

Manejo toracoscópico en estenosis esofágica congénita secundaria a remanente traqueobronquial, en población pediátrica

R. Walter¹, M. Moreno², M. Pedraza³, L. Cabrera³, B. Aparicio²

¹Departamento Cirugía Pediátrica. Hospital infantil San Vicente Fundación. Medellín, Colombia.

²Departamento de Medicina, ³Departamento Cirugía General. Universidad El Bosque. Bogotá, Colombia.

RESUMEN

Introducción. La estenosis congénita de esófago es una patología extremadamente rara en niños, con una incidencia de 1/25.000-50.000 nacimientos. Según la clasificación histopatológica se encuentran tres tipos: hiperplasia fibromuscular, diafragma membranoso y remanentes traqueobronquiales.

Caso clínico. Se presenta un caso clínico de un paciente masculino de 39 meses con diagnóstico de estenosis congénita del esófago secundario a remanentes traqueobronquiales, que presentó múltiples episodios de vómito y reflujo desde los 4 meses del nacimiento. Ingresó en el Servicio de Urgencias por presentar signos de dificultad respiratoria, realizándosele estudios iniciales de endoscopia de vías digestivas altas y esofagograma. Se practicó resección de estenosis y anastomosis esofágica toracoscópica.

Conclusiones. Los remanentes traqueobronquiales son la segunda causa de presentación de la estenosis esofágica congénita. El manejo de esta patología puede ser de dos formas, ya sea por medio de dilataciones o quirúrgico, y la elección de una u otra va a depender de su etiología.

PALABRAS CLAVE: Estenosis congénita del esófago, toracoscopia, histología, tratamiento.

THORACOSCOPIC MANAGEMENT OF CONGENITAL ESOPHAGEAL STENOSIS SECONDARY TO TRACHEOBRONCHIAL REMNANT IN PEDIATRIC PATIENTS

ABSTRACT

Introduction. Congenital esophageal stenosis (CES) is an extremely rare pathology in children, with an incidence of 1/25,000-50,000 live births. According to its histopathological classification, there are three types of CES: fibromuscular hyperplasia, membranous diaphragm, and tracheobronchial remnants.

Clinical case. We present the clinical case of a 39-month-old male patient diagnosed with CES secondary to tracheobronchial remnants, with multiple vomit and reflux episodes since he was 4 months old. He was admitted at the emergency department with respiratory distress. An upper

GI endoscopy and an esophagogram were initially carried out. Stenosis resection and thoracoscopic esophageal anastomosis were performed.

Conclusions. Tracheobronchial remnants are the second most common presentation of congenital esophageal stenosis. They can be managed through dilatations or surgery according to etiology.

KEY WORDS: Congenital esophageal stenosis; Thoracoscopy; Histology; Treatment.

INTRODUCCIÓN

La estenosis esofágica congénita (EEC) es una patología infrecuente a nivel mundial con una incidencia de 1/25.000 y 1/50.000 nacidos vivos, que aunque no se ha demostrado que exista predilección por un sexo u otro, se ha expuesto en algunos estudios que es más frecuente en el sexo masculino y sobre la raza blanca⁽¹⁻⁴⁾.

La EEC se ha dividido en tres grupos según los hallazgos histológicos en: hiperplasia fibromuscular (HF), siendo los más comunes con una presentación del 54%; remanentes traqueobronquiales (RT) con un 30% y diafragma membranoso (DM) con un 16%^(2,5). El tratamiento se basa en un manejo conservador mediante dilataciones neumáticas endoscópicas o quirúrgico^(3,6).

Según la literatura, la elección de una técnica quirúrgica u otra va a depender de su clasificación^(1,3). Por lo que nos permitimos mostrar nuestra experiencia en el manejo con cirugía mínimamente invasiva de un paciente lactante con diagnóstico de EEC secundario a remanentes traqueobronquiales.

REPORTE DE CASO

Paciente masculino de 39 meses de edad, que ingresó en el Hospital infantil San Vicente Fundación, en la ciudad de Medellín-Colombia. Remitido de Chocó por cuadro clínico de 4 días de evolución de dificultad respiratoria asociado a

Correspondencia: Dr. Mauricio Pedraza. Carrera 72#181-55. Bogotá DC, Colombia.

E-mail: mpedraza93@gmail.com

Recibido: Febrero 2020

Aceptado: Octubre 2020

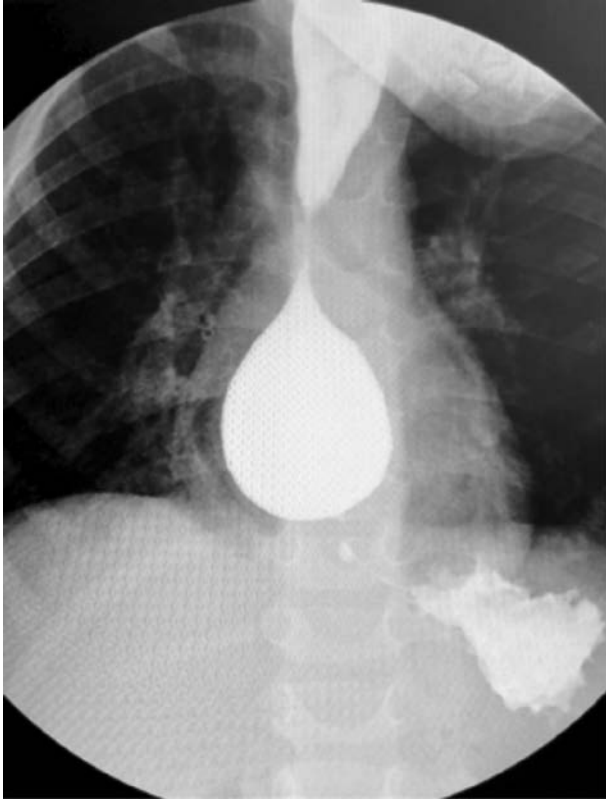


Figura 1. Esofagograma: estrechamiento del esófago.

múltiples episodios de emesis que se iniciaron desde los 4 meses de edad; además refiere disfagia para sólidos-líquidos desde los 18 meses, reflujo que predominaba en las noches y pobre ganancia de peso para la edad. Consultados los familiares, refieren que no hay estudios clínicos previos a la hospitalización por sus creencias religiosas.

La familia del paciente aporta un estudio endoscópico de vías digestivas altas (EVDA) que reporta estenosis del tercio

inferior del esófago en un 80%, se solicitó esofagograma que evidenció dilatación distal esofágica por encima de unión gastroesofágica (Fig. 1). Adicionalmente, se solicita nueva EVDA intrainstitucional, con hallazgo de estenosis puntiforme del esófago de alrededor de 25 cm a nivel de la arcada dentaria superior (ADS) (Fig. 2), por lo cual se decidió suspender el plan inicial de dilataciones neumáticas y ante la sospecha de que la etiología fuera cartilaginosa se decidió proceder con la intervención quirúrgica. Se llevó a vídeo-toroscopia en posición decúbito lateral derecho con tres puertos, intubación selectiva de bronquial derecha. Inserción de primer trocar de 5 mm en sexto espacio intercostal con línea axilar anterior izquierdo, neumo de 5 mmHg y flujo de 2 L/min. Inserción de trocares de 3 mm en quinto espacio intercostal con línea axilar posterior y en octavo espacio intercostal con línea axilar posterior. Esófago distal dilatado, paso de bujía No. 18 por vía oral hasta el sitio de zona estenótica. Se libera ligamento pulmonar inferior hasta identificar vena pulmonar inferior izquierda. Se incide en la pleura mediastinal, identificando el esófago distal, con posterior asilamiento y diferenciación de este con una ligadura, para hacer una disección circunferencial y reparación. Se marca zona de resección con diatermia. Se reseca segmento esofágico de 1 cm con tijera y se envía a patología. Se realiza anastomosis con puntos de Poligliconato (Maxon™-Covidien) 5-0 separados, se pasa sonda de alimentación No. 10 fr antes de terminar cara anterior de la anastomosis, se aspira cavidad pleural. Se deja sonda de toracostomía número 14 fr que se fija con nylon 3-0 y se deja sello de agua (Fig. 3). Al séptimo día postoperatorio se realiza esofagograma (Fig. 4) donde se observa paso de medio de contraste, sin visualizar estrechamiento. Se inicia tolerancia a vía oral y se decide dar egreso por clínica favorable. Se realiza evaluación al mes, donde los padres refieren continuar con dieta, sin nuevos episodios de vómito y ganancia de peso. Se realiza endoscopia digestiva de control al tercer mes postoperatorio, con permeabilidad esofágica y leve estrechez a los 25 cm de la arcada dental que no requiere dilatación.



Figura 2. Endoscopia de vías digestivas altas: estenosis del tercio inferior del esófago en un 80%.

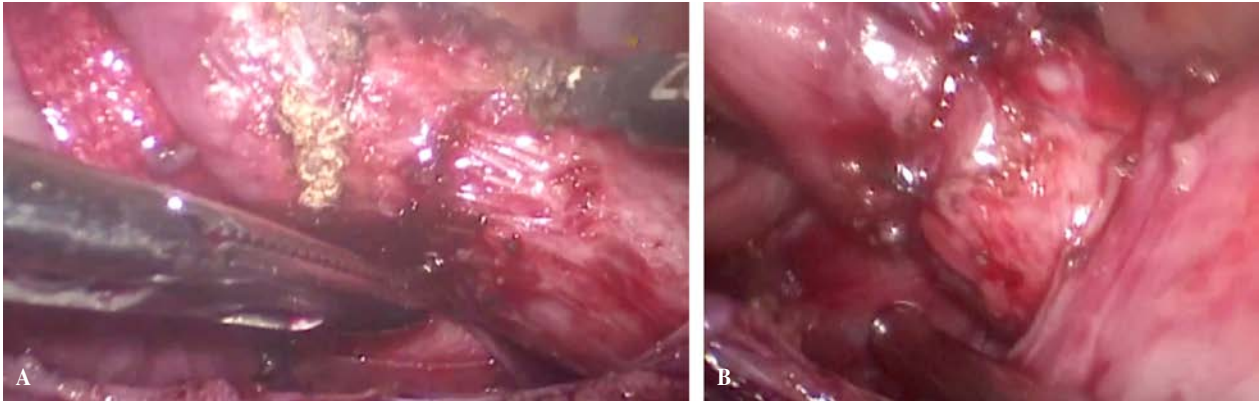


Figura 3. Vídeo-toroscopia. A) Resección de remanente. B) Anastomosis de esófago.

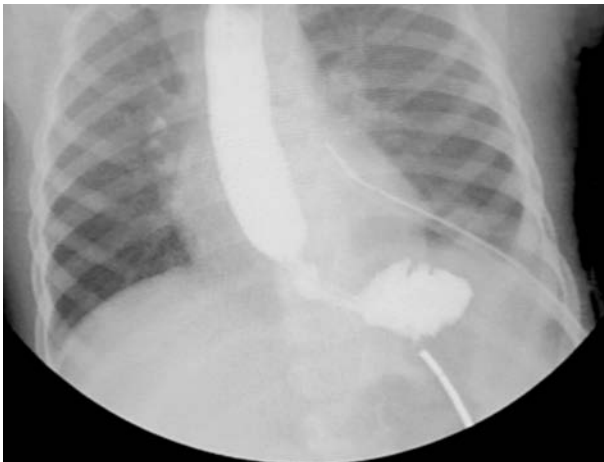


Figura 4. Esófagograma: postoperatorio, con adecuado paso de la luz intestinal.

El paciente no ha reingresado nuevamente al hospital, por el difícil acceso de la zona rural. Se realizó contacto telefónico y no había presentado disfagia hasta ese momento.

DISCUSIÓN

La EEC fue descrita por primera vez por Rosi en 1826, en un paciente con DM; más adelante Abel, en 1828, reportó el primer tratamiento de dicha patología con dilataciones de tubos caucho⁽¹⁾. Posteriormente, en 1936, Fredy y Dusch informaron del primer caso de RT en la autopsia de una paciente de 19 años con un diagnóstico inicial de acalasia^(1,2).

Esta malformación se presenta durante el primer trimestre de la gestación secundaria a una división incompleta entre el intestino primitivo y el tracto respiratorio^(1,2,7). Por lo que genera un estrechamiento intrínseco permanente de la circunferencia del esófago^(1,3). Los pacientes generalmente son asintomáticos en los primeros meses de vida; al sexto mes de

vida, al introducir sólidos en la dieta, los pacientes inician con cuadro de vómito, reflujo y/o disfagia, siendo este último el síntoma más frecuente^(2,3,6,8). Otros signos y síntomas menos prevalentes son estridor laríngeo, desnutrición, neumonías aspirativas a repetición, alteración en el desarrollo y aumento de la salivación^(2,9). Esta patología está asociada con malformaciones gastrointestinales en un 33%, siendo la más común la atresia esofágica en un 3-14%^(1,3,10).

Ante la sospecha de esta patología, la clínica y los estudios imagenológicos sirven para descartar diagnósticos diferenciales. Dentro de las pruebas de imagen, se ha descrito el esofagograma que demuestra el grado y la ubicación de la estenosis; EVDA ayuda a descartar que el estrechamiento esofágico sea secundario a esofagitis, acalasia, ingesta de corrosivos o por enfermedad ácido péptica; pH metría y la manometría excluyen el reflujo gastroesofágico y la ecografía endoscópica (EE)^(2,4,5,11). Sin embargo, es pertinente identificar si se cuentan con los recursos en las instituciones para la realización de las mismas.

La EE es la técnica de elección para diferenciar entre RT y HF siendo estas las causas más comunes de esta patología^(5,12). Según lo reportado por Keita Terui y cols., al realizar dicha diferenciación permite durante el tratamiento reducir en un 16,5% la tasa de perforación de la pared esofágica⁽⁵⁾. La confirmación diagnóstica se realiza mediante histopatología^(2,13). Identificándose de manera solitaria o mixta tejido cartilaginoso, glandular y/o epitelial; ubicadas a 3 cm del cardias, cuando la etiología son RT^(1,2). En nuestro paciente se evidenció que la estenosis esofágica era secundaria a RT según lo reportado en la patología.

El tratamiento está dirigido según la etiología del paciente^(1,8). El manejo no quirúrgico se basa en dilataciones con balón⁽⁶⁾, que se recomiendan en aquellos casos donde su etiología no presenta cartílago⁽¹⁾, debido al mayor riesgo de perforación o absceso mediastínico^(14,15). En un estudio, publicado en 2012 por F. Martin y cols., se describe que algunos pacientes con estenosis secundaria a ingesta de cáusticos se benefician del uso de prótesis autoexpandibles ante la presencia de estrechamientos con longitudes mayores de 2 cm

(estenosis largas), exhiban tortuosidad y recidivas después de manejo con dilataciones⁽¹⁶⁾; sin embargo, se debe individualizar cada causa, ya que esto va a cambiar el algoritmo terapéutico^(1,8). La cirugía está indicada en los casos de RT, tras presentar fallo en la dilatación o perforación esofágica^(1,5). La técnica quirúrgica consiste en la identificación y resección de defecto estenótico, seguido de una anastomosis término-terminal⁽¹⁾. En la actualidad se realiza el manejo por cirugía convencional; sin embargo, la cirugía mínimamente invasiva ha demostrado tener un mayor beneficio en esta patología, dado su inicio temprano de tolerancia a la vía oral y un mejor desenlace estético^(1,14), como se muestra en nuestro paciente.

CONCLUSIÓN

La estenosis congénita de esófago es una patología poco frecuente en la población pediátrica y su segunda presentación más frecuente son los remanentes traqueobronquiales. El manejo siempre estará dirigido a su etiología, basándose en un manejo no quirúrgico por medio de dilataciones en los casos que no se presenten remanentes traqueobronquiales, ya que esta presentación se debe abordar quirúrgicamente. Otras causas para considerar la cirugía son después del fallo en la dilatación o perforación esofágica. En la actualidad, el uso de cirugía mínimamente invasiva es factible por sus beneficios en la disminución del dolor, de la infección del sitio operatorio, del sangrado intraoperatorio y de la estancia hospitalaria.

BIBLIOGRAFÍA

1. Brzacki V, Mladenovic B, Jeremic L, Živanovic D, Govedarovic N, Dimic D, et al. Congenital esophageal stenosis: a rare malformation of the foregut. *Nagoya J Med.* 2019; 81: 535-47.
2. Rebelo PG, Ormonde JV, Ormonde Filho JB. Congenital esophageal stenosis owing to tracheobronchial remnants. *Rev Paul Pediatr.* 2013; 31: 406-10.
3. Romero Manteola EJ, Ravetta P, Patiño González CC, Defago VH. Estenosis esofágica congénita: diagnóstico y tratamiento. Serie de casos. *Arch Argent Pediatr.* 2018; 116: 110-4.
4. Kim SH, Kim HY, Jung SE, Lee SC, Park KW. Clinical study of congenital esophageal stenosis: Comparison according to Association of Esophageal Atresia and Tracheoesophageal Fistula. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2017; 20: 79-86.
5. Terui K, Saito T, Mitsunaga T, Nakata M, Yoshida H. Endoscopic management for congenital esophageal stenosis: A systematic review. *World J Gastrointest Endosc.* 2015; 7: 183-19.
6. Romeo E, Foschia F, de Angelis P, Caldaro T, di Abriola GF. Endoscopic management of congenital esophageal stenosis. *J Pediatr Surg.* 2011; 46: 838-41.
7. Serrao E, Santos A, Gaivao A, Tavares A, Ferreira S. Congenital esophageal stenosis: a rare case of dysphagia. *J Radiol Case Rep.* 2019; 4: 8-14.
8. Michaud L, Coutenier F, Podevin G, Bonnard S, Becmeur F, Khen-Dunlop N. Characteristics and management of congenital esophageal stenosis: findings from a multicenter study. *Orphanet J Rare Dis.* 2013; 8: 186.
9. Wang Y, Wu C, Pan Z, Wu Y, Wang Q, Wang G, Dai J. Diagnosis and treatment of 34 cases of congenital tracheobronchial cartilage remnants of esophagus. *J Pediatr Surg.* 2018; 53: 2136-9.
10. Mai C, Breysse L, De Hertogh F, Van Raemdonck D, Smet MH. An unusual presentation of congenital esophageal stenosis due to tracheobronchial remnants in a newborn prenatally diagnosed with duodenal atresia. *J Belg Soc Radiol.* 2015; 99: 43-6.
11. Savino F, Tarasco V, Viola S, Locatelli E, Sorrenti M, Barabino A. Congenital esophageal stenosis diagnosed in an infant at 9 month of age. *Ital J Pediatr.* 2015; 41: 72.
12. Wu Y, Wu C. Congenital esophageal atresia associated with a tracheobronchial remnant. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg.* 2019; 52: 170-3.
13. Jain V, Yadav DK, Sharma S, Jana M, Gupta DK. Management of long segment congenital esophageal stenosis: A novel technique. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2016; 21: 150-2.
14. Saka R, Okuyama H, Sasaki T, Nose S, Oue T. Thoracoscopic resection of congenital esophageal stenosis. *Asian J Endosc Surg.* 2017; 10: 32-4.
15. Suzuhigashi M, Kaji T, Noguchi H, Muto M, Goto M, Mukai M. Current characteristics and management of congenital esophageal stenosis: 40 consecutive cases from a multicenter study in the Kyushu area of Japan. *Pediatr Surg Int.* 2017; 33: 1035-40.
16. Martín Cano F, Rodríguez Vargas J, Velasco Sánchez B, Herrera Montes I. Uso de prótesis autoexpandibles en estenosis esofágicas en niños. *Cir Pediatr.* 2012; 25: 207-10.