

Pseudoquiste meconial gigante con atresia ileal, reporte de caso

Giant meconium pseudocyst with ileal atresia: Case report

Jesús Rodríguez-García¹
Gerardo López-Cruz^{1,2}
Maritza Jenny Hernández¹
José Eldin Molina-Bende¹
Carlos Francisco Pacheco-Barete¹
Judith Luna-Angel¹
Paulina Sofia López-Días¹
Denia Juárez-Mesinas¹
Alejandra Vianey López-Días²
Manuel Bravo-Torres³
Katy Lizeth Reyes-Hernández⁴
Jorge Adrián Chuck-Sepúlveda⁵
Ulises Reyes-Gómez^{2,4}
Noemí Guadalupe Plazola-Camacho⁴
César Eduardo Juárez-Campos⁴

1. Servicio de Pediatría, cirugía pediátrica, ginecología, neonatología y radiología del Hospital General "Dr. Aurelio Valdivieso", Oaxaca.

2. Facultad de Medicina y Cirugía de la Universidad Autónoma Benito Juárez de Oaxaca (UABJO).

3. Unidad de Terapia intensiva pediátrica, Hospital del Niño Oaxaqueño.

4. Unidad de Investigación en Pediatría, Instituto San Rafael (ISR), San Luis Potosí.

5. Depto. de Pediatría, Hospital Ramón, Universidad Autónoma de Guadalajara (UdeG).

Responsable de correspondencia: M. en C. Gerardo López Cruz. Servicio de Pediatría del Hospital Civil "Dr. Aurelio Valdivieso". Dirección: calle Porfirio Díaz, 407, Colonia Reforma, CP 68000, Oaxaca. Celular: (951) 5151422. Correo electrónico: investurgery@hotmail.com

RESUMEN

El pseudoquiste meconial consiste en una porción del intestino dilatada, llena de meconio, las "calcificaciones en cáscara de huevo" son patognomónicas. En el presente trabajo se presenta el caso de femenina, pretérmino, 35 semanas de gestación, peso 3460 gr, perímetro cefálico: 32cm. Perimetro abdominal 41 cm al nacimiento, con abdomen globoso; la radiología mostró masa quística abdominal. En la laparotomía se documentó pseudoquiste meconial gigante y atresia de ileón. Se realizó drenaje del mismo, liberación de las asas intestinales y anastomosis termino-terminal de ileón. Cursó, además, con polimicrogiria, hipertensión pulmonar y comunicación interauricular. Egresó 22 días después por mejoría. El pseudoquiste meconial es un diagnóstico diferencial de lesiones quísticas. Las calcificaciones intraabdominales asociadas a masa

quística pueden corresponder a pseudoquiste meconial. La ausencia de imagen característica en "cáscara de huevo" no descarta pseudoquiste meconial.

Palabras clave: calcificaciones, pseudoquiste meconial, quistes, recién nacido.

Fecha de recepción: 23 de mayo 2022

Fecha de aceptación: 15 de julio 2022

ABSTRACT

The meconium pseudocyst consists of a dilated portion of the intestine, filled with meconium. The "eggshell calcifications" are pathognomonic. Clinical case: 35-weeks-of-gestation female, weight 3460 g, head circumference 32 cm. Abdominal perimeter 41 cm. At birth with a marked abdominal distention, the radiology showed an abdominal cystic mass. At laparotomy, a giant meconium pseudocyst and ileal atresia were documented, it was removed, release of the intestinal loops and end-to-end anastomosis of the ileum were performed. He also had polymicrogyria, pulmonary hypertension and atrial septal defect. She was discharged 22 days later due to improvement. The meconium pseudocyst is a differential diagnosis of cystic lesions. Intra-abdominal calcifications associated with a cystic mass may correspond to a meconium pseudocyst. The absence of a characteristic "eggshell calcifications" image does not rule out a meconium pseudocyst.

Keywords: calcifications, meconium pseudocyst, cysts, newborn.

INTRODUCCIÓN

El pseudoquiste meconial consiste en una porción del intestino dilatada, llena de meconio, que tiene una capa de músculo liso conectando al quiste con el intestino normal.¹ La peritonitis meconial secundaria a perforación intestinal es una complicación temida de la atresia ileal, ya que ésta incrementa la morbimortalidad perinatal.² El pseudoquiste meconial secundario a vólvulo perforado es una causa poco frecuente de masa abdominal.³ La perforación intestinal prenatal tiene diferentes causas, incluyendo: atresia, estenosis, íleo meconial, hernia interna, vólvulos, intususcepción, duplicación o divertículo de Meckel's.⁴

La peritonitis meconial produce inflamación y fibrosis, que se complica con la presencia de pseudoquistes.⁵ Los quistes típicamente calcificados en el borde carecen de una capa epitelial intestinal debido a la inflamación de las enzimas digestivas. Por lo general, una vaina muscular pequeña conecta el quiste con el resto del intestino.⁶ Existen muchos diagnósticos diferenciales para las calcificaciones intraabdominales en el período neonatal, la mayoría de ellas neoplásicas.⁷ Sin embargo, las "calcificaciones en cáscara de huevo" son patognomónicas de los pseudoquistes de meconio. Se cree que estas calcificaciones son causadas por una reacción química de las enzimas pancreáticas dentro del meconio extravasado.⁸

Las neoplasias abdominales fetales diagnosticadas con mayor frecuencia, incluyen teratomas, nefroma mesoblástico congénito, neuroblastoma, hepatoblastoma y lesiones quísticas abdominales.⁹ El objetivo del presente artículo es presentar el caso de un pseudoquiste meconial gigante sin la "calcificación en cáscara de huevo" patognomónicas.

Caso clínico

Recién nacido femenino, pretérmino, 35 semanas de gestación, peso adecuado para su edad gestacional. Dificultad respiratoria restrictiva, secundaria a masa abdominal.

Antecedentes heredofamiliares

Madre de 27 años de edad, residente de San Pedro Pochutla, Oaxaca, ama de casa, escolaridad preparatoria, religión católica, toxicomanías negadas, religión católica, grupo sanguíneo: ORh positivo. Padre de 30 años de edad, originario de San Pedro Pochutla, ocupación taxista, escolaridad secundaria completa, niega toxicomanías, religión católica.

Antecedentes prenatales

Gesta: 1. Cesárea: 0. Partos: 0. Abortos: 0. Producto de la gesta 1, no planeado, deseado, regular control prenatal (8 consultas), refiere infección urinaria en el sexto mes, aplicación de inmunización contra SARS-Cov2, e influenza.

Antecedentes posnatales

Nació por vía abdominal indicada por presentación pélvica y tumoración abdominal, probablemente dependiente de ovario, el día 29.01.22 a las 04:52 horas, líquido amniótico claro, sin esfuerzo respiratorio, se realizaron maniobras correctivas, y se obtuvo adecuado esfuerzo respiratorio, continuó con cuidados de rutina, profilaxis con vitamina A, K y cloranfenicol oftálmico. Somatometría, peso 3,460 gr, talla 45 cm, perímetro cefálico 32 cm, perímetro torácico 30 cm, perímetro abdominal 41



Figura 1. Muestra el abdomen globoso, con cambios de coloración de la piel del abdomen con zonas de equimosis, círculo negro muestra el área que ocupa la masa abdominal.

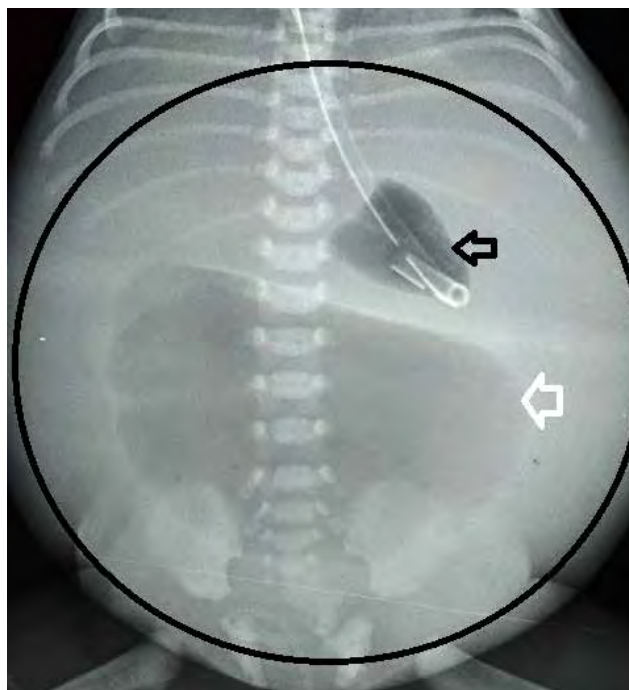


Figura 2. Radiografía simple de abdomen, con importante distensión abdominal (círculo negro), se identifica la cámara gástrica, con la sonda orogástrica en su interior (flecha negra); y otra imagen radiolúcida (flecha blanca), correspondiente a la masa abdominal, que ocupa en su totalidad la cavidad abdominal.

cm, APGAR 5/7, y un Capurro de 35 semanas de gestación. A la exploración física, el abdomen era globoso a expensas de masa abdominal, con cambios de coloración de la piel, zonas de equimosis (figura 1). Radiológicamente con abdomen distendido, (círculo negro), se identificó la cámara gástrica, con la sonda orogástrica

en su interior (flecha negra), y otra imagen radiolúcida (flecha blanca) que corresponde a la masa abdominal, que ocupa en su totalidad la cavidad abdominal (figura 2). A los 10 minutos presentó dificultad respiratoria, probable restrictiva, Silverman Andersen 3, se instaló CPAP, con buena respuesta. A las 24 horas de vida se realizó laparotomía con los siguientes hallazgos: pseudoquiste meconial gigante. Atresia de íleon a 1 cm de la válvula ileocecal. Pseudoquiste meconial, que presenta comunicación con íleon terminal, donde se presentó la zona de atresia. El íleon distal y proximal se encontraban íntegros, sin compromiso, sólo se estaban comprimidos por efecto de masa que ejerce el pseudoquiste

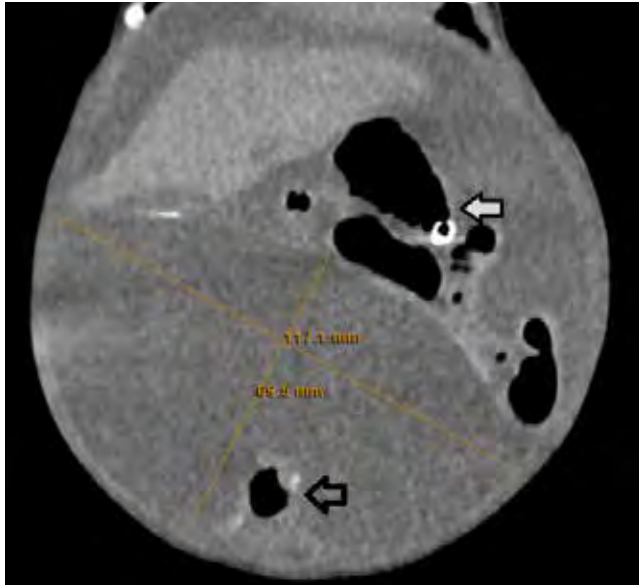


Figura 3. Tomografía de abdomen con pseudoquiste meconial de 117.1 mm por 69.5 mm, la flecha negra indica el sitio donde se comunica el pseudoquiste con el íleon terminal. La flecha blanca identifica el estómago con la sonda orogástrica.

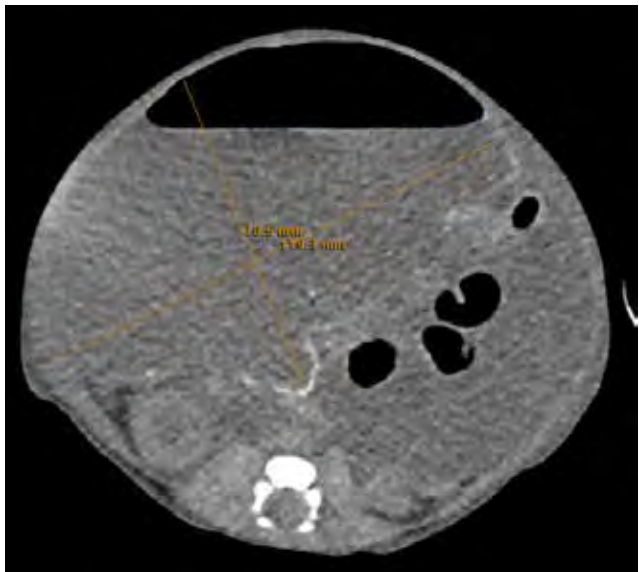


Figura 4. Muestra el pseudoquiste meconial que ocupa la totalidad de la cavidad abdominal y desplaza las asas intestinales hacia la parte posterior del abdomen.



Figura 5. Muestra la reconstrucción tomográfica en SPECT, del pseudoquiste meconial que permite observar una calcificación discontinua (flechas blancas), sin la característica imagen en "cáscara de huevo" del pseudoquiste meconial.

meconial. La tomografía muestra pseudoquiste meconial de 117.1 mm por 69.5 mm (figuras 3, 4 y 5). Se realizó drenaje de pseudoquiste meconial, y anastomosis termino-terminal de íleon sin complicaciones.

Durante su estancia el paciente presentó crisis convulsivas caracterizadas por chupeteo, movimientos mioclónicos de las extremidades. Secundaria a trastorno de migración neuronal (polimicrogiria), documentada por resonancia magnética. Recibió tratamiento con levetiracetam a 50mg/kg y fenobarbital a 5mg/kg. Cardiología pediátrica documentó: hipertensión pulmonar y comunicación interauricular, recibió manejo con diurético y sildenafil.

El esquema inicial de antibiótico fue de ampicilina/cefotaxima por antecedente quirúrgico, sin embargo, por presencia de datos de respuesta inflamatoria sistémica, trombocitopenia, se cambió esquema a meropenem y vancomicina, por 10 días, con buena evolución. Desde el punto de vista quirúrgico, toleraba la vía oral y las evacuaciones eran normales. Egresó a los 22 días de vida sin complicaciones.

DISCUSIÓN

Los quistes abdominales fetales se encuentran con frecuencia en la ecografía prenatal de rutina. Sin embargo, el diagnóstico definitivo, por lo general, es en la vida posnatal, la detección prenatal de un quiste intraabdominal rara vez altera el manejo obstétrico.¹⁰

En el presente caso, el diagnóstico prenatal se realizó a las 35 semanas de gestación. La ecografía, tomografía y la resonancia magnética nuclear, fueron útiles para evaluar las masas abdominales en el recién nacido. La tomografía y la resonancia magnética es útil para eva-

luar las relaciones anatómicas y el contenido interno de estas estructuras quísticas.¹¹ El paciente aquí referido fue diagnosticado de manera prenatal, como quiste de ovario, se realizó radiografía simple de abdomen y estudio tomográfico después del nacimiento. El estudio tomográfico mostró un pseudoquiste meconial gigante de 78.5 mm por 119.3 mm que ocupaba en su totalidad la cavidad abdominal.

Los tumores congénitos son muy raros, la incidencia es de 2-14 por cada 100,000 nacidos vivos.¹² Los teratomas son los tumores congénitos más frecuentes.¹³ Las causas más comunes de quistes grandes incluyen hamartoma mesenquimal, quiste de colédoco, quistes congénitos de bazo, pseudoquiste de páncreas, cistoadenoma, hidronefrosis, displasia renal multiquistica, quiste de mesenterio, duplicación intestinal, pseudoquiste meconial, quistes de ovario, tumores quísticos, quistes de uraco, abscesos apendiculares teratoma abdominal.¹⁴

El pseudoquiste meconial secundario a perforación de íleon y vólvulo es una causa poco frecuente de masa abdominal fetal, que puede presentarse sin las características típicas identificadas en el examen de ultrasonido.¹⁵ La cirugía electiva en las mejores condiciones del paciente es una alternativa actual. El paciente aquí presentado fue intervenido en forma temprana. La laparotomía electiva, con resección del intestino afectado, incluido el pseudoquiste gigante y anastomosis, término terminal debe realizarse en un solo evento quirúrgico. En los recién nacidos estables, en lugar de enterostomías por etapas.¹⁶ En este caso, se realizó drenaje del pseudoquiste y liberación de las asas intestinales, incluidas en la pared del quiste producto de la inflamación secundaria a la peritonitis. Además, de anastomosis término-terminal de íleon sin complicaciones. La perforación intrauterina del intestino fetal provoca una inflamación estéril del peritoneo, conocida como peritonitis meconial. En algunos casos, la perforación se cierra espontáneamente y forma un pseudoquiste de meconio entre las asas intestinales y el epiplón. La peritonitis meconial, complicada con la formación de un pseudoquiste, siempre debe considerarse cuando se observa una masa abdominal fetal.¹⁷ En recién nacidos con pseudoquiste meconial, la radiografía del abdomen a menudo revela un pseudoquiste calcificado, como este caso.¹⁸ El pseudoquiste meconial puede ser confundido inicialmente con teratoma sacrococcígeo en la ecografía, porque éste se puede presentar como una masa quística blanda.¹⁹ En la valoración preoperatoria de los estudios de imagen del paciente, se estableció como probable diagnóstico la presencia de un teratoma. La característica principal de este caso es que no presenta la imagen característica de "cáscara de huevo", en los estudios de imagen realizados.

El pseudoquiste meconial presenta una imagen característica de "cáscara de huevo" en el ultrasonido y la radiografía de abdomen que ayudan a establecer el diagnóstico.²⁰ En el presente caso, las imágenes en "cáscara de huevo" no se observan, la imagen tomográfica con reconstrucción en SPECT, muestra calcificaciones discontinuas (figura 5). El motivo del presente artículo es reportar un pseudoquiste meconial gigantes con calcificación discontinua sin la característica imagen en "cáscara de huevo".

CONCLUSIONES

1. El pseudoquiste meconial gigante es una patología que debe ser documentada como diagnóstico diferencial en las lesiones quísticas del recién nacido.
2. Las calcificaciones intraabdominales asociadas a masa quística pueden corresponder a pseudoquiste meconial.
3. La ausencia de imagen característica en "cáscara de huevo" no descarta el pseudoquiste meconial.

Confidencialidad de los datos: los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes

REFERENCIAS

1. López AM, Solórzano MS, Córdova FM, Frías ME, Rojas MM, Martínez BK, López CC. Anales de Radiología de México. 2017; 16(4): 336-42.
2. Cabrera VC, Gonzales N, Moreno RA, García RA, Madera N. Peritonitis meconial pseudoquistica por atresia intestinal perforada. Reporte de un caso. Rev Per Investig Matern Perinat. 2021; 10(1): 37-40.
3. Valladares E, Rodríguez D, Vela A, Cabré S, Lailla JM. Meconium pseudocyst secondary to ileum volvulus perforation without peritoneal calcification: a case report. J Med Case Rep. 2010, agosto 31; 4: 292. doi: 10.1186/1752-1947-4-292 PMID: 20807399; PMCID: PMC2936322
4. Miyake H, Urushihara N, Fukumoto K, Sugiyama A, Fukuzawa H, Watanabe K, et al. Primary anastomosis for meconium peritonitis: first choice of treatment. J Pediatr Surg. 2011; 46(12), 2327-31.
5. Chan KW, Lee KH, Wong HY, Tsui SY, Wong YS, Pang KY, et al. Cystic meconium peritonitis with jejunoileal atresia: Is it associated with unfavorable outcome? World J Clin Pediatr. 2017; 6(1): 4044.
6. Minato M, Okada T, Miyagi H, Honda S, Takazawa K, Kubota KC, et al. Meconium pseudocyst with particular pathologic findings a case report and review of the literatura. Pediatr Surg. 2012; 47(4): e9-12.

7. Reynolds E, Douglass B, Bleacher J. Meconium peritonitis. *J Perinatol.* 2000; 20(3): 193-5.
8. Sathe M, Houwen R. Meconium ileus in cystic fibrosis. *J Cyst Fibris.* 2017; 16(2): 32-9.
9. Cass DL. Fetal abdominal tumors a and cysts. *Transl Pediatr.* 2021; 10(5): 1530-41.
10. MCEwing R, Hayward C, Furness M. Foetal cystic abdominal masses. *Australas Radiol.* 2003; 47(2): 101-10.
11. Karaosmanoglu AD, Arlas S, Akata D, Ozmen M, Haliloglu M, Oguz B, et. al. Congenital and hereditary cystic diseases of the abdomen. *Insights Imaging.* 2020; 11(1): 90.
12. Peiro JL, Sbragia L, Scorletti F, LimFY. Perinatal management of fetal tumors. *Curr Pediatr Rev.* 2015; 11(3): 151-63.
13. Bruny J, Crombleholme TM. Perinatal management of infant tumors and the promiso of fetal surgery. *Curr Opin Pediatr.* 2013; 25(1): 31-9.
14. Wootton-Gorges SL, Kristen BT, Harned RK, Wu SR, Stein_Wexler R, Strain JD. Gyant cystic abdominal masses in children. *Pediatr Radiol.* 2005; 35(12):1277-88.
15. Valladares E, Rodríguez D, Vela A, Cabré S, María LJ. Meconium pseudocyst secondary to ileum volvulus perforation without peritoneal calcification: a case report. *J Med Case Rep.* 2010; 31(4): 292.
16. Yao-Chou L, Chau-Jing C. Meconium pseudocyst: a classical and successfully treated case. *J FORMOS Med Assoc.* 2009; 108(3): 247-52.
17. Markov D, Jekova N, Ivanov S, Diavolov V, Brankov O. Fetal meconium pseudocyst secondary to in utero perforation of colon transversum and meconium peritonitis. *Akush Ginekol (Sofia).* 2011; 50(1): 46-51. Bulgarian. PMID: 21695944.
18. Lee GS, Chandran S, Rajadurai VS. Calcified meconium pseudocyst: X-ray diagnosis of meconium peritonitis at birth. *BMJ Case Rep.* 2015, julio 7; 2015: bcr2015211052. doi: 10.1136/bcr-2015-211052 PMID: 26153293; PMCID: PMC4499764
19. West DK, Touloukian RJ. Meconium pseudocyst presenting as a buttock mass. *J Pediatr Surg.* 1988, septiembre; 23(9): 864-5. doi: 10.1016/s0022-3468(88)80245-8 PMID: 2846814
20. McGahan JP, Hanson F. Meconium peritonitis with accompanying pseudocyst: prenatal sonographic diagnosis. *Radiology.* 1983, julio; 148(1): 125-6. doi: 10.1148/radiology.148.1.6344135 PMID: 6344135.