y revisión de la literatura. *Rev Med Hondur* 1987;55:237-238.
2. González O, Rodríguez F. Duplicación intestinal. A propósito de tres casos. *Honduras Pediátrica* 1989;12:8-10.
3. Tróchez HB, Lizardo J. Duplicación intestinal. Reporte de un caso y revisión de la literatura. *Honduras Pediátrica* 1998;19:80-83.
4. Martínez M, Scherl H, Bailez M. Resolución laparoscópica de una duplicación gástrica. *Rev Cir Infantil* 1999;9:113-115.
5. Álvarez-Solís RM, Chagolla-Santillan FJ, Quero-Hernández A, Leonardo-Puerta JD, Bulnes-Mendizábal D, Santamaría-Muñoz R. Duplicación gástrica asociada a quiste pancreático congénito. Descripción de un caso. *Salud en Tabasco* 2007;13:663-667.
6. Donoso C, Varela P, López A, Godoy J. Duplicación gástrica. *Rev Chil Pediatr* 2006;77:52-55.

7. San Román JL, Curros MF, Dovasio F, Sturla M. Duplicación gástrica. *Arch Argent Pediatr* 2003;101:38-40.
8. Fernández I, De Diego EM, Trugeda MS, Sandoval F. Cirugía pediátrica. Masas abdominales en la infancia. *Bol Pediatr* 2001;41:122-130.
9. Kuo HC, Lee HC, Shin CH, Sheu JC, Chang PY, Wang NL. Clinical spectrum of alimentary tract duplication in children. *Acta Paediatr Taiwan* 2004;45:85-88.
10. Karnak I, Ocal T, Senocak ME, Tanyel FC, Büyükpamukçu N. Alimentary tract duplications in children: report of 26 years' experience. *Turk J Pediatr* 2000;42:118-125.
11. Matus C, Romanini MV, Correia G, Ibañez R, Veloza P. Duplicaciones del tubo digestivo. *Rev Cir Infantil* 2002;12:142-144.
12. Lachica M, Isas A, Arevalo JH, Herberth A, González A. Duplicación en tubo digestivo en niños. *Bol Med Hops Infant Méx* 1982;39:489-492.
13. Ildstad ST, Tollerud DJ, Weiss RG, Ryan DP, McGowan MA, Martin LW. Duplications of the alimentary tract. Clinical characteristics, preferred treatment, and associated malformations. *Ann Surg* 1988;208:184-189.
14. Jaroslavsky D, Dinerstein A, Balanian N, Bou-Khair A, Cuervo JL, Iglesias J. Duplicaciones del tubo digestivo. A propósito de un caso clínico. *Rev Hosp Mat Inf Ramón Sardá* 1997;16:63-67.
15. Scheye T, Vanneuville G, Dechelotte P, Queroy-Malame-naide C, Aufauvre B. Duplication of the digestive tract in children. Apropos of 12 cases. *Ann Chir* 1995;49:47-55.
16. Tang XB, Bai YZ, Wang WL. An intraluminal pyloric duplication cyst in an infant. *J Pediatr Surg* 2008;43:2305-2307.
17. Daher P, Karam L, Riachy E. Prenatal diagnosis of an intrathoracic gastric duplication: a case report. *J Pediatr Surg* 2008;43:1401-1404.
18. Bonacci JL, Schlatter MG. Gastric duplication cyst: a unique presentation. *J Pediatr Surg* 2008;43:1203-1205.