



## Follow-up of patients with hypospadias treated at the *Hospital Pediátrico Baca Ortiz* in the last 8 years (2012-2020)

### Descripción de los pacientes con hipospadias tratados en el Hospital Pediátrico Baca Ortiz en los últimos 8 años (2012-2020)

Jenny-Elizabeth Arboleda-Bustán,<sup>1</sup> Mayra Molina,<sup>2</sup> Jorge García-Andrade,<sup>1</sup> Marianita Flores-Núñez,<sup>1</sup> María Vicuña,<sup>1</sup> Abelardo Yépez,<sup>1</sup> Daniel Cuadras.<sup>3</sup>

#### Abstract

**Objective:** To describe the patients operated on for hypospadias at the Baca Ortiz Pediatric Hospital in the last 8 years.

**Method:** It is a descriptive study of 376 cases between January 2012 and January 2020. The demographic data were age, karyotype, personal history, type of hypospadias, type of surgery, and post-surgical complications. We performed descriptive statistical analysis and comparisons between types of hypospadias (SPSSv19), Chi square, cross tables, Wilcoxon.

**Results:** 61 patients met the inclusion criteria, 14.3% of them underwent a karyotype. The age at surgery presents a mean of 4.7 years, with no family history.

In distal hypospadias, the surgical technique varied, with 7.6% of Clavien and Dindo type complications. In proximal hypospadias, which correlates with two-stage surgery (Snodgrass technique) (the type of intervention performed in our institution and which corresponds to 52.4%), there were 37.2% complications, 4.5% of these patients underwent reoperation (cripple). The average number of days of hospitalization was 7.9% and there is no statistically significant difference ( $p=0.6$ ). Of the patients, 98% reported in the 6 items of the penile perception scale a score that indicates satisfaction with the appearance of the penis. 10% underwent uroflowmetry with a normal pattern of Qmax 15ml/s and a bladder echo without residue.

**Conclusions:** Our series shows that hypospadias, depending on its level, is a pathology that frequently causes complications, despite the technique used.

#### Keywords:

Hypospadias, follow-up, urethrocutaneous fistula, urethral stricture

#### Autor de correspondencia:

\*Jenny Elizabeth Arboleda Bustán. Hospital Pediátrico Baca Ortiz, Servicio de Urología Pediátrica. Avenida Seis de Diciembre y Avenida Colón, 170523, Quito, Ecuador. Correo electrónico: elizabethab2011@gmail.com

**Citación:** Arboleda-Bustán J. E., Molina M., García-Andrade J., Flores-Núñez M., Vicuña M., Yépez A., et al. Descripción de los pacientes con hipospadias tratados en el hospital Pediátrico Baca Ortiz en los últimos 8 años (2012-2020). *Rev Mex Urol.* 2023;83(1):pp 1-8

<sup>1</sup> Hospital Pediátrico Baca Ortiz, Quito, Ecuador.

<sup>2</sup> Universidad Central del Ecuador, Quito, Ecuador.

<sup>3</sup> Hospital Sant Joan de Déu, Barcelona, España.

**Recepción:** 28 de noviembre de 2021.

**Aceptación:** 20 de febrero de 2023.



## Resumen

**Objetivo:** Describir a los pacientes operados de hipospadias en el hospital pediátrico Baca Ortiz en los últimos 8 años.

**Método:** Es un estudio descriptivo de 376 casos entre enero de 2012 y enero de 2020. Los datos demográficos fueron edad, cariotipo, antecedentes personales, tipo de hipospadias, tipo de cirugía y complicaciones postquirúrgicas. Realizamos análisis estadístico descriptivo y comparaciones entre tipos de hipospadias (SPSSv19), Chi cuadrado, tablas cruzadas, Wilcoxon.

**Resultados:** 61 pacientes cumplieron los criterios de inclusión, al 14.3%, de ellos se les realizó cariotipo. La edad de la cirugía presenta una media de 4.7 años, sin antecedentes familiares. En hipospadias distales varió la técnica quirúrgica, con 7.6% de complicaciones tipo Claiven y Dindo. En hipospadias proximales, que se correlacionan con la cirugía en dos tiempos (técnica de Snodgrass) (el tipo de intervención que se realiza en nuestra institución y que corresponde al 52.4%), hubo 37.2% de complicaciones, 4.5% de estos pacientes fue reintervenidos (cripple). La media de días de hospitalización fue de 7.9% y no hay diferencia estadísticamente significativa ( $p=0.6$ ). De los pacientes, el 98% refiere en los 6 ítems de la escala de percepción peneana un puntaje que indica satisfacción con la apariencia del pene. Un 10% se realizó uroflujometría con un patrón normal de  $Q_{max}$  15ml/s y un eco vesical sin residuo.

**Conclusiones:** Nuestra serie muestra que las hipospadias, dependiendo de su nivel, son una patología que frecuentemente deja complicaciones, a pesar de la técnica utilizada.

### Palabras clave:

Hipospadias, seguimiento, fistula uretrocutánea, estenosis uretral

## Introducción

El término hipospadias deriva del griego *hypo-*, que significa abajo, y de *spádōn-*, abertura o hendidura; se refiere a una malformación doble, urinaria y genital.

### Embriología

La primera etapa del desarrollo genital independiente de las hormonas consiste en formar una placa uretral en la línea media del tubérculo genital. Esto ocurre durante las semanas 8 y 12

de la gestación, tanto en fetos masculinos como femeninos. Durante la segunda etapa, entre las semanas 11 y 16 de gestación, el tubérculo genital se alarga bajo la influencia de los andrógenos testiculares fetales.

La placa uretral se prolonga en una ranura hacia la punta del falo. La fusión de los pliegues labioescrotales en la línea media forma el escroto, y la fusión de los pliegues uretrales adyacentes a la placa uretral crea la uretra peneana. Finalmente, el glande del pene y el prepucio se cierran en la línea media.<sup>(1)</sup>

### Epidemiología

La prevalencia en Europa es de aproximadamente 18.6 por 10 000 nacimientos;<sup>(2)</sup> en Estados Unidos es de 34 por 10 000; en Asia es menor, llegando a ser de 0.6-69 por 10 000, y en Ecuador es de 11.1%, clasificado con malformaciones del sistema urinario (INEC). La prevalencia y las tendencias mundiales siguen siendo difíciles de estimar.<sup>(3)</sup>

### Etiología

Se evidencia una influencia multifactorial, como predisposición genética, variables materno-placentarias, ambientales.

*Predisposición genética:* en el 7% de las hipospadias hay afectación en familiares de primer grado. La posibilidad de que un hermano salga perjudicado es de 9-17%. Heredabilidad estimada de 57-77%.<sup>(4)</sup>

En las hipospadias se han descrito más de 200 síndromes, como WARG (tumor de Wilms, aniridia, malformaciones genitourinarias y retraso mental), síndrome de Denys-Drash (malformaciones urinarias y susceptibilidad al tumor de Wilms).<sup>(5)</sup>

#### *Influencia materna y otras posibles influencias*

La menor edad gestacional predispone, al igual que en gemelos monocoriónicos.<sup>(5,6)</sup> Además, las hipospadias graves se asocian a hipertensión materna, oligohidramnios y parto prematuro, lo que sugiere que la insuficiencia placentaria subyacente puede ser un factor importante, posiblemente mediante una inadecuada provisión de gonadotropina coriónica humana (GCh) al feto.<sup>(5,7)</sup>

Algunos estudios encontraron un riesgo hasta cinco veces mayor de hipospadias en

recién nacidos masculinos concebidos por fertilización in vitro con inyección intracitoplasmática (FIV/ICSI).<sup>(8)</sup>

#### *Influencia de hormonas y ambientales*

La mayoría de las hipospadias ocurre como una condición aislada, pero las anomalías asociadas incluyen criptorquidia unilateral y bilateral y micropene.<sup>(9)</sup> La aparición de estas comorbilidades sugiere una deficiencia de las influencias hormonales durante la embriogénesis. Los andrógenos y los estrógenos desempeñan un papel crítico en el desarrollo genital, y en el caso de desequilibrio se pueden ver diferentes entidades dentro del espectro de anomalías congénitas del pene, como hipospadias, micropene y trastornos del desarrollo sexual.<sup>(9)</sup> Un hallazgo clínico que apoya esta teoría es la distancia anogenital reducida en los niños con hipospadias como resultado de la alteración de la exposición a los andrógenos prenatales otro síndrome como la disgenesia testicular.<sup>(9)</sup>

Otros mencionan los disruptores endocrinos ambientales en el desarrollo de hipospadias.<sup>(10)</sup>

### Evaluación diagnóstica

El hipospadias se define generalmente como la combinación de tres anomalías anatómicas del pene, una apertura ventral del orificio uretral, una curvatura ventral del pene y una distribución anormal del prepucio alrededor del glande con un prepucio encapuchado ventral deficiente.<sup>(11)</sup>

Las variaciones son las llamadas hipospadias sin hipospadias y el megameato con prepucio intacto (MPI). La primera se caracteriza por una curva ventral del pene y una posición normal del meato con un prepucio

distorsionado. En el segundo encontramos un meato coronal adyacente a un glande no cerrado con una fosa navicular abierta a lo ancho y un prepucio circular con desarrollo anormal.<sup>(7,12)</sup>

### *Evaluación endocrinológica*

En el caso de testículos no descendidos unilaterales o bilaterales concomitantes, debemos tomar en cuenta los trastornos del desarrollo sexual.<sup>(13)</sup>

### *Ultrasonido y endoscopia*

Las hipospadias proximales y complejas requieren evaluaciones diagnósticas como la ecografía del tracto urinario y de los órganos genitales internos para detectar otras malformaciones nefrourológicas.<sup>(13)</sup> Un remanente mülleriano se observa en el 11-14% de todas las hipospadias y hasta el 50% de las hipospadias perineales que se complementa con la endoscopia (uretrocistoscopia).<sup>(13)</sup>

### *Tratamiento*

El tratamiento actualmente se prescribe entre los 6 y los 18 meses. Su objetivo es lograr la normalidad tanto funcional como cosmética. Los parámetros biométricos del pene como el ancho del glande y una placa uretral estrecha son algunos de los factores asociados con complicaciones postoperatorias.<sup>(13)</sup>

Cuando hay un micropene que esté por debajo del percentil 3 se prescribe testosterona, sin embargo, según el estudio realizado por Wright, el uso de la misma ha disminuido.<sup>(14)</sup>

En la literatura se describen más de 300 técnicas para la corrección de hipospadias por diferentes autores, que han evolucionado desde colgajos no vascularizados a vascularizados. Nuevamente, las tendencias se inclinan a la corrección con colgajos no vascularizados, como la técnica tubularizada descrita por Thiersh y Duplay (1869-1874), posteriormente modificada por Snodgrass (1994) TIP, con algunas variaciones realizadas por el mismo autor. Al momento, se indica la corrección de tres tiempos en hipospadias con curvatura mayor a 30 grados: STAG, STAC.<sup>(15)</sup>

De acuerdo con algunos estudios, los mejores resultados se obtienen de las hipospadias distales, con una tasa de complicaciones del 5-10%, mientras que las proximales enfrentan un porcentaje de 15-50%.<sup>(16)</sup> Las complicaciones postoperatorias pueden identificarse de manera temprana en los primeros meses de la cirugía, pero también de manera tardía, e incluyen fístula uretrocutánea, estenosis del meato, estrechez de la uretra, dehiscencia del glande, formación de divertículos de la uretra, alteraciones cosméticas y recurrencia de la curvatura, vello en la uretra, disfunción eréctil y balanitis xerótica obstructiva.<sup>(17)</sup>

### *Resultados a largo plazo*

El resultado funcional se evalúa principalmente por uroflojometría y medición residual postmiccional. Según describe la literatura, en general, el resultado estético se considera satisfactorio en más del 70% de los casos después de la reparación de las hipospadias.<sup>(14)</sup> El 50% de los pacientes operados de hipospadias proximales está insatisfecho con la apariencia de su pene.<sup>(15)</sup>

Para evaluar el resultado estético, algunos autores utilizan con mayor frecuencia la Escala de Percepción Peneana (PPPS en inglés), el Sistema de Escala Objetivo de Hipospadias (HOSE en inglés), el Inventario de Calidad de Vida Pediátrico (PedsQI en inglés), y la puntuación de la Evaluación Peneana Objetiva de Hipospadias (HOPE en inglés) [24, 49, 51, 52].

## Materiales y método

Es un estudio descriptivo entre enero de 2012 y enero de 2020. Los criterios de inclusión fueron los pacientes operados en este periodo en la institución con edades de 0-15 años, con carpetas archivadas y que tengan los documentos completos de la historia. Como criterios de exclusión se consideraron historiales médicos no encontrados o faltantes o que no correspondieran. En los casos que se cumplieron los criterios de inclusión se recolectaron los siguientes datos demográficos: edad, cariotipo, antecedentes personales, tipo de hipospadias, tipo de cirugía, complicaciones postquirúrgicas. En cuanto al seguimiento, se aplicó la escala de percepción peneana a los pacientes, flujometría (tipo de curva), ecografía (existencia de residuo postmiccional). Realizamos análisis estadístico descriptivo y comparaciones entre tipos de hipospadias (SPSSv19), Chi cuadrado, tablas cruzadas, Wilcoxon.

## Resultados

Se encontraron en la base de datos 340 pacientes, de los cuales 61 cumplieron los criterios de inclusión (14.3%), a ellos se les analizó el cariotipo. La edad de la cirugía presenta una media de 4.7 años, no tenían antecedentes familiares. En hipospadias distales varió la técnica quirúrgica, y las complicaciones tipo Claiven y Dindo encontradas fueron n:1 (7.6%) tipo estenosis uretral. La comparación de las complicaciones se describe en la tabla 1 y los valores de Chi cuadrado en la tabla 2.

**Tabla 1. Comparación de complicaciones en hipospadias**

Complicacion * Tipocir Crosstabulation						
			Tipocir			Total
			TIP	Onlay	Snodgrass dos tiempos	
→ Complicacion	fístula	Count	1	1	10	12
		col % of Tipocir	100,0%	50,0%	66,7%	66,7%
	estenosis	Count	0	1	5	6
		col % of Tipocir	,0%	50,0%	33,3%	33,3%
Total		Count	1	2	15	18
		col % of Tipocir	100,0%	100,0%	100,0%	100,0%

Tabla 2. Prueba de Chi cuadrado

Chi-Square Tests			
	Valor	gl	Asymptotic Significance
Chi-cuadrado de Pearson	,750 <sup>a</sup>	2	,687
Likelihood Ratio	1,046	2	,593
Linear-by-Linear Association	,092	1	,761
N of Valid Cases	18		

a. 4 cells (66,7%) expf < 5. Min exp = ,33...

En hipospadias proximales, el tipo de cirugía que se aplicó en nuestra institución fue en dos tiempos (Snodgrass), la cual corresponde al 52.4%, con complicaciones del n:18 (37.2%), de las cuales n:12 (23%) fueron fístulas y n:6 (11,4%) estenosis; no hay diferencia estadísticamente significativa (p=0.6). Hay que mencionar que n:2 pacientes fueron reintervenidos (cripple) en otras instituciones por otros cirujanos.

Con respecto a los días de hospitalización, la media fue de 7.9%. El 98% de los pacientes refiere en los 6 ítems de la escala de percepción peneana un puntaje que indica satisfacción con la apariencia del pene. En el 10 % se realizó uroflujometría, la cual tuvo un patrón normal con Qmax 15ml/s., y una ecografía vesical sin residuo.

## Discusión

La edad de la cirugía en las series de Kambori fue de los 12 a los 43 meses, en el metanálisis<sup>(14)</sup> la edad promedio fue 18 meses, nuestra serie

tiene un rango etario de 1 a 15 años. El cariotipo se realizó a los pacientes con hipospadias proximales para género masculino 46XY.

Comparando con otros tipos de cirugía reconstructiva, este procedimiento quirúrgico presenta una alta tasa de complicaciones. La incidencia estimada varía del 6 al 49%, según la gravedad de las hipospadias, para otros representa el 52%,<sup>(16)</sup> mientras que según nuestro estudio, en las hipospadias proximales es del 37.2% y en las distales del 7.6%. El metanálisis<sup>(14)</sup> reporta una tasa de complicaciones donde se comparan las primarias y la reoperación, siendo más altas las reintervenciones, con el 13.6% de los TIP.<sup>(17)</sup> El estudio realizado por Kambori y colaboradores nos muestra la comparación de tres técnicas, Snodgrass, Mathieu y TIP, en la corrección de la hipospadias distales, en donde se evidencia mayor cantidad de complicaciones tipo estenosis con la técnica Snodgrass con un total de 7.26%. Por su parte, en las hipospadias proximales, si se comparan las técnicas TIP, Onlay y Snodgrass, la que muestra más complicaciones es la Onlay con un total de 36%. La comparación a largo plazo

de corrección quirúrgica con flaps pediculados versus la corrección tipo Snodgrass muestra que tienen mejor resultado los primeros.<sup>(18)</sup> Si confrontamos estos datos con nuestra serie podemos ver que los pacientes con hipospadia proximal fueron reintervenidos en algunas ocasiones con una tasa de complicaciones del 37.2%.

## Conclusiones

Nuestra serie muestra que la hipospadias es una patología frecuente que presenta complicaciones dependiendo de su nivel, a pesar de la técnica utilizada.

Es necesario que las técnicas empleadas para corregir las hipospadias se adapten a cada paciente.

Nuestro estudio sienta las bases para continuar analizando y así poder determinar mejor los factores de riesgo de nuestra población de desarrollar las complicaciones antes mencionadas, que si bien están dentro de los estándares internacionales, son altas.

## Referencias

1. Andersson M, Doroszkiewicz M, Arfwidsson C, Abrahamsson K, Sillén U, Holmdahl G. Normalized Urinary Flow at Puberty after Tubularized Incised Plate Urethroplasty for Hypospadias in Childhood. *Journal of Urology*. 2015;194(5): 1407–1413. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2015.06.072>.
2. Bergman JEH, Loane M, Vrijheid M, Pierini A, Nijman RJM, Addor MC, et al. Epidemiology of hypospadias in Europe: a registry-based study. *World Journal of Urology*. 2015;33(12): 2159–2167. <https://doi.org/10.1007/s00345-015-1507-6>.
3. Springer A, van den Heijkant M, Baumann S. Worldwide prevalence of hypospadias. *Journal of Pediatric Urology*. 2016;12(3): 152.e1-152.e7. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2015.12.002>.
4. van der Zanden LFM, van Rooij I a. LM, Feitz WFJ, Franke B, Knoers NV a. M, Roeleveld N. Aetiology of hypospadias: a systematic review of genes and environment. *Human Reproduction Update*. 2012;18(3): 260–283. <https://doi.org/10.1093/humupd/dms002>.
5. Blaschko SD, Cunha GR, Baskin LS. Molecular mechanisms of external genitalia development. *Differentiation; Research in Biological Diversity*. 2012;84(3): 261–268. <https://doi.org/10.1016/j.diff.2012.06.003>.
6. Gatti J m., Kirsch A j., Troyer W a., Perez-Brayfield M r., Smith E a., Scherz H c. Increased incidence of hypospadias in small-for-gestational age infants in a neonatal intensive-care unit. *BJU International*. 2001;87(6): 548–550. <https://doi.org/10.1046/j.1464-410X.2001.00088.x>.
7. Huisma F, Thomas M, Armstrong L. Severe hypospadias and its association with maternal-placental factors. *American Journal of Medical Genetics. Part A*. 2013;161A(9): 2183–2187. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.36050>.
8. Stewart LM, Holman CDJ, Finn JC, Preen DB, Hart R. In vitro fertilization is associated with an increased risk of borderline ovarian tumours. *Gynecologic Oncology*. 2013;129(2): 372–376. <https://doi.org/10.1016/j.ygyno.2013.01.027>.
9. Hsieh MH, Breyer BN, Eisenberg ML, Baskin LS. Associations among hypospadias, cryptorchidism, anogenital distance, and endocrine disruption. *Current Urology Reports*. 2008;9(2): 137–142. <https://doi.org/10.1007/s11934-008-0025-0>.

10. van Rooij IALM, van der Zanden LFM, Brouwers MM, Knoers NVAM, Feitz WFJ, Roeleveld N. Risk factors for different phenotypes of hypospadias: results from a Dutch case-control study. *BJU international*. 2013;112(1): 121–128. <https://doi.org/10.1111/j.1464-410X.2012.11745.x>.
11. Uda A, Kojima Y, Hayashi Y, Mizuno K, Asai N, Kohri K. Morphological features of external genitalia in hypospadiac rat model: 3-dimensional analysis. *The Journal of Urology*. 2004;171(3): 1362–1366. <https://doi.org/10.1097/01.ju.0000100140.42618.54>.
12. Montag S, Palmer LS. Abnormalities of Penile Curvature: Chordee and Penile Torsion. *The Scientific World Journal*. 2011;11: 1470–1478. <https://doi.org/10.1100/tsw.2011.136>.
13. Manzoni G, Bracka A, Palminteri E, Marrocco G. Hypospadias surgery: when, what and by whom? *BJU international*. 2004;94(8): 1188–1195. <https://doi.org/10.1046/j.1464-410x.2004.05128.x>.
14. Wright I, Cole E, Farrokhyar F, Pemberton J, Lorenzo AJ, Braga LH. Effect of preoperative hormonal stimulation on postoperative complication rates after proximal hypospadias repair: A systematic review. *Journal of Urology*. 2013;190(2): 652–660. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2013.02.3234>.
15. Thiry S, Saussez T, Dormeus S, Tombal B, Wese FX, Feyaerts A. Long-Term Functional, Cosmetic and Sexual Outcomes of Hypospadias Correction Performed in Childhood. *Urologia Internationalis*. 2015;95(2): 137–141. <https://doi.org/10.1159/000430500>.
16. González-Maldonado AA, Manzo-Pérez G, Vanzini-Guerrero MA, Manzo-Pérez BO, Lozada-Hernández EE, Sánchez-López HM, et al. Tratamiento quirúrgico del hipospadias. Experiencia de 10 años. *Revista Mexicana de Urología*. 2018;78(4): 263–272. <https://doi.org/10.24245/revmexurol.v78i4.2129>.
17. Pfistermuller KLM, McArdle AJ, Cuckow PM. Meta-analysis of complication rates of the tubularized incised plate (TIP) repair. *Journal of Pediatric Urology*. 2015;11(2): 54–59. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2014.12.006>.
18. Kambouri K, Aggelidou M, Deftereos S, Tsalikidis C, Chloropoulou P, Botaitis S, et al. Comparison of Two Tubularized Incised Plate Urethroplasty Techniques in Hypospadias Reconstructive Surgery. *World Journal of Plastic Surgery*. 2020;9(3): 254–258. <https://doi.org/10.29252/wjps.9.3.254>.