

Fístula traqueoesofágica en H asociada a situs inversus totalis

Dres. R. San Miguel, R. Lembo y J. Colecchia.

Hospital del Niño de San Justo, Provincia de Buenos Aires, Argentina

Resumen

Se presenta un caso infrecuente de asociación de malformaciones constituida por fístula traqueoesofágica en H (FTE) con situs inversus totalis (SIT). Se trata de un recién nacido de término, de 29 días de vida, con antecedentes de crisis de cianosis y síndrome bronquiolítico. La radiografía de tórax, la ecografía abdominal y el ecocardiograma confirmaron el SIT. La presencia de FTE en H se corroboró por un estudio contrastado del esófago. Se realizó una endoscopia esofágica que no evidenció la presencia de la FTE. El abordaje quirúrgico se realizó por una cervicotomía supraclavicular transversa izquierda indicada por el SIT. El paciente evolucionó satisfactoriamente. Se realimentó por sonda esofágica a las 72 horas del postoperatorio, y a partir del décimo día por succión, previo estudio contrastado del esófago. Se otorgó el alta a los 17 días de internación. Es de destacar que cuando la FTE en H se presenta en un paciente con SIT, el abordaje quirúrgico debe realizarse por el lado izquierdo.

Palabras clave: Fístula traqueoesofágica - Situs inversus

Summary

An infrequent case of H-type tracheoesophageal fistula (TEF) with situs inversus totalis (SIT) is presented here. A one month old baby boy was referred to us for surgical consultation due to repeated crisis of cyanosis and bronchiolitis. Chest X-rays, abdominal US and echocardiogram confirmed the SIT. An H-type TEF was found in the esophagogram, but was impossible to find during the esophageal endoscopy. The fistula was approached by means of a left lateral cervicotomy. The recovery was uneventful. The baby was fed by the NG tube at the 3rd PO day and by mouth at the 10th PO day (after a scheduled esophagogram). The baby was discharged at the 17th PO day. We want to highlight that in cases of SIT, the optimal approach to an H-type TEF is left sided.

Index words: Tracheoesophageal fistula - Situs inversus

Resumo

Apresenta-se um caso de fístula traqueoesofágica em H (FTE) com situs inversus total (SIT), que é uma associação infrequente de malformações. Trata-se de um recém-nascido a termo, de 29 dias de vida, com antecedentes de crises de cianose e bronquiolite. A radiografia de tórax, a ecografia abdominal e o ecocardiograma confirmaram o SIT. A presença de FTE em H foi confirmada com o estudo contrastado do esôfago. Realizou-se uma esofagoscopia que não evidenciou a presença da FTE. A abordagem cirúrgica foi realizada por uma cervicotomia supraclavicular transversa esquerda, indicada pelo SIT. O paciente evoluiu satisfatoriamente. Foi alimentado, por sonda gástrica, com 72 horas de pós-operatório, e a partir do décimo dia por sucção, após estudo contrastado do esôfago. Recebeu alta no 17o dia de internação. Deve-se destacar que quando a FTE em H se apresenta em um paciente com SIT a abordagem cirúrgica deve ser realizada pelo lado esquerdo.

Palavras chave: Fístula traqueoesofágica - Situs inversus

Introducción

La fistula traqueo-esofágica (FTE) se presenta generalmente asociada a atresia de esófago (AE), las formas aisladas o en H representan entre un 4 a un 6 % de todos los casos¹⁻². El situs inversus totalis (SIT) es una malformación infrecuente cuya incidencia es de 1 de cada un millón de nacimientos. Hay numerosas publicaciones de SIT asociadas a diversas patologías³⁻⁴⁻⁵⁻⁶. La presentación de nuestro caso con una FTE aislada es infrecuente. Se presenta aquí un caso de FTE asociada a un SIT.

Presentación del caso

Se trata de un recién nacido de término, peso de nacimiento 3430 gramos, madre múltipara, sin antecedentes perinatológicos de relevancia, derivado al Servicio de Neonatología de nuestro hospital con 29 días de vida, un peso de 3200 gramos, por presentar un síndrome bronquiolítico. A su ingreso se constató una mala progresión de peso, franca dificultad respiratoria que requirió O₂ al 40 % con halo y b2 inhalatorios. Se realizaron estudios de laboratorio sin demostrar patología infecciosa. Al interrogatorio se rescataron dos internaciones previas con crisis de cianosis y síndrome bronquiolítico similares a la actual. La radiología torácica mostró un SIT, confirmado con ecografía abdominal y ecocardiografía un arco aórtico a la derecha. Por los antecedentes se realizó un estudio radiológico contrastado retrógrado del esófago, detectando una imagen compatible con FTE en tercio superior a nivel de la cuarta vértebra cervical (Figuras 1 y 2). Se alimentó a través de una sonda orogástrica en forma progresiva hasta resolver su cuadro respiratorio.

Cuando estuvo en buenas condiciones clínicas se realizó la cirugía, que comenzó con una endoscopia esofágica, pero no se visualizó la presencia de la fistula. El abordaje quirúrgico se realizó por una incisión cervical izquierda supraclavicular transversal, que permitió una buena exposición de ambos cabos de la fistula. La misma se cerró con puntos separados de material reabsorbible 4/0 en dos planos, con interposición del músculo esterno-tiroideo entre ambos extremos suturados. Se dejó colocada una sonda esofágica de silicona para alimentación y un drenaje en el lecho que se retiró 48 horas después. Se realizó tratamiento antibiótico profiláctico con cefalotina y gentamicina.



Figura 1: Esfagograma retrógrado mediante sonda. Vista de perfil.



Figura 2: Ampliación de la imagen en el área de la fistula.

La evolución postoperatoria fue satisfactoria, se realimentó por sonda esofágica en forma paulatina a partir de las 72 horas de la cirugía, con buena tolerancia, y suplementada con nutrición parenteral total a través de un acceso venoso central. Al octavo día de la cirugía se retiró la sonda esofágica y se constató

por radiología contrastada del esófago un buen pasaje distal, sin filtración de la sutura y leve edema mucoso que no impidió su realimentación por succión al décimo día postoperatorio.

Fue dado de alta a los 17 días de internación con un peso de 3440 gramos, alimentado por succión a libre demanda y sin síntomas respiratorios. Se repitió un estudio radiológico contrastado del esófago a los 40 días de la operación que no mostró alteraciones. A los 6 meses de vida el paciente se encuentra asintomático y con un desarrollo normal para su edad.

Discusión

La frecuencia de las FTE sin AE varía del 4 al 6 % de todas las malformaciones esofágicas, de acuerdo a las distintas series publicadas en la literatura universal¹⁻². El SIT es también una malformación infrecuente que aparece en forma aislada o asociada a otras malformaciones como el síndrome de Kartagener (SIT, sinusitis, bronquiectasias), malformaciones cardiovasculares, digestivas (colestasis intrahepática, anomalías anales, atresia y estenosis duodenales y malrotación), neurológicas y esqueléticas; tal como lo demuestran las diferentes publicaciones internacionales³⁻⁴⁻⁵⁻⁶. La asociación que presentamos con estas dos malformaciones es muy infrecuente.

Los síntomas clínicos de tos con crisis de sofocación relacionados con la alimentación sugieren la presencia de una FTE en H. La patología respiratoria asociada con crisis de broncoespasmo y neumonías son frecuentes, el caso presentado aquí tuvo dos internaciones anteriores en distintos nosocomios con síntomas claros de esta patología, los cuales no fueron jerarquizados. Existen publicaciones con diagnósticos tardíos más allá del período neonatal, lo que motivan severas y progresivas complicaciones respiratorias⁷.

La radiografía contrastada retrógrada del esófago con sonda, es el estudio de elección para visualizar la fístula^{1, 2, 7, 8}. Es muy importante detectar precozmente esta patología con el fin de tomar recaudos en la alimentación del paciente a través de una sonda esofágica, para evitar de esta manera continuar con las aspiraciones alimentarias a la vía aérea.

La endoscopia esofágica y bronquial es preconizada por diversos autores para confirmar la presencia de la fístula y su localización⁹. En nuestro caso la endoscopia esofágica no demostró la presencia de la fístula, pero no se realizó broncoscopia.

El abordaje quirúrgico se realizó por vía cervical, ya que el estudio radiológico mostraba la presencia de la fístula al nivel de la cuarta vértebra cervical. Los distintos autores proponen un abordaje por la vía derecha del cuello¹⁻²⁻⁷, pero dado que nuestro paciente presentaba un SIT, se decidió abordarla por una cervicotomía izquierda. Esta vía de acceso permitió cerrar quirúrgicamente la fístula sin complicaciones.

Destacamos la presencia en un paciente de dos malformaciones asociadas infrecuentes, en donde el diagnóstico precoz de la FTE en H, fue muy importante para la resolución quirúrgica y la evolución postoperatoria satisfactoria. La radiología contrastada retrógrada del esófago resultó fundamental para el diagnóstico. Remarcamos que cuando la FTE en H en un paciente se presenta con SIT el abordaje quirúrgico debe realizarse por el lado izquierdo.

Bibliografía

1. Beasley SW: Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula, in Oldham Keith T, eds: Surgery of infants and children, Chapter 61. Philadelphia, New York, EEUU 1997, pp 1021-1034.
2. Baeza Herrera, C: Patología quirúrgica neonatal. México, 1988, pp 33-48.
3. Tkebuchava T, Niederhauser U, Weder W et al: Kartagener's syndrome: clinical presentation and cardiosurgical aspects. *Ann Thorac Surg* 62 (5): 1474-1479, 1996.
4. Mincis M, Chebli JM, Khouri ST: Colestase intra-hepatica em situs inversus do figado. *Rev Assoc Med Bras* 40 (2): 118-120, 1994.
5. Rica-Etxebarria I, Arrate Zugazabeitia JK, Goyenaga-Aguirre ME et al: Asociación VACTERL. Aportación de dos casos, uno de ellos con situs inversus. *An Esp Pediatr* 37 (5): 408-410, 1992.
6. Akel S, Alabi J, Shawis R: Abdominal situs inversus with congenital duodenal stenosis: rare association. *Eur J Pediatr Surg* 8 (1): 55-57, 1998.
7. Holder T: *Pediatric Surgery*. Philadelphia, PA, Estados Unidos 1993, pp 249-269.
8. Karnak I, Senocak ME, Hicsonmez A et al: The diagnosis and treatment of H-type tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 32 (12): 1670-1674, 1997.
9. García NM, Thompson JW, Shaul DB: Definitive localization of isolated tracheoesophageal fistula using bronchoscopy and esophagoscopy for guide wire placement. *J Pediatr Surg* 33 (11): 1645-1647, 1998.

Trabajo aceptado para su publicación en Enero de 2004.

Dr. R. San Miguel

Hospital del Niño de San Justo - Buenos Aires, Argentina.