

Duplicación del colon izquierdo con fístula recto-vaginal.

Dres. FL Heinen, J Solana, M Bailez

Area Cirugía General, Hospital de Pediatría J.P. Garrahan, Buenos Aires, Argentina

Resumen

Se presenta el caso de una niña que nació con hipertrofia clitoridiana de causa no determinada y salida de meconio por la vagina. El primer diagnóstico fue de fístula rectovaginal con ano normal, realizándose una clitoridoplastia en el centro donde fue tratada. Cuando consultó en nuestro hospital a los 3 años, se encontró una duplicación tubular del colon izquierdo que comunicaba con la vagina. Existía un mesocolon único. Para su corrección quirúrgica se optó por la exéresis casi total del colon que comunicaba con la vagina, realizándole una mucosectomía. Su evolución fue satisfactoria luego de 3 años de seguimiento.

Palabras clave: Duplicación colónica - Fístula rectovaginal - Malformación anorrectal.

Summary

A female newborn noted to have clitoral hypertrophy was passing meconium vaginally. A clitoridoplasty was performed at another institution. At 3 years of age, the child was referred to our institution complaining of passing feces through the vagina. Work-up revealed a tubular left colonic duplication communicating with the vagina. At surgery, a mucosectomy and a near complete resection of the duplicated "vaginal" colon was performed. The child is currently doing well 3 years following operation.

Index words: Colonic duplication - Rectovaginal fistula - Anorectal malformation.

Resumo

Apresenta-se o caso de uma menina que nasceu com hipertrofia de clitoris sem causa determinada e saída de mecônio pela vagina. O primeiro diagnóstico foi de fístula retovaginal com ânus normal, realizando-se uma clitoroplastia. Quando consultou aos três anos de idade, foi encontrada uma duplicação tubular do cólon esquerdo que comunicava com a vagina.

Existia mesocólon único. Para a correção cirúrgica optou-se pela exérese quase total do cólon que comunicava com a vagina, realizando-se uma mucosectomia. A evolução foi satisfatória ao longo de 3 anos de seguimento.

Palavras chave: Duplicação do cólon - Fístula reto-vaginal.

Introducción

La fistula rectovaginal es parte del espectro de las malformaciones anorrectales. Se la sospecha por la salida de meconio por la vagina, en las niñas con ano imperforado. Excepcionalmente, puede encontrarse una fistula rectovaginal pura congénita con ano normal.

El caso aquí presentado simulaba ser esta última variedad de fistula rectovaginal, pero resultó ser una malformación distinta e infrecuente: una duplicación completa del colon izquierdo; uno de los cuales comunicaba con la vagina y el otro con el ano normal.

Presentación del caso

Niña de 3 años de edad que presentaba al nacimiento hipertrofia clitoridiana y salida de meconio por la vagina. En otro centro se interpretó que la niña tenía una fistula rectovaginal congénita. Se realizó un cariotipo (XY), y se descartó hiperplasia suprarrenal congénita como causa de la hipertrofia clitoridiana. Se le realizó una clitoridoplastia sin tratar lá fistula vaginal.

Consultó a los 3 años de edad por presentar episodios esporádicos de salida de materia fecal por la vagina, teniendo evacuaciones anales normales. Se presumió una fistula recto-vaginal pura, ya que por una vaginografía se contrastaba un megarrecto. Se decidió realizar una colostomía como paso inicial de su corrección quirúrgica. En la operación se encontró un doble colon que se ostomizó en la fosa ilíaca izquierda (Fig. 1).

Se estudió luego el colon por la ostomía comprobando que existía una duplicación tubular en "Y" invertida desde el colon descendente (Fig. 2). La rama izquierda iba a la cúpula vaginal y presentaba un megarrecto con importante impactación fecal; la rama derecha del colon, menos dilatada, abocaba al ano normal (Fig. 3 y 4). Ambos cólores distales fueron evacuados completamente con irrigaciones por la ostomía.

A los 3 años y 4 meses se realizó la cirugía correctora. En la endoscopia vaginal preoperatoria, no fue posible ver la fistula colónica por su pequeño calibre. Se comprobó la comunicación con la inyección de solución fisiológica y aire por la ostomía correspondiente.

En la laparotomía se observó que el colon lateral ("vaginal") compartía con el colon medial ("anal") una pared común y la irrigación. La ligadura del mesocolon "vaginal", no era posible sin desvascularizar también al colon "anal" adyacente.

Se optó por realizar mucosectomía del colon "vaginal", similar a la técnica de Soave, desde el ostoma hasta la cúpula vaginal. El manguito seromuscular remanente fue resecado en un 80% y plicado con una sutura continua. Se resecó el tabique endoluminal en el cabo proximal de la colostomía, para unificar la luz colónica y cerrar la ostomía en la misma operación.

Se dejó drenaje del manguito seromuscular por 4 días postoperatorios.

La evolución fue satisfactoria y 3 años después de la operación, la niña tiene una función evacuatoria normal.

Discusión

Las duplicaciones intestinales (DI) pueden ser quísticas, diverticulares o tubulares, y localizarse en cualquier sector del tubo digestivo. Son más frecuentes en el esófago y en el íleon (1-2).

Sólo el 4% a 18% de las DI son colónicas (1-3-4-5). Han sido reportados en la literatura aproximadamente 60 casos de duplicaciones tubulares colónicas (6).

Si bien la embriogénesis de esta duplicación es discutida, sería una anomalía del intestino terminal del embrión (hindgut), origen del íleon terminal, el colon y la cloaca (1). Por septación de la cloaca, se formarían posteriormente la uretra, la vagina distal y el recto (7-10). La duplicación colónica en "Y" invertida desde el descendente, sería una variante parcial de esta anomalía.

Se han visto duplicaciones colónicas tubulares asociadas con defectos vértebro-medulares (síndrome de la notocorda hendidá): mielomeningocele anterior, raquisquisis y otras malformaciones vertebrales (11-12). También se han asociado uropatías, duplicaciones genitourinarias de diversa complejidad y onfalocoel (5-9).

Cooksey presenta un caso de secuestro pulmonar extralobar con bronquio esofágico, asociado a una duplicación tubular colónica (13).

Se han publicado casos, en los que existía una comunicación del colon duplicado con el vestíbulo vaginal o la vagina (1-4-6-13). No hemos encontrado referencias de la asociación con hipertrofia clitoridiana, como presentaba esta niña.

El colon "vaginal" suele estar impactado con materia fecal, por tener un pequeño orificio de comunicación. En un caso publicado, el megarrecto protruía por el ano junto con la pared vaginal posterior (6).

La duplicación colónica puede ser un antecedente de neoplasias; también han sido referidas hemorragias por la presencia de mucosa gástrica ectópica en el colon duplicado. Estas son otras razones para intentar siempre resecar la duplicación (1-13-15).

La exéresis de la duplicación es posible sólo si no existe un mesocolon común, como ocurrió en pocos casos (14). En el nuestro, la transección del colon "vaginal" en la reflexión peritoneal, con anastomosis al colon "anal", hubiera dejado un gran divertículo unido a la vagina.

De haberse resecado el septum intercolónico, hubiera sido difícil resolver la comunicación con la vagina.

La mucosectomía ha sido utilizada en duplicaciones yeyunoiliales y rectales y resultó efectiva en nuestro caso (1-13).

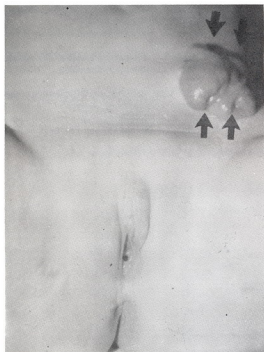


Fig. 1: colostomía en FII. Nótese las cuatro bocas, las mediales comunicaban con el colon "anal", las laterales con el "vaginal".

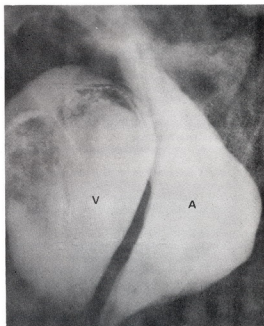


Fig. 3: CV: Megarrecto del colon "vaginal". R: recto.

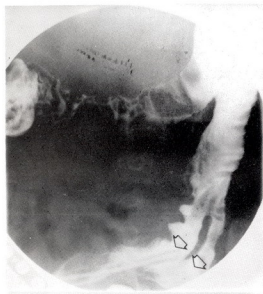


Fig. 2: colon por enema. Duplicación tubular (en "Y") desde el colon descendente.

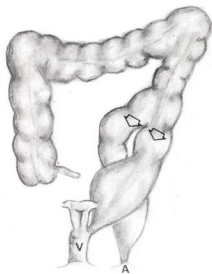


Fig. 4: duplicación en Y del colon descendente. Megarrecto del colon que comunicaba con la vagina. V: vagina A: ano normal.

Algunos autores han preferido abrir una comunicación entre ambos rectos, luego de desconectar el que comunicaba con la vagina (4).

Bibliografía

1. *Wrenn EL*: Alimentary tract duplications, en Ashcraft Holder: Pediatric Surgery, cap. 35. Philadelphia USA, WB Saunders Co., 1993, pp 421-434.
2. *Heinen FL*: Duplicaciones intestinales. Presentado en el XV Congreso Argentino de Cirugía Infantil, noviembre de 1978, Neuquén, Argentina.
3. *Bedford AF*: An unusual alimentary duplication. Br J Clin Pract 31:76-78, 1977.
4. *Yucesan S, Zorludemir U, Olcay I*: Complete duplication of the colon. J Pediatr Surg 21:962-963, 1986.
5. *Azmy A*: Complete duplication of the Hindgut and lower urinary tract with diphallus. J Pediatr Surg 25:647-649, 1990.
6. *Yousefzadeh DK, Bickers GH, Jackson JH et al*: Tubular colonic duplication. Review of 1876-1981. Pediatr Radiol 13:65-71, 1983.
7. *Hunter TB, Tonkin LD*: Complete duplication of the colon in association with urethral duplication. Gastrointest Radiol 4:93-95, 1979.
8. *Zamir O, Lernau O, Goldberg M, et al*: Hindgut duplication report of a patient with longterm follow up. Dis Col Rectum 27:615-617, 1984.
9. *Okür H, Keskin E, Zorludemir U, et al*: Tubular duplication of the Hindgut with genitourinary anomalies. J Pediatr Surg 27:1239-1240, 1992.
10. *Shearer LT, Holt HA, Young LW*: Radiological case of the month (duplication of the bladder and colon). Am J Dis Child 135:661-662, 1981.
11. *Bentley JRR, Smith JR*: Developmental posterior enteric remnants and spinal malformations: The split notocord syndrome. Arch Dis Child 35:76, 1960.
12. *Faris JC, Crowe JE*: The split notocord syndrome. J Pediatr Surg 10: 476, 1975.
13. *Cooksey G, Wagget J*: Tubular duplication of the rectum treated by mucosal resection. J Pediatr Surg 19:318-319, 1984.
14. *Beach PD, Brascho DJ, Hein WR, et al*: Duplication of the primitive hindgut in a human being. Surgery 49:779, 1961.
15. *Orr MM, Edwards AJ*: Neoplastic change in duplications of the alimentary tract. Br J Surg 62:269-274, 1975.

Trabajo presentado para su publicación en Julio de 1993.

Dr. F. Heinen

Pichincha 1850
(1245) Buenos Aires
Argentina