

# Duplicación cólica tubular total en un neonato con sangrado rectal: valor de la endoscopia en el diagnóstico y tratamiento\*

M.J. Guirao Piñera<sup>1</sup>, J.M. Sánchez Morote<sup>1</sup>, J.P. Hernández Bermejo<sup>1</sup>, O. Girón Vallejo<sup>1</sup>, F. Alberca<sup>2</sup>,  
S. Chacón Ruiz<sup>2</sup>, J.L. Roqués Serradilla<sup>1</sup>, G.A. Zambudio Carmona<sup>1</sup>, M.A. Gutiérrez Cantó<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Servicio de Cirugía Pediátrica. <sup>2</sup>Servicio de MI Digestivo. Sección de Endoscopias.  
Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca. Murcia.

**RESUMEN:** La duplicación intestinal es una malformación congénita rara y dentro de ésta, la duplicación cólica y tubular (DC) es la más infrecuente. En neonatos existen pocos casos descritos. Es difícil hacer un diagnóstico antes de la cirugía y no existe un tratamiento quirúrgico estándar. Presentamos el caso de un neonato con rectorragia que presentó una duplicación cólica total requiriendo múltiples pruebas complementarias antes del diagnóstico que fue hecho por colonoscopia. En la laparotomía se encontró una duplicación tubular de colon ascendente, transverso y descendente con comunicación proximal y distal. Debido a la extensión de la duplicación se realizó exclusión del segmento duplicado, pero posteriormente, ante cuadro suboclusivo por estenosis de la luz distal del colon sano se realizó sección parcial del tabique común por colonoscopia. Destacamos que, aunque infrecuente, es necesario considerar la DC en el diagnóstico diferencial de rectorragias en el niño y la importancia de la endoscopia como diagnóstico y tratamiento de esta malformación.

**PALABRAS CLAVE:** Duplicación cólica; Endoscopia; Sangrado gastrointestinal.

## TOTAL TUBULAR COLONIC DUPLICATION IN A NEONATE WITH RECTAL BLEEDING: VALUE OF THE ENDOSCOPY IN THE DIAGNOSE AND TREATMENT

**ABSTRACT:** Gastrointestinal duplication is an infrequent congenital abnormality. Colonic and tubular duplications are the least common. In neonates there are few described cases. It's difficult to identify the duplication preoperatively and a standard surgical approach has not been developed. We report a neonate with bleeding of the digestive tube who presented a colonic duplication who required multiple diagnostic test before the diagnosis was made for colonoscopy. Laparotomy showed a total tubular duplication of the right, transverse and left colon with proximal and distal communication. Exclusion of the duplicated segment was performed, but three months after the operation, subocclusion due to stenosis of the colonic distal loop was developed. This finding was con-

firmed by a second colonoscopy and septum was partially removed. The study implies that CD, though uncommon, should be included in the differential diagnosis of rectal bleeding and the importance of the colonoscopy in the diagnosis and treatment of this malformation.

**KEY WORDS:** Colonic duplication; Duplication; Gastrointestinal bleeding.

## INTRODUCCIÓN

Las duplicaciones gastrointestinales son anomalías congénitas con muy baja incidencia. De éstas, la localización a nivel de colon es de las menos comunes (5-6%)<sup>(1)</sup>. Las formas tubulares son extremadamente infrecuentes<sup>(1-6)</sup> sobre todo las completas. Clínicamente puede cursar de forma asintomática siendo descubierta de forma casual en una laparotomía, aunque en el 80% de los casos presenta algún síntoma antes de los dos primeros años de vida como abdomen agudo por perforación o sangrado masivo<sup>(6-11)</sup>. No obstante, en neonatos se describen muy pocos casos tanto de perforación como de sangrado<sup>(4)</sup>. Su diagnóstico antes de la cirugía entraña mucha dificultad<sup>(3)</sup>. Presentamos un caso de duplicación cólica tubular total en un neonato, interesante no sólo por las características de su presentación tan infrecuentes sino por el diagnóstico y posterior tratamiento efectuado por colonoscopia.

## CASO CLÍNICO

Recién nacido hombre a término sin antecedentes personales o familiares de interés que no precisó ingreso al nacimiento presentando buena tolerancia oral y deposiciones normales. Ingresó a los 9 días de vida por cuadro de vómitos, rechazo del alimento y deposiciones líquidas frecuentes con empeoramiento clínico progresivo y signos de shock. A la exploración física presentó regular estado general, con coloración pálida de piel y mucosas, con sensación de enfermedad y deshidratación. Tras mantenerle a dieta absoluta durante 15 días con nutrición pa-

**Correspondencia:** María José Guirao Piñera. C/ Rosalía de Castro 163 Urb. El mirador de Agridulce. 30107 Guadalupe, Murcia.  
Email: mjs\_gpínera@hotmail.com

\*Este trabajo ha sido parcialmente presentado en el XLV congreso de la SECP, Murcia.

Recibido: Mayo 2006

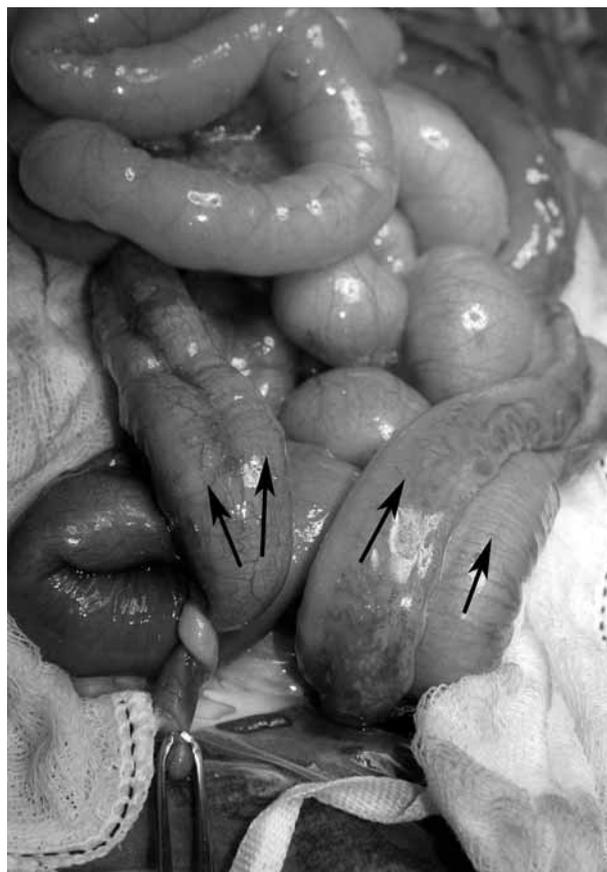
Aceptado: Octubre 2006



**Figura 1.** Colonoscopia: Se observa las 2 luces en el colon que se unen a 15 cms del margen anal.

renteral y medidas de soporte persistió la diarrea con deposiciones de 7-11/ día. Se realizó, entre otros, estudio de heces con coprocultivo que fue negativo y biopsia yeyunal peroral sin hallar atrofia vellositaria congénita. El día 17 de ingreso comenzó con rectorragias progresivamente más frecuentes por lo que se realizó gammagrafía con Tc-99 sin encontrar captaciones patológicas y ante la persistencia de rectorragia se programó colonoscopia en la que se vió duplicación tubular cólica total desde ciego hasta recto-sigma (a 20 cms del margen anal) con comunicación a nivel proximal y distal, estando todo el tabique íntegro. Una de las luces cólicas presentaba mucosa friable con múltiples ulceraciones especialmente en la zona distal de la duplicación (Fig. 1). Posteriormente se realizó enema opaco que confirmó el diagnóstico. Se realizaron estudios del sistema urinario (CUMS, pielografía y ecografía) que descartó otras malformaciones asociadas y sólo se halló espina bífida oculta en D7 como hallazgo asociado. Se intervino quirúrgicamente a los 37 días de vida hallando duplicación cólica total desde ciego hasta recto-sigma, un divertículo de Meckel y un bazo accesorio (Figs. 2,3 y 4). Se resecó el íleon terminal hasta ciego incluyendo el divertículo. Dada la morfología y longitud de la zona duplicada y el buen drenaje de ambas luces se intentó ser lo más conservador posible por lo que se realizó cierre del extremo duplicado (para excluirlo del contacto con las heces y así evitar la rectorragia) y anastomosis del íleon a la luz cólica sana. El postoperatorio transcurrió sin complicaciones cesando las deposiciones diarreicas y la rectorragia y presentando buena tolerancia oral. Se realizó colonoscopia de control en la que no se apreciaron lesiones siendo alta a domicilio.

A los 3 meses de la intervención ingresó de nuevo en el hospital por cuadro suboclusivo con estreñimiento y distensión abdominal. En la radiografía de abdomen se encontró distensión de asas y colon que impresionaba de obstrucción baja y se realizó enema opaco en el que se veía paso de contraste hasta recto-sigma, con escaso paso a colon izquierdo en el inicio de la zona de la duplicación que podría corresponder con una estenosis. Se efectuó colonoscopia en la que



**Figura 2.** Laparotomía: Las flechas indican el colon derecho e izquierdo duplicado.



**Figura 3.** Colon duplicado y divertículo de Meckel.

se confirmó la estenosis en la boca de drenaje de uno de los segmentos duplicados (el sano, que no está excluido y por el que tenía tránsito) que producía subobstrucción por acúmulo



**Figura 4.** Sección a nivel de ciego. Se observa 2 sondas que canalizan las dos luces cólicas y otra a nivel de fleon terminal donde no existe duplicación.

lo de heces en la zona pre-estenótica del colon, por lo que se decidió realizar vía endoscópica ampliación de la boca de drenaje mediante sección con un asa de diatermia de unos centímetros del tabique situado entre ambas luces del colon. El paciente mejoró de su cuadro suboclusivo siendo alta, y en revisiones posteriores permaneció asintomático con una colonoscopia de control en la que se objetivó buen drenaje de ambas luces y ausencia de lesiones ulcerosas.

## COMENTARIOS

Las duplicaciones del tracto gastrointestinal, y especialmente, las localizadas a nivel cólico son bastante raras. Las formas quísticas son las más frecuentes pero se ha descrito pocos casos en la literatura de duplicación tubular, sobre todo que afecte a la totalidad del colon. En cuanto a la anatomía patológica es frecuente la presencia de mucosa gastrointestinal que puede ser diferente o no de la del colon sano, generalmente, es mucosa gástrica ectópica<sup>(6,12)</sup>. Existen casos descritos de adenocarcinomas desarrollados tanto en la zona de duplicación como en la parte de intestino adyacente en ambas formas de presentación anatómica<sup>(13-17)</sup>.

Las formas tubulares se asocian en un 60-80% a otras anomalías, genitourinarias, lo más frecuente, pero también vertebrales (espina bífida) o intestinales (malrotación u otras duplicaciones)<sup>(3,18)</sup>. No presentan una clínica clara, por lo que su diagnóstico es a veces complicado. Generalmente debutan con rectorragia u obstrucción intestinal. Para su diagnóstico es frecuente que se realicen múltiples pruebas siendo en ocasiones todas normales. La ecografía y la TAC pueden aportar bastante información sobre todo en formas quísticas. La gammagrafía con Tc99 se utiliza para detectar mucosa gástrica ectópica pero tiene falsos positivos si existe inflamación intestinal y se han descrito hasta un 15% de falsos negativos<sup>(10,19)</sup>. La endoscopia digestiva es muy útil, sobre todo si existe clínica de sangrado, y puede servir también como tratamiento sobre todo para drenaje interno de duplicaciones quísticas<sup>(20-23)</sup>. La endoscopia digestiva es muy útil para el diagnóstico de las formas quísticas comunicantes y especialmente para las tubulares. Debido a la variabilidad de presentación clínica, a la diversa morfología y extensión de las duplicaciones, no existe un tratamiento quirúrgico estándar<sup>(5)</sup>. Se ha descrito resección completa ( para las formas quísticas y pequeñas), drenaje interno, mucosectomía o sección del septo común<sup>(3,6,9,24,25)</sup>. En nuestro caso, al no existir mucosa gástrica ectópica y debido a la longitud de colon afectado optamos por un tratamiento más conservador excluyendo la luz duplicada del paso de heces, aunque en un segundo tiempo necesitamos ampliar la boca de drenaje del colon en la zona distal de la duplicación mediante sección del tabique por colonoscopia. Por tanto, la endoscopia digestiva se perfila no sólo como una buena herramienta diagnóstica sino también terapéutica.

Debido a la baja incidencia de esta malformación, especialmente las formas tubulares cólicas totales, se hace necesario comunicar la experiencia de cada centro para intentar con ello hacer diagnósticos más precisos y ofertar el mejor tratamiento quirúrgico posible.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Correia-Pinto J, Romero R, Carvalho JL, Silva G, Guimaraes H, Estevao-Costa J. Neonatal perforation of a Y-shaped sigmoid duplication. *J Pediatr Surg* 2001;**36**:1422-1424.
2. Puligandla PS, Nguyen LT, St-Vil D, Flageole H, Bensoussan AL, Nguyen VH, et al. Gastrointestinal duplications. *J Pediatr Surg* 2003;**38**:740-4.
3. Al-Shanafey S, Martin HC, Bottger S. Colonic duplication: diagnostic dilemma. *Eur J Pediatr Surg* 2006;**16**:58-60.
4. Piolat C, N'die J, Andrini P, Althuser M, Jouk PS, Jacquier C, Dyon JF. Perforated tubular duplication of the transverse colon: a rare cause of meconium peritonitis with prenatal diagnosis. *Pediatr Surg Int* 2005;**21**:110-2. Epub 2005.
5. Sarpel U, Le MN, Morotti RA, Dolgin SE. Complete colorectal duplication. *J AM Coll Surg* 2005;**200**:304-5.
6. Fotiadis C, Genetzakis M, Papandreou I, Misiakos EP, Agapitos E, Zoógrafos GC. Colonia duplications in adults: Report of two ca-

ses presenting with rectal bleeding. *World J Gastroenterol* 2005;**11**:5072-5074.

7. Wardell S, Vidican DE. Ileal duplication cyst causing massive bleeding in a child. *J Clin Gastroenterol* 1990;**12**:681-684.
8. Tanabe ID, DiTomaso A, Pinkas H, Pencev D. Massive GI hemorrhage from an ileal duplication cyst in an adult. *Am J Gastroenterol* 1995;**90**:504-505.
9. Soares-Oliveira M, Castañón M, Carvalho JL, Ribo JM, Bello P, Estevas-Costa J, Morales L. Duplicaciones intestinales. Análisis de 18 casos. *An Esp Pediatr* 2002;**56**:430-433.
10. Castro-Castaneda S, Chavez-Delgado ME, Cerda-Camacho F. Severe hemorrhage intestinal in a child with ileal duplication and brief entity review. *Cir Pediatr* 2005;**18**:142-7.
11. Fechner G, Franke I, Willinek WA, Muller SC. Perforating colonic duplication as rare cause of renal abscess in children. *Urology* 2005;**66**:881.
12. O'Neil J, Rowe M. Duplications of the gastrointestinal tract. *Essentials of Pediatric Surgery*. St Louis Mo Mosby Yearbook 1995;520-525.
13. Delladetsima J, Papachristodoulou A, Zografos G. Carcinoma arising in a duplicated colon. *Am Surg* 1992;**58**:782-783.
14. Hattori H. Adenocarcinoma occurring just at the attached site of colonic duplication in an adult man. *Digestive Diseases and Sciences* 2005;**50**:1754.
15. Shivnami AT, Small W Jr, Benson A 3rd, Rao S, Talamonti MS. Adenocarcinoma arising in rectal duplication cyst: case report and review of the literature. *Am Surg* 2004;**70**:1007-9.
16. Kusunoki N, Shimada Y, Fukumoto S, Iwatani Y, Ohsima T, Arahi E, Miyazaki N, Maeda S. Adenocarcinoma arising in a tubular duplication of the jejunum. *J Gastroenterol* 2003;**38**:781-5.
17. Jain S, Lobo DN, Clelland CA, Williams CB. Carcinoid tumour in a caecal duplication cyst. *Dig Surg* 2001;**17**:281-3.
18. Yousefzadeh DK, Bickers GH, Jackson JH Jr Benton C. Tubular colonic duplication-review of 1876-1981 literature. *Pediatr Radiol* 1983;**13**:65-71.
19. Kumar R, Tripathi M, Chandrashekar N, Agarwala S, Kumar A, Dasn JB, Malhotra A. Diagnosis of ectopic gastric mucosa using <sup>99</sup>Tc-pertechnetate: spectrum of scintigraphic findings. *Br J Radiol* 2005;**78**:714-20.
20. Coth E, Lillienau J, Ekelund M, Alumets J, Olsson R, Thorlacius H. Ulcerated small-intestine duplication cyst: an unusual source of GI bleeding revealed by wireless capsule endoscopy. *Gastrointest Endosc* 2006;**63**:192-4.
21. Hill U, Meyer F, Bosseckert H. Successful endoscopic treatment of an esophageal duplication cyst. *Sacnd J Gastroenterol* 2005;**40**:995-9.
22. Larrosa-Haro A, Coello-Ramirez P. Usefulness of endoscopy in the differential diagnosis of hemorrhage of the upper digestive tract in children. *Bol Med Hosp Infant Mex* 1992;**49**:743-9.
23. Stecevic V, Karim R, Jacobs R. Gastric duplication cyst treated by endoscopic electrosurgical snare resection. *Gastrointest Endosc* 2003;**57**:615-6.
24. Itália I, Modelli M, Rodrigues C. Duplicação de cólon: relato de caso e revisão da literatura. *J Pediatr* 1996;**72**:254-257.
25. Stringer MD, Spitz L, Abel R, Kiely E, Drake DP, Agrawal M, Stara Y, Brereton RJ. Management of alimentary tract duplication in children. *Br J Surg* 1995;**82**:74-78.