

Bolsa colónica congénita. Reporte de un caso inusual

P. Gallegos Torres¹, T. Argüello Gordillo², V. Ferrer Gracia³, M. Salazar Porras⁴

¹Residente de Cirugía General y Laparoscópica. Pontificia Universidad Católica del Ecuador. ²Residente de Endocrinología. Hospital General Universitario de Alicante. Alicante. ³Residente de Medicina Familiar y Comunitaria. Hospital Vall d'Hebrón. Barcelona. ⁴Cirujano Pediátrico. Hospital Baca Ortiz. Quito, Ecuador.

RESUMEN

Introducción. La bolsa colónica congénita (BCC) es una malformación poco común en la que se produce una dilatación variable del colon asociada a malformación anorrectal (MAR); generalmente presenta una fístula hacia el tracto genitourinario.

Caso clínico. Paciente femenino de 2 días de vida, sin antecedentes médicos de relevancia, presenta distensión abdominal y ano imperforado. Es sometida a colostomía, presenta evolución irregular con débitos altos a través de la colostomía, se realizan estudios contrastados de imagen donde se observa exteriorización errónea de asa de yeyuno, se somete a laparotomía exploratoria donde se comprueba lo descrito y además se reporta como hallazgo incidental agenesia colónica con desembocadura del íleon en una bolsa de 6 cm de diámetro que se conecta con la vejiga.

Discusión. La BCC es una patología común en ciertos países orientales y extremadamente rara en países occidentales; en Ecuador no se encontraron registros de casos reportados. Se debe realizar un correcto análisis prequirúrgico de los pacientes con MAR para conseguir una adecuada planificación y abordaje quirúrgico, disminuyendo con ello la morbimortalidad en el paciente.

PALABRAS CLAVE: Bolsa colónica congénita; Malformación anorrectal; Dilatación segmentaria del colon.

CONGENITAL POUCH COLON: AN UNUSUAL CASE REPORT

ABSTRACT

Introduction. Congenital pouch colon (CPC) is a rare malformation. It causes variable dilatation of the colon associated with anorectal malformation (ARM), usually presenting a fistula towards the genitourinary tract.

Clinical case. 2-day-old female patient, with no relevant medical history. She had abdominal distension and imperforate anus. She un-

derwent colostomy. She had an irregular evolution with high colostomy debits. Contrast imaging studies were performed, which demonstrated an erroneous exteriorization of the jejunal loop. She underwent an exploratory open surgery, which confirmed the previous diagnosis and incidentally found colonic agenesia, with ileum entering in a pouch of 6 cm of diameter that connects with the bladder.

Discussion. CPC is a common pathology in certain eastern countries and extremely rare in western countries. In Ecuador, no records of reported cases were found. A correct pre-surgical analysis of ARM patients should be carried out to achieve an adequate planning and surgical approach, thus reducing morbidity and mortality.

KEY WORDS: Congenital pouch colon; Anorectal malformation; Segmental dilatation of the colon.

INTRODUCCIÓN

La BCC es una malformación poco común en la que se produce una dilatación variable del colon, el cual a su vez se encuentra acortado y se asocia a MAR; generalmente presenta una fístula hacia el tracto genitourinario, aunque a veces puede acabar en un saco ciego⁽¹⁻⁵⁾. La BCC es más común en ciertos países orientales; estudios indican que del total de casos reportados a nivel mundial el 92,2% provienen de la India⁽⁵⁾. En cuanto al género, diversos estudios encuentran una relación masculino:femenino de 2,5:1⁽⁵⁻⁹⁾. La BCC se incluye dentro de las variantes raras según la clasificación de MAR de Krickenbeck⁽⁶⁾. Narasimharao et al.⁽¹⁾ en 1984 clasificaron la BCC en cuatro subtipos (I-IV) dependiendo de la longitud del colon normal proximal a la bolsa colónica (Fig. 1), siendo de mayor severidad los tipos I y II. La clasificación de la IAPS de 2007 menciona un subtipo V donde se incluyen todas las variedades de BCC más raras⁽¹⁰⁾.

Dentro de esta clasificación, la BCC tipo IV es la presentación más común de esta patología⁽¹¹⁾. Se cree que la incidencia de la BCC en países occidentales es más alta de lo reportado debido a que a los casos de BCC tipo IV se los etiqueta de manera errónea como ectasia rectal, megasigma o megarrecto⁽⁵⁾.

La presentación clínica difiere según el género: en los hombres recién nacidos se presenta con ano imperforado,

Correspondencia: Dr. Pablo Gallegos Torres. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Baca Ortiz. Av. 6 de diciembre, s/n y Av. Cristóbal Colón. Quito, Ecuador.

E-mail: pablodavid89@hotmail.com

Trabajo presentado en el XIV Congreso Ecuatoriano de Cirugía Pediátrica. Quito, Ecuador. Noviembre 2018. Ganador del primer lugar en la presentación de póster.

Recibido: Septiembre 2019

Aceptado: Abril 2020

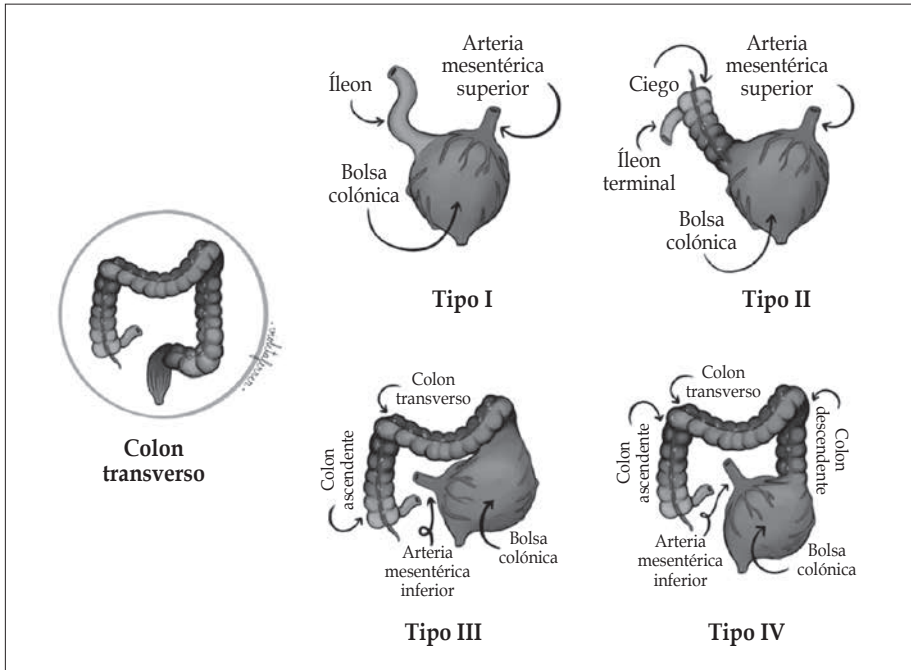


Figura 1. Clasificación de bolsa colónica congénita.

distensión abdominal, fecaluria en el 50% de los pacientes. La distensión abdominal puede ser menos evidente en los tipos más leves (III y IV). En los recién nacidos hay una alta incidencia de perforación de la BCC cuando esta presenta paredes delgadas, desencadenando neumoperitoneo, peritonitis y sepsis^(1,2,4,12).

En las mujeres, la mayoría de casos se presentan con distensión abdominal, pudiendo también presentar estreñimiento con episodios de enterocolitis e incontinencia urinaria⁽¹²⁻¹⁵⁾. Podremos realizar el diagnóstico basándonos en la exploración de los genitales externos⁽¹³⁻¹⁵⁾; en casos de duda, puede colocarse contraste a través de la fístula vestibular, si esta existiese^(3,11).

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 2 días de vida, nacida a término, sin antecedentes prenatales a destacar, presenta distensión abdominal y ano imperforado, por lo que es sometida a colostomía; posteriormente es referida a hospital pediátrico para manejo de colostomía con débitos altos. No se describen otros hallazgos en el protocolo quirúrgico ni se cuenta con los estudios de imagen previos.

Se realiza tránsito intestinal donde se observa que la ostomía estaba realizada a nivel de yeyuno en lugar de colon, por lo que se programa laparotomía, exploratoria donde se encuentra yeyunostomía y de manera incidental agenesia colónica con desembocadura del íleon en una bolsa de 6 cm de diámetro que se conecta con la vejiga, hallazgos compatibles con bolsa colónica congénita tipo I. Se procede según algoritmos realizando anastomosis término terminal para cierre de

yeyunostomía, ileostomía a doble cabo a 18 cm de la bolsa colónica descrita (Fig. 2), para posteriormente planificar colorrafia tubular, reparación de fístula colovesical, anorrectoplastia sagital posterior y restitución de tránsito intestinal.

DISCUSIÓN

En los estudios de imagen (radiografía simple de abdomen con rayo anteroposterior) los pacientes con BCC tipo I y II presentaron como característica una sombra de gas o nivel hidroaéreo en el lado izquierdo que llega a ocupar el 50% de la cavidad con asas del intestino delgado desplazadas hacia la derecha^(1,2,12). En la proyección lateral o decúbito prono se podrá apreciar presencia de gas dentro de la vejiga en caso de que se presente con fístula colovesical. En la mayoría de casos, el diagnóstico es posible solo con radiografías abdominales⁽¹⁶⁾. Si existe perforación de la BCC, observaremos neumoperitoneo en lugar de la imagen antes descrita.

En los casos de BCC tipo III y IV se observarán imágenes similares a las descritas, pero con menor flujo de aire debido a su menor severidad. El asa dilatada de la BCC tipo IV tendrá una posición distinta por su mayor movilidad, por lo cual puede ser difícil diferenciarla de la dilatación rectosigmoide terminal⁽¹⁶⁾.

El presente caso tuvo como objetivo dar a conocer nuestra experiencia con una patología poco frecuente, de la cual no se encuentran casos reportados en el país. La presentación clínica de este paciente fue como una MAR con ano imperforado y distensión abdominal al nacimiento; los estudios de imagen previos a la cirugía no permitieron diagnosticar la patología,

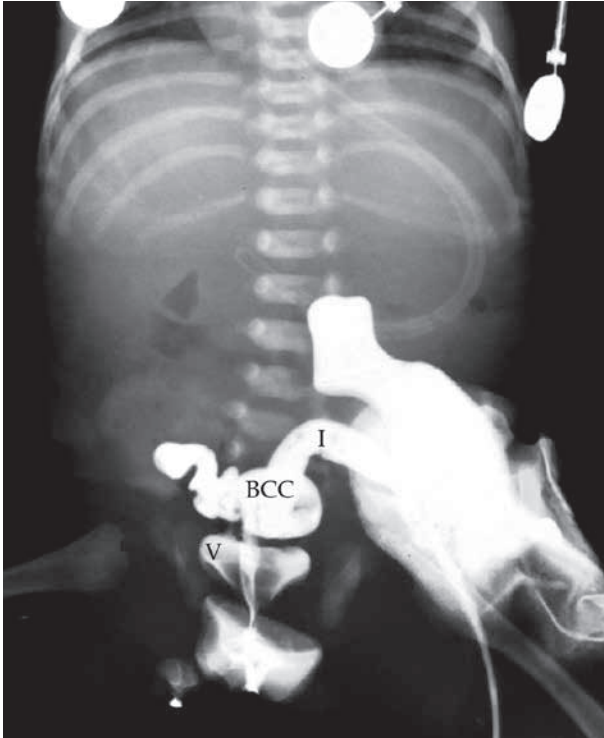


Figura 2. Estudio de imagen posquirúrgico con contraste a través de ileostomía (I). Se observa bolsa colónica congénita tipo I (BCC) con fistula hacia vejiga (V).

por lo que se intenta realizar colostomía de manera fallida y se transfiere a hospital especializado para manejo del caso. Se realizan nuevos estudios de imagen y laparotomía exploratoria, donde se encuentran de manera incidental los hallazgos descritos compatibles con bolsa colónica congénita tipo I.

La bolsa colónica congénita es una patología extremadamente rara, y más aún en nuestro país; se debe realizar un correcto análisis prequirúrgico de los pacientes con MAR para lograr una correcta planificación y abordaje quirúrgico. Con ello se busca obtener resultados óptimos con el menor número de intervenciones en el paciente, disminuyendo así la morbimortalidad.

BIBLIOGRAFÍA

1. Narasimharao KL, Yadav K, Mitra SK, Pathak IC. Congenital short colon with imperforate anus (pouch colon syndrome). *Ann Pediatr Surg.* 1984; 1: 159-67.
2. Wakhlu AK, Wakhlu A, Pandey A, Agarwal R, Tandon RK, Kureel SN. Congenital short colon. *World J Surg.* 1996; 20: 107-14.
3. Chadha R, Bagga D, Mahajan JK, Gupta S. Congenital pouch colon revisited. *J Pediatr Surg.* 1998; 33: 1510-5.
4. Chadha R. Congenital pouch colon associated with anorectal agenesis. *Pediatr Surg Int.* 2004; 20: 393-401.
5. Chadha R, Khan N. Congenital Pouch Colon. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2017; 22(2): 69-78.
6. Gupta DK. Anorectal malformations - Wingspread to Krickbeck. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2005; 10: 75-7.
7. Ghritlaharey RK, Budhwani KS, Shrivastava DK, Gupta G, Kushwaha AS, Chanchlani R, et al. Experience with 40 cases of congenital pouch colon. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2007; 12: 13-6.
8. Chadra SV, Shekhar AC, Koirala R, Khaniya S, Poudel P, Adhikary S. A report of rare congenital malformation in a Nepalese child with congenital pouch colon: a case report. *Cases J.* 2009; 2: 6424.
9. Donkol RH, Kumar JN, Al Mazkary MJ. Congenital pouch colon syndrome in a Saudi Arabian neonate. *J Pediatr Surg.* 2008; 43: E9-E11.
10. Bhatnagar V, Sarin YK, Chadha R, Wakhlu A. Proceedings of Consensus Meeting on Management of Congenital Pouch colon under Aegis of IAPS, New Delhi, India. 2007 Mar 12.
11. Rao KL, Menon P. Congenital pouch colon associated with anorectal agenesis (pouch colon syndrome). *Pediatr Surg Int.* 2005; 21: 125-6.
12. Chadha R, Bagga D, Malhotra CJ, Mohta A, Dhar A, Kumar A. The embryology and management of congenital pouch colon associated with anorectal agenesis. *J Pediatr Surg.* 1994; 29: 439-46.
13. Mirza B, Ahmad S, Sheikh A. Congenital pouch colon: A preliminary report from Pakistan. *J Neonatal Surg.* 2012; 1: 37.
14. Chadha R, Choudhury SR, Pant N, Jain V, Puri A, Acharya H, et al. The anomalous clinical anatomy of congenital pouch colon in girls. *J Pediatr Surg.* 2011; 46: 1593-602.
15. Chadha R, Khan NA, Shah S, Pant N, Gupta A, Choudhury SR, et al. Congenital pouch colon in girls: Genitourinary abnormalities and their management. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2015; 20: 105-15.
16. Mathur P, Saxena AK, Bajaj M, Chandra T, Sharma NC, Simlot A, et al. Role of plain abdominal radiographs in predicting type of congenital pouch colon. *Pediatr Radiol.* 2010; 40: 1603-8.