

Duplicación ileal que simula una invaginación intestinal. Reporte de un caso con dificultad diagnóstica

Ileal duplication simulating intestinal intussusception. Report of a case, with diagnostic difficulty

Alfonso F. Galván-Montaño^{1*}, Marco A. Vela-Vázquez², María de L. Suárez-Roa³, José de la C. Pérez-Galicia⁴, Ana L. Morales-Leyte⁵ y Silvia García-Moreno⁶

¹División de Cirugía Pediátrica; ²División de Pediatría; ³División de Investigación Clínica de la Dirección de Enseñanza e Investigación; ⁴Departamento de Radiología, División de Radiología e Imagen; ⁵División de Anatomía Patológica; ⁶División de Ciencias Químico Biológicas, Instituto Politécnico Nacional (IPN). Hospital General Dr. Manuel Gea González, Ciudad de México, México

RESUMEN

Las duplicaciones intestinales son malformaciones congénitas con una incidencia de 1 por cada 4,500-5,000 recién nacidos vivos. El 50% son yeyuno-ileales y se asocian con obstrucción o invaginación intestinal, vólvulos, sangrado o perforación intestinal. Se presenta el caso de un niño de 1 año y 6 meses de edad ingresado al servicio de pediatría por falla cardíaca, hipertensión arterial y neumonía, que evoluciona con distensión, dolor abdominal y evacuaciones en jalea de grosella. Se solicita ultrasonido, que reporta invaginación intestinal y divertículo de Meckel. Se realiza laparotomía exploradora y se practica resección intestinal. Se envía la pieza a patología, la cual reporta duplicación intestinal tubular comunicante. El objetivo de presentar este caso es por la baja prevalencia de esta patología y por la dificultad diagnóstica, tanto clínica como por imagenología.

Palabras clave: Niños. Duplicación intestinal. Ultrasonografía.

Correspondencia:

*Alfonso F. Galván-Montaño
E-mail: gamagq3@hotmail.com

Recibido: 30-11-2017
Aceptado: 13-12-2017

DOI: 10.24875/ARM.M18000028
Disponible en internet: 13-12-2018

1665-2118/©2017 Sociedad Mexicana de Radiología e Imagen, AC. Publicado por Permalyer México SA de CV. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

ABSTRACT

Intestinal duplications are congenital malformations with an incidence of 1 in 4,500-5,000 births, 50% are jejuno-ileal. It is associated with obstruction or intussusception, volvulus, intestinal bleeding or perforation. We present the case of a child of 1 year 6 months in the pediatric service due to heart failure, arterial hypertension and pneumonia, evolution, abdominal pain and evacuations in currant jelly. Ultrasound is requested, which reports intestinal intussusception and meckel diverticulum. Exploratory laparotomy is performed and intestinal resection is practiced. The piece is sent to pathology, which reports communicating tubular intestinal duplication. The objective of presenting this case is the low prevalence of this pathology and the diagnostic difficulty, both clinical and by imaging.

Key words: Children. Intestinal duplication. Ultrasonography.

INTRODUCCIÓN

Las duplicaciones del tracto alimentario (duplicaciones intestinales) son malformaciones congénitas poco frecuentes que pueden diagnosticarse en recién nacidos, en la edad pediátrica y en adultos jóvenes, con una incidencia de 1 por cada 4500-5000 recién nacidos vivos. Estas lesiones pueden localizarse en cualquier sitio del tracto digestivo, desde la boca hasta el ano, pero más de dos tercios se encuentran en la cavidad abdominal: 50% en el segmento yeyuno-ileal, 15% en el colon, 7% en el estómago, 5% en el duodeno, 1% en el apéndice, 5% en el recto, y extremadamente raro en el píloro y las vías biliares. Un 15% tiene su localización en el esófago^{1,2}.

La patogénesis aún no es clara, pero se considera que aproximadamente a las 5 o 6 semanas de gestación el intestino anterior está epitelizado por células similares a las del tracto respiratorio. Este epitelio prolifera hasta desaparecer su luz (fase sólida), y luego el mismo epitelio forma vacuolas en el intersticio

por la producción de secreciones, las cuales se unen consecutivamente para formar de nuevo la luz intestinal; esta fase de recanalización intraluminal se lleva a cabo antes de la semana 12 de la gestación³. Si las vacuolas no convergen de la manera adecuada, se formarán quistes con revestimiento muscular, explicando la duplicación intestinal. Una segunda teoría es la interrupción vascular intrauterina, similar a la atresia intestinal, afectando la recanalización y la formación intestinal, lo que explicaría la asociación que tienen estas dos patologías².

La presentación clínica es variada y sutil, siendo determinada por el sitio de la lesión, aunque un gran porcentaje son asintomáticas. Se puede asociar a obstrucción intestinal, invaginación intestinal, vólvulos, sangrado del tubo digestivo alto o bajo, disfagia, dispepsia, estreñimiento crónico, perforación intestinal y neoplasias¹. Se han reportado casos de duplicación esofágica superior y duplicación quística sublingual, que se han manifestado con dificultad respiratoria, sialorrea y disfagia^{3,4}.

En 1937, Ladd describió tres características histológicas esenciales de la duplicación intestinal: capa de músculo liso desarrollada, revestimiento epitelial característico de tracto digestivo (mucosa esofágica, gástrica, intestinal o pancreática) y conexión íntima entre la lesión (duplicación) y el tracto digestivo normal. La duplicación intestinal puede hallarse como un tumor sólido o quístico, parte de una invaginación intestinal o vólvulo intestinal^{3,5}.

En la ultrasonografía se presenta como imágenes homogéneas amorfas quísticas, con una capa ecogénica interna e hipogénica externa. En la tomografía computada puede observarse como tumoraciones benignas planas, esféricas, tubulares, homogéneas, con una densidad de 0 a 20 UH, que no realzan al contraste. El gammagrama presenta una adecuada captación en presencia de mucosa gástrica ectópica, con una sensibilidad del 80 al 85%^{2,3,5}.

El diagnóstico definitivo se realiza con estudio histopatológico, en el que se encuentra una capa muscular lisa desarrollada, con un revestimiento epitelial de tipo intestinal, y hasta en un 35% se encuentra tejido ectópico en la malformación, siendo un 15% de mucosa gástrica o tejido pancreático, por lo que la asociación de hemorragia intestinal o perforación intestinal secundaria a úlcera es frecuente^{1,4}. La mortalidad en diferentes series de casos no supera el 20%¹.

El objetivo de este reporte es por la poca frecuencia de esta patología y la dificultad diagnóstica que hubo en este caso, tanto clínica como por ultrasonografía, confundiendo con invaginación intestinal y divertículo de Meckel.

CASO CLÍNICO

Varón de 1 año y 6 meses de edad, originario de Comitán de Domínguez, Chiapas, con síndrome de Down, hipotiroidismo congénito y conducto arterioso permeable, manejado con levotiroxina, espironolactona, captopril y furosemina. Tiene el antecedente de hiperbilirrubinemia multifactorial y tres hospitalizaciones previas por neumonías. Ingresó al servicio de terapia intensiva pediátrica con diagnóstico de falla cardíaca descompensada e hipertensión arterial pulmonar moderada, neumonía adquirida en la comunidad y dificultad respiratoria con 8 días de evolución, así como desnutrición con déficit del 30%. Permaneció en ayuno durante 13 días y con ventilación mecánica. Se inició la alimentación enteral por sonda orogástrica y a los 7 días presentó distensión abdominal, con variación del perímetro abdominal de 3 cm y evacuaciones en jalea de grosella en dos ocasiones. En la exploración, el abdomen estaba distendido, con dolor a la palpación superficial y profunda, y disminución de los ruidos peristálticos; se palpa una tumoración móvil en el cuadrante inferior derecho. La radiografía toracoabdominal mostró una silueta cardíaca aumentada, con crecimiento de cavidades izquierdas y radioopacidad del parénquima pulmonar. Abdomen con presencia de sonda orogástrica y distensión del colon (Fig. 1). Se realizó ultrasonografía abdominal, en la que se observó en el corte transversal una imagen en dona (asa dentro de asa) con una capa externa hipoeoica, una media ecogénica y una interna hipoeoica (Fig. 2). En el corte longitudinal en escala de grises se observa una imagen de asa dentro de asa con



FIGURA 1. Radiografía toracoabdominal con silueta cardíaca aumentada y crecimiento de cavidades izquierdas. Radioopacidad del parénquima pulmonar generalizado. Abdomen con presencia de sonda orogástrica, distensión de colon.

delimitación de cuatro capas compatible con invaginación (Fig. 3). Se decide realizar laparotomía exploradora y se encuentra patología compatible con divertículo de Meckel a 15 cm de la válvula ileocecal (Fig. 4). Se realiza resección intestinal y formación de estoma tipo Santulli. Se envía la pieza anatómica al servicio de patología, donde se reporta segmento de intestino con patrón de doble asa y presencia de bifurcación de la muscular propia compatible con duplicación intestinal tubular (Figs. 5 y 6).

DISCUSIÓN

Para hacer el diagnóstico de la duplicación intestinal debe presentar tres características típicas de la malformación: 1) conexión con el tracto gastrointestinal con presencia de una

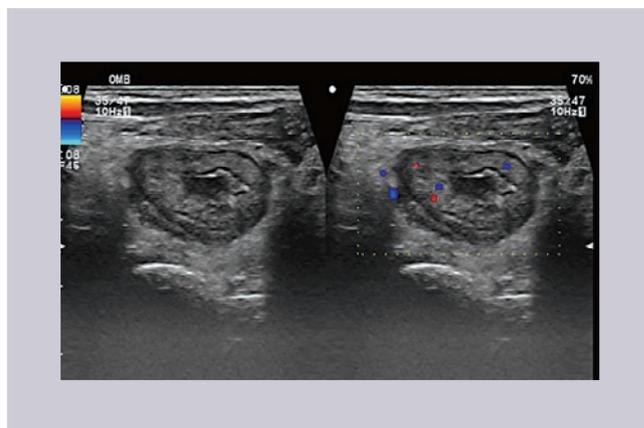


FIGURA 2. Corte transversal en escala de grises y con aplicación de eco-Doppler. Se observa imagen en dona (asa dentro de asa) con una capa externa hipoecoica, una media ecogénica y una interna hipoecoica.



FIGURA 3. Corte longitudinal en escala de grises que corrobora la imagen de asa dentro de asa con delimitación de cuatro capas.

pared común construida de membrana serosa y muscular; 2) presencia de mucosa intestinal; y 3) presencia de tejido muscular liso⁶. Algunos casos de duplicaciones contienen células epiteliales de las vías respiratorias de tipo ciliado, tejido pancreático o mucosa gástrica ectópica⁶. Las duplicaciones pueden ser esféricas, tubulares, comunicantes o no comunicantes.

Un estudio realizado en Japón informa que solo el 11.2% de las duplicaciones de

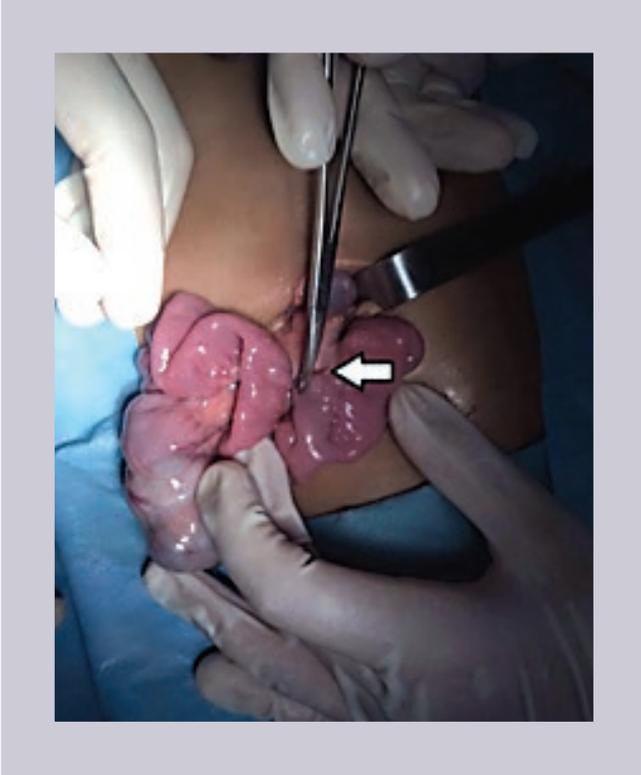


FIGURA 4. Lesión sugestiva de divertículo de Meckel (flecha blanca) sobre el borde antimesentérico a 15 cm de la válvula ileocecal.

la porción del íleon podrán ser diagnosticadas correctamente antes de la operación, y que un 18.2% se diagnostica erróneamente como invaginación ileal, un 15.1% como masa ileal, un 14.4% como íleo y un 26.7% como dolor abdominal de origen desconocido o bien como divertículo de Meckel. En la mayoría de los casos es necesario realizar una laparotomía exploradora para el diagnóstico definitivo^{6,7}.

Clínicamente es difícil hacer el diagnóstico entre duplicación intestinal, invaginación y divertículo de Meckel, ya que todos pueden cursar con dolor abdominal, evacuaciones con sangre, datos de oclusión intestinal (distensión abdominal y vómitos) y presencia de una masa palpable; en mucho depende de su

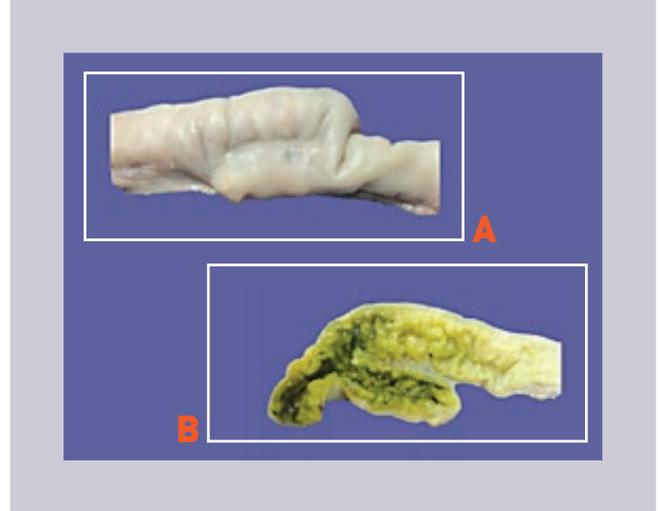


FIGURA 5. Segmento de intestino delgado que presenta doble asa (A). Se puede apreciar la bifurcación de la muscular propia (B).

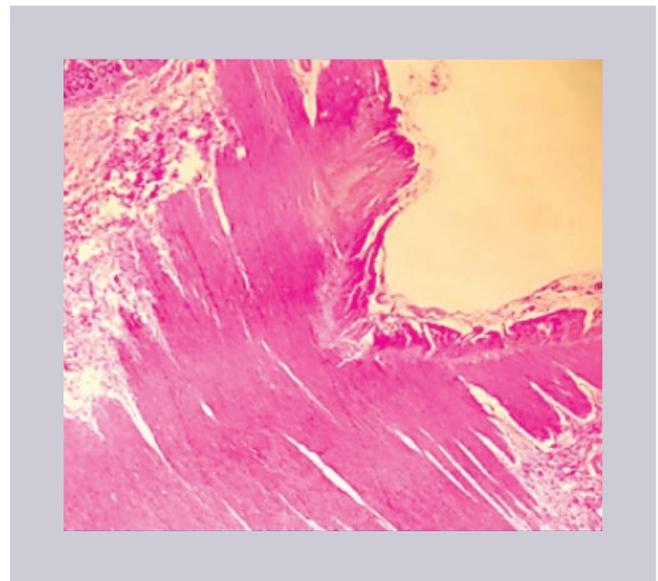


FIGURA 6. Al corte histológico se aprecia la bifurcación de la muscular propia, y en el extremo superior izquierdo, parte de la mucosa intestinal.

localización, de la presencia de mucosa gástrica ectópica y de que exista comunicación o no con el tubo digestivo. Por lo tanto, es importante apoyarse en estudios de gabinete, como ultrasonografía, tomografía, resonancia magnética y gammagrama con tecnecio-99m, con lo cual aumenta el porcentaje de diagnóstico

de estas patologías. Sin embargo, en situaciones de urgencia solo se cuenta con la ultrasonografía y la tomografía.

Las imágenes por ultrasonografía son muy parecidas, ya que en el caso de las duplicaciones se refieren como una imagen de tipo quística con una capa ecogénica interna (epitelio) y una capa hipoecogénica externa que corresponde a las capas musculares³. En el caso de las invaginaciones intestinales, en el corte transversal la imagen se presenta como varios círculos concéntricos (ecogénicos e hiperecogénicos), y en el corte longitudinal se observa el «signo de la manga»⁸. Lo anterior hace que el diagnóstico con este método no sea fácil, como ocurrió en nuestro caso.

En el caso de las duplicaciones intestinales, la tomografía computada muestra una tumoración con contenido homogéneo, con una densidad de 0 a 20 HU, que no se modifica con la aplicación de medio de contraste. En el caso de la invaginación intestinal se observa una imagen en forma de salchicha con varias capas de diferente densidad, o bien como forma de riñón y que depende del edema y el compromiso vascular. En la resonancia magnética, un quiste de duplicación tiene una señal baja en las imágenes ponderadas en T1 y una señal muy baja en las imágenes ponderadas en T2. El gammagrama con tecnecio-99m es de utilidad cuando existe mucosa gástrica ectópica en la duplicación intestinal o se trata de un divertículo de Meckel^{3,9}.

En nuestro caso, un niño de 18 meses de edad con antecedentes de neumonía y falla cardíaca, quien a los 7 días de iniciada la vía oral presenta distensión abdominal,

evacuaciones en jalea de grosella, con una tumoración móvil en el cuadrante inferior derecho, se practica ultrasonografía y se sospecha invaginación intestinal, por lo que se decide realizar laparotomía exploradora y se encuentra una patología que por sus características y sitio se considera compatible con divertículo de Meckel, realizándose resección y derivación tipo Santulli. Solo el estudio histopatológico nos permitió conocer que se trataba de una duplicación tubular comunicante.

CONCLUSIÓN

Consideramos que la duplicación intestinal, la invaginación intestinal y el divertículo de Meckel comparten síntomas y signos clínicos, lo que hace difícil su diagnóstico, y en las duplicaciones intestinales, principalmente las tubulares comunicantes, como fue nuestro caso, las imágenes por ultrasonografía son muy similares a las de invaginación intestinal (asa dentro de asa y varias capas de diferente densidad), por lo que es fácil confundirlas, siendo la tomografía o la resonancia magnética las que podrían diferenciar estas patologías, pero no siempre es posible llevarlas a cabo y más cuando se trata de una urgencia, debiéndose realizar una laparotomía exploradora en la que el cirujano deberá tener en mente estas tres situaciones.

RESPONSABILIDADES ÉTICAS

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo aparecen datos clínicos del paciente de forma anónima.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo aparecen datos clínicos del paciente de forma anónima.

BIBLIOGRAFÍA

1. Patiño Mayer J, Bettolli M. Alimentary tract duplications in newborns and children: diagnostic aspects and the role of laparoscopic treatment. *World J Gastroenterol.* 2014;20:14263-71.
2. Saxena AK. Gastrointestinal duplications. *The Medscape Journal of Medicine.* Serie en internet. (Consultado el 19 de julio de 2016.) Disponible en: <http://emedicine.medscape.com/article/936799-overview>
3. Laskowska K, Gałazka P, Daniluk-Matras I, Leszczyński W, Serafin Z. Use of diagnostic imaging in the evaluation of gastrointestinal tract duplications. *Pol J Radiol.* 2014;79:243-50.
4. Olajide A-RL, Yisau AA, Abdulraseed NA, Kashim I, Olaniyi A, Morohunfade A, et al. Gastrointestinal duplications: experience in seven children and a review of the literature. *Saudi J Gastroenterol.* 2010;16:105-9.
5. Jadlowiec CC, Lobel BE, Akolkar N, Bourque M, Devers T, McFadden D, et al. Presentation and surgical management of duodenal duplication in adults. *Case Rep Surg.* 2015;2015:1-6.
6. Li BL, Haung X, Zheng CJ, Zhou J, Zhao Y. Ileal duplication mimicking intestinal intussusception: a congenital condition rarely reported in adult. *World J Gastroenterol.* 2013;19:6500-4.
7. Hoshi K, Ohta M, Kanemura E, Koganei K, Takahashi M, Kito F, et al. A case of ileal duplication presenting with bloody stools. *J Jpn Soc Proctol.* 2002;55:43-6.
8. Zhang Y, Dong Q, Li SX, Shi B, Bai Y. Clinical and ultrasonographic features of secondary intussusception in children. *Eur Radiol.* 2016;26:4329-38.
9. Puapong D, Lee SL, Radner G, Tsai P, Katz D, Abbas M, et al. Computed tomography findings of unanticipated prolonged ileocolic intussusception in children. *Perm J.* 2008;12:22-4.