



Pediatría

http://www.revistapediatria.org/
DOI: https:// 10.14295/rp.v54i2.168



Reportes de caso

Quiste de duplicación esofágica en un paciente pediátrico.

Oskar Andrey Oliveros Andrade^a, María Paula Peña Pedraza^b, Freddy Arturo Orozco García^c, Carlos Alberto Melo^d

Residente de tercer año de pediatría, Universidad Libre de Cali – Colombia.

b. Médica Interna, Universidad Pontificia Javeriana de Cali – Colombia.

c. Cirujano Pediatra de la Fundación Clínica Infantil Club Noel de Cali. Docente del posgrado de Pediatría de la Universidad Libre de Cali – Colombia.

d. Cirujano Pediatra de la Fundación Clínica Infantil Club Noel de Cali. Docente de posgrado de cirugía laparoscópica pediátrica de la Universidad Pontificia Javeriana de Cali.

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 06 noviembre 2019

Aceptado el 20 agosto 2021

Palabras clave:

Adolescente

Enfermedades del Esófago

Quiste esofágico

Pediatría

Congénito

R E S U M E N

Antecedentes: los quistes de duplicación esofágica son de baja incidencia en pediatría. La disfagia es la principal manifestación clínica. Pueden ser asociados a otras malformaciones. El diagnóstico debe reunir características imagenológicas y debe ser confirmado con hallazgos histopatológicos. El tratamiento en casos sintomáticos es quirúrgico para evitar complicaciones. El objetivo de este reporte de caso es sensibilizar al lector sobre un diagnóstico que debe ser tenido en cuenta en el estudio de disfagia, para realizar su diagnóstico temprano y tratamiento oportuno evitando complicaciones. **Reporte de caso:** paciente de 11 años con disfagia de 2 años de evolución, sin otras malformaciones, síntomas asociados o antecedentes de relevancia. Se realizó endoscopia de vías digestivas altas identificando lesión que comprime de forma extrínseca el esófago en su parte distal. Se le realizó resección completa por videotoracoscopia y se confirmó sospecha diagnóstica de quiste de duplicación esofágica por hallazgos histopatológicos. Egreso sin complicaciones. **Conclusiones:** los quistes de duplicación esofágica del tercio inferior del esófago por lo general son asintomáticos, sin embargo, en algunas ocasiones pueden causar síntomas inespecíficos. Deben sospecharse dentro de los diagnósticos diferenciales de pacientes con disfagia, estudiarse con diagnósticos imagenológicos y confirmándose con hallazgos histopatológicos. La resección quirúrgica es el tratamiento de elección.

Esophageal duplication cyst in a pediatric patient.

A B S T R A C T

Background: Esophageal duplication cysts are of low incidence in pediatrics. Dysphagia is the primary clinical manifestation. They can be associated with other malformations. The diagnosis must meet imaging characteristics and must be confirmed with histopathological findings. The treatment in symptomatic cases is surgical to avoid complications. The objective of this case report is to sensitize the reader about a diagnosis that should be considered in the study of dysphagia, to make its early diagnosis and timely treatment avoiding complications. **Case report:** 11-year-old patient with a 2-year history of dysphagia, without other malformations, associated symptoms, or relevant antecedents. An upper digestive tract endoscopy was

Keywords:

Adolescent

Esophageal disease

Esophageal cysts

Pediatrics

Congenital

*Autor para correspondencia. Oskar Oliveros

Correo electrónico: oskaroliveros@hotmail.com

performed, identifying a lesion that extrinsically compresses the esophagus in its distal part. Complete resection was performed by video thoracoscopy, and histopathological findings confirmed the suspected diagnosis of an esophageal duplication cyst. Egress without complications. **Conclusions:** Esophageal duplication cysts of the lower third of the esophagus are generally asymptomatic; however, they can cause nonspecific symptoms on some occasions. They should be suspected within the differential diagnoses of patients with dysphagia, studied with imaging diagnoses, and confirmed with histopathological findings. Surgical resection is the treatment of choice.

Introducción

Los quistes de duplicación esofágica son anomalías benignas del desarrollo embrionario del intestino anterior, que se presentan entre la quinta y octava semana de gestación (1,2). Son infrecuentes, con incidencia reportada de 1 por cada 8 000 nacidos vivos (1). Son más frecuentes en hombres y se localizan principalmente en la pared derecha del tercio distal del esófago (3). Pueden ser de dos tipos, con o sin comunicación con la luz esofágica. El 80 % no se comunican con la luz esofágica (1). La etiología es desconocida, por lo que se han postulado varias teorías, la más aceptada es una anomalía en la recanalización luminal (2).

Los quistes pueden causar síntomas por compresión de estructuras adyacentes, con mayor frecuencia en la infancia, siendo la disfagia la principal, pero también dolor epigástrico, dolor retroesternal, tos, estridor y sibilancias (1). La aparición de ellos por encima de los 2 años es rara (4). Los casos asintomáticos pueden ser diagnosticados de forma incidental. Se han descrito complicaciones como transformación maligna (5,6), infección, hemorragia, rotura espontánea o compresión de otras estructuras (1). Se han reportado otras malformaciones congénitas asociadas a algunos casos como duplicación de intestino delgado, atresia esofágica distal a la duplicación, fístula traqueo-esofágica, escoliosis, hemivértebra, alteraciones de la unión espinal (1,7,8). Para el estudio de esta patología los estudios imagenológicos como la tomografía axial computarizada y la resonancia magnética son la elección (8). El diagnóstico definitivo es anatomopatológico (2). El tratamiento varía, considerando manejo expectante o quirúrgico con el fin de evitar complicaciones, para los asintomáticos y resección completa o fenestración esofágica para los casos sintomáticos (1,3).

Reporte de caso

Paciente femenina de once años con cuadro clínico de dos años y medio de evolución consistente en disfagia progresiva a sólidos y dolor en cuello, con examen físico normal, sin pérdida de peso, sin antecedentes patológicos, quirúrgicos ni hospitalizaciones previas. En su estudio de disfagia, se descartó trastorno de deglución. En la primera endoscopia de vías digestivas altas (EVDA) se evidenció, a 27 centímetros de la arcada dental superior, una lesión de aspecto quístico de 2 centímetros de diámetro cubierto por músculo esofágico de aspecto normal, con mucosa íntegra. Por problemas administrativos se pierde el seguimiento de la paciente. Al cabo de 2

años se realiza una segunda EVDA donde se observó masa en esófago a 35 cm. de la arcada dental superior, cubierta de mucosa rosada, sugiriendo compresión extrínseca no pulsátil (Figura 1).

Por hallazgos semejantes a la endoscopia previa, persistencia de los síntomas y riesgo de perder nuevamente su seguimiento, es hospitalizada para continuar estudios. La radiografía de tórax fue normal, la Tomografía Axial Computarizada (TAC) de tórax con contraste evidenció una imagen redondeada hipodensa de bordes definidos, que realza con el contraste. La lesión de aproximadamente 20 por 20 milímetros, parecía comprimir el esófago a nivel del mediastino posterior, adyacente al tercio inferior del esófago. El ecocardiograma transtóraco descartó malformaciones cardíacas o vasculares. Los estudios de hemograma, fosfatasa alcalina, deshidrogenasa láctica fueron normales. Se complementó el estudio con Resonancia Nuclear Magnética (RNM) de tórax que muestra lesión quística hiperintensa en T2 de 32 milímetros, de aspecto benigno, en contacto con la pared derecha del esófago en el extremo distal, (Figura 2).

Teniendo en cuenta clínica de paciente y hallazgos imagenológicos se consideró sospecha diagnóstica de quiste de duplicación esofágica por lo cual fue llevada a videotoroscopia, a través de la cual se identificó masa quística adherida a pared esofágica inferior, la cual fue resecada de forma completa sin lesionar estructuras adyacentes (Figura 3). El diagnóstico fue confirmado con los hallazgos reportados por patología y después de 2 días de recuperación intrahospitalario fue dada de egreso sin complicaciones y con resolución de los síntomas.

Discusión

Los quistes de duplicación esofágica tienen baja incidencia en edades pediátricas (1,2). El inicio de los síntomas es raro en mayores de 2 años, sin embargo, en el presente caso iniciaron hacia los 9 años, siendo la disfagia el motivo de consulta y el síntoma más frecuente descrito en la literatura (1,2). No presentaba otras malformaciones anatómicas en el momento del diagnóstico.

La localización principal de los quistes de duplicación esofágica son la porción media y distal, siendo más rara en la proximal. En el caso descrito, la localización fue distal, siendo una de las más frecuentemente descritas (9).

Dentro del estudio de esta malformación, los hallazgos de la endoscopia de vías digestivas incluyen, protuberancia luminal asociada con una mucosa normal suprayacente sin irregu-

laridades (1). En la TAC se describe una masa de densidad homogénea similar al agua, sin cambios después de la inyección de material de contraste intravenoso (10). En la RNM se evidencian lesiones de baja intensidad en secuencias T1 y muy alta intensidad en T2 (11). Todos estos hallazgos fueron consistentes con lo descrito en el presente caso. La TAC permite la localización del quiste en dos planos, pero no distingue entre lesiones quísticas y sólidas, siendo superior en este sentido la RNM, que permite la localización en tres planos y distingue el contenido de la lesión (3). En la literatura se reporta que la ultrasonografía transesofágica puede ser utilizada, pero no es de uso rutinario (12,13).

La confirmación diagnóstica debe ser realizada con histopatología, en la que se describe que el quiste debe estar en contacto con la pared del esófago, envuelto por dos capas musculares lisas y su epitelio de revestimiento debe estar constituido por el epitelio de alguno de los niveles del tracto gastrointestinal, ya sea escamoso, columnar, pseudoestratificado o ciliado (3). Estos hallazgos fueron documentados en el caso reportado con lo que se pudo realizar la confirmación diagnóstica.

El tratamiento para los casos asintomáticos es controversial, algunos autores proponen el manejo expectante sustentando que la transformación maligna no tiene una evidencia clara y se deben evitar posibles complicaciones de un abordaje quirúrgico. Otros sugieren con el fin de evitar complicaciones de la enfermedad, realización de procedimiento quirúrgico. Para los quistes sintomáticos se sugiere la resección quirúrgica completa, procedimiento llevado a cabo en la descripción del caso, sin presentar complicaciones secundarias y pudiéndose dar egreso sin secuelas (1,3).

Conclusiones

Los quistes de duplicación esofágica del tercio inferior del esófago por lo general son asintomáticos, sin embargo, en algunas ocasiones pueden causar síntomas inespecíficos. Deben sospecharse dentro de los diagnósticos diferenciales de pacientes con disfagia, estudiarse con diagnósticos imagenológicos y confirmarse con hallazgos histopatológicos. La resección quirúrgica es el tratamiento de elección y de realizarse a tiempo, puede evitar secuelas.

Agradecimientos

Agradecemos al Comité de Ética de la Fundación Clínica Infantil Club Noel por aprobar la realización de este reporte de caso y a los padres de la paciente por permitir la publicación de este caso y enriquecer la literatura médica.

Conflicto de intereses

Ninguno de los autores declara conflicto de intereses.

REFERENCIAS

1. Santander D. Manejo endoscópico de quiste de duplicación esofágica: descripción de un caso A case of endoscopic management of an esophageal duplication cyst. *Rev Colomb Gastroenterol*. 2018; 33(2):180-184.
2. Nebot CS, Salvador RL, Palacios EC, Aliaga SP. Enteric duplication cysts in children: varied presentations, varied imaging findings. *Insights Imaging* (2018) 9:1097-1106.
3. Rico-morales MM, Ferrer-márquez M, Belda-lozano R, Yagüe-martín E, Rubio-gil MFF. Quiste por duplicación esofágica como causa inusual de disfagia en el adulto. 2007;82(6):361-3.
4. Harvell JD, Macho JR, Klein HZ. Isolated intra-abdominal esophageal cyst. Case report and review of the literature. *Am J Surg Pathol*. 1996;20(4):476-479.
5. McGregor DH, Mills G, Boudet RA. Intramural squamous cell carcinoma of the esophagus. *Cancer*. 1976;37(3):1556-61. 5.
6. Singh S, Lal P, Sikora SS, Datta NR. Squamous cell carcinoma arising from a congenital duplication cyst of the esophagus in a young adult. *Dis Esophagus*. 2001;14(3-4):258-61.
7. Okur MH, Arslan MS, Arslan S, et al. Gastrointestinal tract duplications in children. *EurRevMedPharmacol*. 2014; 18:1507-1512.
8. Razo R Del, Gómez A, Salcedo M, Velásquez R. Quiste de duplicación esofágica. Informe de un caso y revisión de la literatura. 2010;31(3):108-14.
9. Long C, Bai Y. Case Report A cervicothoracic esophageal duplication cyst in an infant and review of literature. 2016;9(1):341-4.
10. Macpherson RI. Gastrointestinal tract duplications: clinical, pathologic, etiologic, and radiologic considerations. *Radiographics*. 1993;13:1063-8.
11. Ribet ME, Copin MC. Bronchogenic cysts of the lung. *Ann Thorac Surg*. 1996;61:1636-40.
12. Anupindi SA, Halverson M, Khwaja A, Jeckovic M, Wang X, Bellah RD. Common and uncommon applications of bowel ultrasound with pathologic correlation in children. *AJR Am J Roentol*. 2014; 202:946-959 27.
13. Liu R, Adler D. Duplication cysts: diagnosis, management, and the role of endoscopic ultrasound. *Endosc Ultrasound*. 2014; 3:152-16.

Figura 1. Hallazgos macroscópicos de compresión extrínseca de paredes esofágicas en tercio distal evidenciadas en la endoscopia de vías digestivas altas.

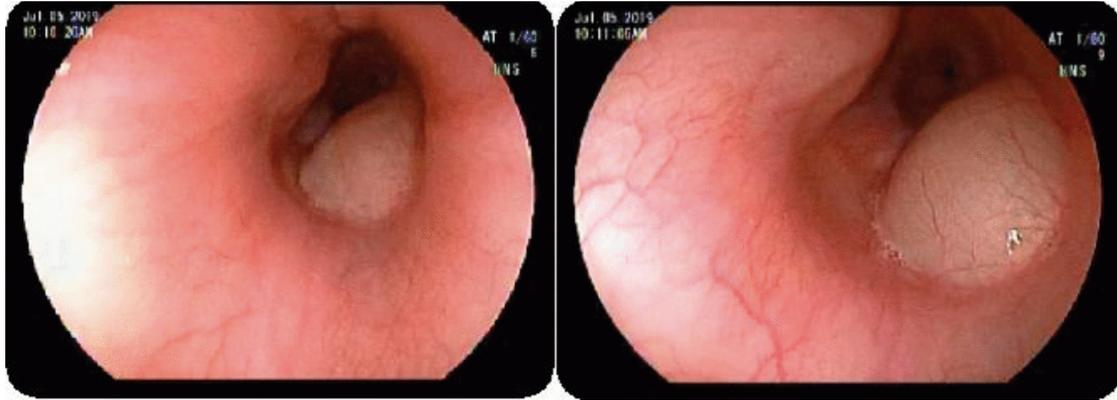


Figura 2. Lesión quística hiperintensa en T2 (Flechas blancas) evidenciada en Resonancia magnética nuclear de tórax.

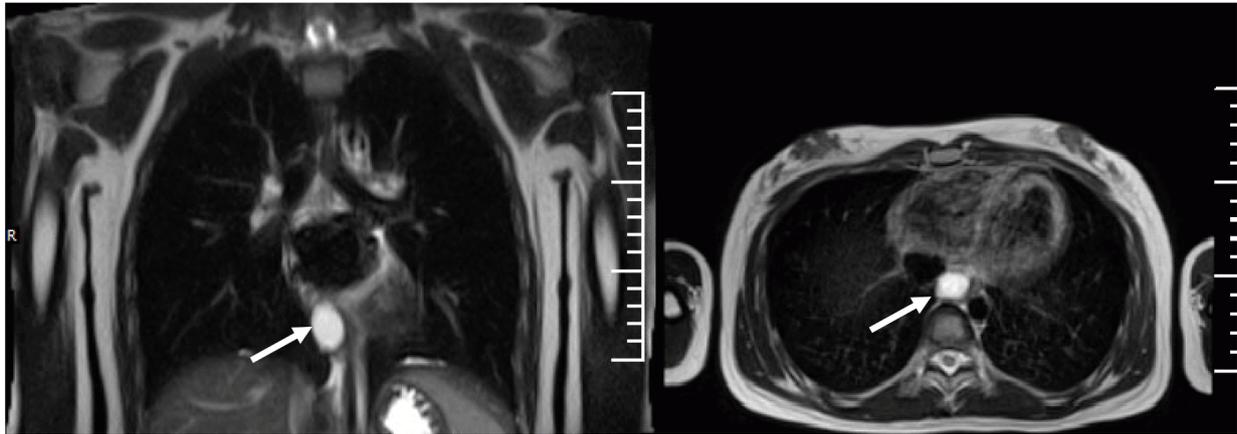


Figura 3. Visualización de quiste de duplicación esofágica durante la videotoracoscopia. Pieza anatomopatológica macroscópica una vez resecada.

