

Obstrucción intestinal por páncreas anular en etapa neonatal: reporte de caso

Luis S. Florian^{1,2,a}; Lizet Cuba Valencia^{1,2,a}; Melissa P. Gentile*^{1,2,a}; Raissa B. Bustamante^{1,b}; Orlando I. Bayona^{1,a}

RESUMEN

El páncreas anular es una malformación congénita rara caracterizada por un anillo pancreático que rodea la porción descendente del duodeno. Se reporta en 1/20 000 recién nacidos vivos. La edad de presentación depende de la severidad de la obstrucción intestinal. El diagnóstico requiere estudios de imagenología y exploración quirúrgica. Presentamos el caso de un neonato de trece días, hospitalizado en la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales del Hospital Nacional Arzobispo Loayza. Cursa con residuo gástrico, vómitos y distensión abdominal intermitente. Dada la persistencia de una sintomatología gastrointestinal a pesar del manejo instaurado, se realiza el examen radiológico de las vías digestivas altas con medio de contraste, donde se evidencia signos de estenosis duodenal. Se realizó una laparotomía exploratoria, con diagnóstico posoperatorio de páncreas anular. El tratamiento definitivo es mediante la cirugía de Kimura.

Palabras clave: Obstrucción Intestinal; Malformaciones Congénitas; Vómitos (Fuente: DeCS BIREME).

Intestinal obstruction due to annular pancreas in neonatal period: a case report

ABSTRACT

Annular pancreas is a rare congenital malformation characterized by a pancreatic ring surrounding the descending part of the duodenum. It occurs in 1:20,000 live births. The age of presentation depends on the severity of the intestinal obstruction. The diagnosis requires imaging studies and surgical exploration. This is the case of a 13-day-old newborn admitted to the Neonatal Intensive Care Unit of Hospital Nacional Arzobispo Loayza. He presented with gastric residuum, vomiting and intermittent abdominal distension. Given the persistent gastrointestinal symptoms despite the treatment administered, a radiological examination of the upper digestive tract with contrast dye was conducted. Signs of duodenal stenosis were found. An exploratory laparotomy showed a postoperative diagnosis of annular pancreas. Kimura's diamond-shaped side-to-side duodenoduodenal anastomosis was performed as a definitive treatment.

Keywords: Intestinal Obstruction; Congenital Abnormalities; Vomiting (Source: MeSH NLM).

1 Hospital Nacional Arzobispo Loayza, Servicio de Neonatología. Lima, Perú.

2 Universidad de San Martín de Porres, Facultad de Medicina. Lima, Perú.

a Médico especialista en neonatología.

b Médico residente de la especialidad de pediatría.

*Autor corresponsal.

INTRODUCCIÓN

El páncreas anular es una malformación congénita rara descrita por primera vez por Tiedemann en 1818 y nombrada bajo ese término por Ecker ⁽¹⁾. Puede manifestarse desde la etapa neonatal como obstrucción duodenal o permanecer asintomática hasta la edad adulta. La prevalencia exacta es desconocida, en la literatura se describe 1 caso por cada 20 000 recién nacidos vivos aproximadamente ⁽¹⁾. Se ha asociado con polihidramnios materno ⁽²⁾ y anomalías congénitas como atresia esofágica y duodenal, malformación anorrectal y divertículo de Meckel ⁽³⁾. El páncreas anular puede clasificarse, según la distribución anatómica del parénquima pancreático alrededor del duodeno, en completo e incompleto ⁽⁴⁾. El páncreas anular completo ocurre cuando el conducto anular rodea completamente la segunda porción del duodeno ⁽⁴⁾, mientras que el páncreas anular incompleto se da cuando el anillo se extiende en dirección posterolateral o anterolateral a la segunda porción del duodeno ⁽⁴⁾.

La edad de presentación dependerá de la gravedad de la obstrucción duodenal intrínseca ^(2,5). Aproximadamente dos tercios de la población infantil lo presentan durante el periodo neonatal, y tiende a ser severa, en cuyo caso se manifiesta desde el nacimiento con vómitos típicamente biliosos y distensión abdominal ⁽⁵⁾. El abordaje diagnóstico incluirá la evaluación clínica y pruebas radiológicas complementarias (radiografía simple de abdomen, serie gastrointestinal superior con contraste) ^(6,7). Sin embargo, el diagnóstico definitivo será por laparotomía diagnóstica ⁽⁸⁾. El tratamiento es mediante corrección quirúrgica ⁽⁸⁾.

CASO CLÍNICO

Recién nacido producto de cesárea por Síndrome de HELLP a las 32 semanas de edad gestacional, con peso al nacer de 1223 g. Nace con APGAR 7 al minuto y 8 a los cinco minutos; presentó dificultad respiratoria moderada por lo que fue trasladado a la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales (UCIN), donde fue hospitalizado. Ingres a la UCIN con diagnóstico inicial de enfermedad de membrana hialina (EMH), por lo cual requiere soporte ventilatorio con presión continua positiva en la vía aérea (CPAP, por sus siglas en inglés), y, posteriormente, con cánula binasal con evolución ventilatoria favorable.

El paciente cursó desde las 12 horas de vida con vómitos lácteos (10-15cc) tras el inicio de la nutrición enteral (20cc/kg/día), que estuvo acompañada por distensión abdominal intermitente y residuos gástricos biliosos de cuantía 2-11cc. El paciente realizaba deposiciones de manera espontánea con una frecuencia de 1 vez cada 5 días. Se indicó reposo gástrico y al reinicio de vía oral presentó la sintomatología digestiva ya descrita, motivo por el cual fue sometido a estudios de laboratorio y de imágenes (Tabla 1). En la evaluación física general se evidenció abdomen globuloso con episodios de distensión abdominal intermitente, con ruidos hidroaéreos presentes pero disminuidos y poco depresible a la palpación; el resto del examen físico no mostró alteraciones. El paciente fue evaluado por Cirugía Pediátrica, sin evidencia de irritación peritoneal; no tributario de tratamiento quirúrgico, por lo que se solicitó complementar con un estudio de imagenología. Se realizaron radiografías simples de abdomen en decúbito y de pie, y se evidenció signo de doble burbuja (Figura 1).

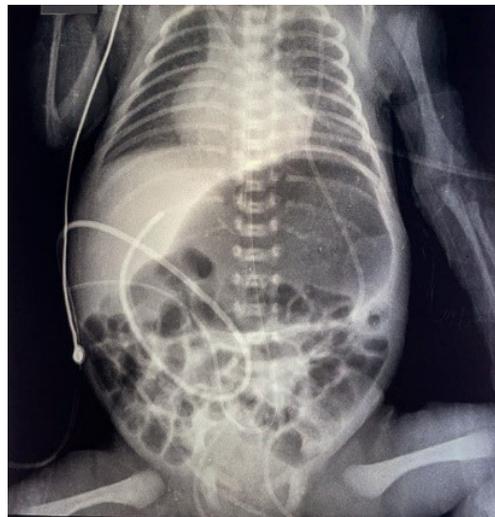


Figura 1. Evidencia de signo de doble burbuja, resultado de distensión de la cámara gástrica y del duodeno proximal

Obstrucción intestinal por páncreas anular en etapa neonatal: reporte de caso

Tabla 1. Descripción cronológica de hallazgos clínicos y conducta

Fecha	Acontecimiento
09/09/2021	Distrés respiratorio secundario a enfermedad de membrana hialina.
09/09/2021	Vómitos y residuo gástrico bilioso tras inicio de nutrición enteral. Evaluado por cirugía pediátrica, indicándose no tributario de cirugía.
10/09/2021	Se solicita radiografía de abdomen: signo de “doble burbuja”.
11/09/2021	En dieta absoluta (NPO), persiste residuo gástrico bilioso. Reevaluado por cirugía pediátrica que indica realizar estudio GI contrastado.
12/09/2021	Vómitos y residuo gástrico bilioso. NPO.
14/09/2021	Se reinicia nutrición enteral. Persistencia de vómitos y residuo gástrico. Hemograma patológico con trombocitopenia en 80 000 mm ³ : se inicia cobertura antibiótica.
15/09/2021 al	Se reinicia nutrición enteral a volúmenes bajos (5-10 cc/kg/d), mantiene distensión abdominal
19/09/2021	intermitente, residuo gástrico escaso.
19/09/2021	Hemocultivo negativo. Se suspende antibioticoterapia.
20/09/2021	Persistencia de vómitos y residuo gástrico en aumento. Estudio contrastado del tracto GI superior: dilatación gástrica y de asa proximal intestinal.
22/09/2021	Laparotomía exploratoria.

Bajo alta sospecha de presentar una obstrucción intestinal por cuadro clínico previamente descrito, se indica una serie gastrointestinal superior con medio de contraste que reporta dilatación gástrica y dilatación de la primera y segunda porción del duodeno, así como escaso paso de medio de contraste al intestino distal. Este hallazgo corresponde a estenosis duodenal (Figura 2).

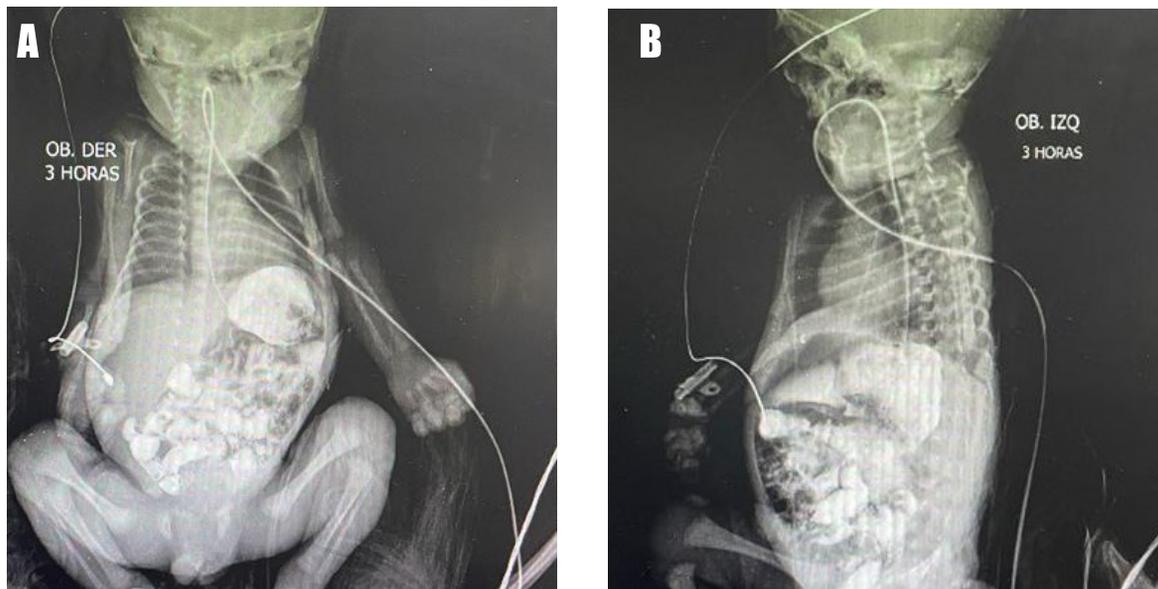


Figura 2. A. Gran distensión de la cámara gástrica asociado a pasaje filiforme de sustancia de contraste a través de antro pilórico; B. Adecuado tránsito de sustancia de contraste a través de asas delgadas y gruesas. No se observó imágenes de adición ni fístulas

Ante estos signos clínicos y la confirmación radiológica de una obstrucción intestinal, se realizó una laparotomía exploratoria. El diagnóstico posoperatorio fue de páncreas anular, con extensión de la cabeza del páncreas hacia la primera porción duodenal. Se procedió a realizar anastomosis entre el antro gástrico y la segunda porción duodenal (cirugía de Kimura).

El paciente se mantuvo en NPO por 18 días, debido al íleo inflamatorio. Posteriormente se inició la nutrición enteral a un volumen de 10 cc/kg/día, con un ascenso entre 15-20cc/kg/día de vía oral. El paciente cursó con evolución favorable, y recibió volúmenes completos de leche materna en el posoperatorio n.º 24 (tiempo de vida 37 días) con una adecuada tolerancia enteral.

DISCUSIÓN

El páncreas se desarrolla a partir de dos yemas ventrales y una yema dorsal que aparecen como evaginaciones del intestino anterior primitivo cerca de la quinta semana de gestación⁽⁹⁾. Las yemas ventrales corresponden a la parte inferior de la cabeza del páncreas y la apófisis uncinada, mientras que la yema dorsal se convierte en cola y cuerpo. El páncreas anular ocurre cuando la yema ventral no rota con el intestino, lo que provoca la envoltura del duodeno^(2,4,9). Esto da como resultado un anillo de tejido pancreático no distensible, que suele rodear la segunda porción del duodeno^(5,9). En aproximadamente el 70 % de casos, el páncreas anular suele asociarse a malformaciones congénitas del tubo digestivo, como la atresia o estenosis duodenal, mal rotación intestinal, atresia esofágica, y malformaciones cardiovasculares⁽¹⁰⁾.

El páncreas anular se puede manifestar desde la etapa neonatal como una obstrucción duodenal⁽¹¹⁾. La sintomatología gastrointestinal dependerá del grado de estenosis causada por el anillo pancreático en el duodeno⁽⁸⁾. Así como en el caso descrito de nuestro paciente, la principal forma de presentación clínica son los vómitos, que pueden ser biliosos o no, dependiendo de la localización de la estenosis intestinal; el nivel más frecuente es a nivel preambular en el 85 % de casos aproximadamente⁽¹²⁾. Además, puede manifestarse también como deposiciones escasas⁽¹³⁾, distensión abdominal intermitente⁽¹³⁾ o retraso en el crecimiento⁽¹⁴⁾. Debido a la evolución tórpida del paciente, se inició antibioterapia empírica ante una infección intrahospitalaria probable, lo cual pudo enmascarar el diagnóstico quirúrgico.

El diagnóstico generalmente se realiza por la presencia de una doble burbuja de aire (en una radiografía simple de abdomen), pero puede confirmarse mediante una serie gastrointestinal superior que demuestre obstrucción duodenal⁽⁸⁾. Pero no representa el diagnóstico definitivo debido a que puede verse en otras afecciones, como la atresia duodenal y la malrotación intestinal⁽¹⁵⁾. Los

hallazgos en la serie gastrointestinal superior incluyen un estrechamiento duodenal con un estrechamiento excéntrico o concéntrico de la segunda porción del duodeno, y dilatación simétrica del duodeno proximal⁽⁴⁾. Sin embargo, no se requieren pruebas adicionales debido a que la sospecha de obstrucción duodenal completa o parcial requieren intervención quirúrgica⁽¹⁵⁾. Por lo tanto, se realiza un diagnóstico definitivo en la laparotomía⁽⁸⁾. En el caso de nuestro paciente fue necesario complementar el estudio con la serie gastrointestinal superior con contraste, en la que se evidenció la dilatación de la porción superior y descendente del duodeno, junto a la estenosis duodenal distal. Este fue el motivo por el cual se ingresó a laparotomía exploratoria en su décimo primer día de vida.

La cirugía de Kimura o anastomosis duodeno-duodenal sigue siendo el procedimiento de elección⁽¹³⁾. El objetivo de la cirugía es aliviar la obstrucción de la salida duodenal o gástrica sin pasar por el anillo. Debe evitarse la resección del anillo, ya que se asocia con pancreatitis, formación de fístula pancreática y alivio incompleto de la obstrucción^(13,15).

El caso presentado comenzó a dar manifestaciones de distensión abdominal y vómitos en el primer día de vida, tal y como se describen los casos en etapa neonatal en la literatura. Se corroboró el diagnóstico con el examen radiográfico de pie, con la imagen típica de "doble burbuja"⁽¹⁵⁾, sumado a la estrechez duodenal evidenciada mediante la serie gastrointestinal superior con contraste. Lo anterior concuerda con la literatura respecto a la limitación diagnóstica que tiene el páncreas anular⁽¹⁴⁾; sin embargo, el diagnóstico definitivo y terapéutico es la intervención quirúrgica⁽¹³⁾. Durante el acto quirúrgico se identificó que la obstrucción intestinal era ocasionada por una estenosis duodenal secundaria a páncreas anular, por lo cual se procedió a realizar la técnica quirúrgica de elección (cirugía de Kimura) sin presentar complicaciones inmediatas.

El pronóstico del páncreas anular es bueno⁽¹⁴⁾, a pesar de la presencia de malformaciones congénitas y anomalías cromosómicas asociadas. Esto se ha atribuido a la mejora de la atención neonatal, el manejo nutricional, la detección temprana y el manejo de las anomalías asociadas⁽¹⁴⁾. En el caso de nuestro paciente, no se presentaron otras malformaciones congénitas complejas.

Contribuciones de los autores: Los autores han realizado conjuntamente y en partes iguales la argumentación y la redacción del caso clínico descrito.

Fuentes de financiamiento: El artículo ha sido financiado por los autores.

Conflicto de intereses: Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Obstrucción intestinal por páncreas anular en etapa neonatal: reporte de caso

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Almoamin HHA, Kadhem SH, Saleh AM. Annular pancreas in neonates: Case series and review of literatures. *Afr J Paediatr Surg.* 2022; 19(2): 97-101.
2. Saalabian K, Friedmacher F, Theilen TM, Keese D, Rolle U, Gfroerer S. Prenatal detection of congenital duodenal obstruction - Impact on postnatal care. *Children.* 2022; 9(2): 160.
3. Yin C, Tong L, Ma M, Tan X, Luo G, Fei Z, et al. The application of prenatal ultrasound in the diagnosis of congenital duodenal obstruction. *BMC Pregnancy Childbirth.* 2020; 20(1): 387.
4. Fortuna J, Rodrigues A, Amante S, Estevão-Costa J, Fragoso A. Annular pancreas: unusual presentation of a rare malformation. *Portuguese J Pediatr.* 2019; 50: 122-5.
5. Thornhill R, Sacks MA, Goodman LF, Khan FA, Radulescu A. Newborn with annular pancreas and H-type tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg.* 2021; 75: 102068.
6. Martínez-Bautista P, Aguilar-Mena ME, Barbosa-Cruz X, Vilchis-Chaparro E, Espinoza-Anrubio G, Rodríguez-Elizondo JC. Annular pancreas, cause of abdominal pain: Case report. *Rev Med Inst Mex Seguro Soc.* 2019; 57(2): 118-23.
7. Ogunyoyin OO, Olulana DI, Lawal TA, Ajao AE. Outcome of management of neonatal intestinal obstruction at a tertiary center in Nigeria. *Niger J Surg.* 2019; 25(2): 163-6.
8. Vig DA, Kirtikumar J, Rathod D, Gupta DN, Kumari DK, Sinha DA. Laparoscopic treatment of annular pancreas in a neonate. *J Pediatr Surg.* 2021; 71: 101914.
9. Huddleston VS, Lippuner V, Dyer AW. Annular pancreas in an adult presenting with acute pancreatitis. *J Radiol Case Rep.* 2018; 12(10): 11-6.
10. Ladipo-Ajayi O, Ihediwa G, Akinjo AO, Awolola NA, Elebute OA, Ademuyiwa AE. Case report: Neonatal pancreatitis, chromosomal abnormality and duodenal stenosis in a newborn. A new syndrome? *Int J Surg Case Rep.* 2020; 77: 686-91.
11. Lamoshi AY, Abdulhai S, Ponsky TA. Duodenal obstruction in newborns. *Clinical algorithms in general surgery.* Cham: Springer International Publishing; 2019: 499-500.
12. Yang B, He F, He Q, Wang Z, Fang Q, Zhong W, et al. Diagnostic value of the acute angle between the prestenotic and poststenotic duodenum in neonatal annular pancreas. *Eur Radiol.* 2019; 29(6): 2902-9.
13. Florentino E, Betancouth L, Larios N, Velásquez A, Diaz M. Obstrucción intestinal secundaria a páncreas anular [Internet]. *Rev Postgrado Radiol.* 2020. Disponible en: <https://radiologiahn.com/casos-clinicos/obstruccion-intestinal-secundaria-a-pancreas-anular/>
14. Wang D, Kang Q, Shi S, Hu W. Annular pancreas in China: 9 years' experience from a single center. *Pediatr Surg Int.* 2018; 34(8): 823-7.
15. Rueda H, Cárdenas V, Arias L. Obstrucción duodenal congénita de etiología múltiple: reporte de un caso con malrotación intestinal, bandas de Ladd y membrana duodenal intrínseca como causantes de obstrucción intestinal en el neonato. *Rev Chil Radiol.* 2019; 25(4): 146-9.

Correspondencia:

Melissa Patricia Gentile Sánchez

Dirección: Jirón Curazao 587. Lima, Perú.

Teléfono: +51 963751523

Correo electrónico: mgentile800@hotmail.com

Recibido: 07 de junio de 2022

Evaluado: 15 de julio de 2022

Aprobado: 02 de agosto de 2022

© La revista. Publicado por la Universidad de San Martín de Porres, Perú.

 Licencia de Creative Commons. Artículo en acceso abierto bajo términos de Licencia Creative Commons. Atribución 4.0 Internacional. (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>)

ORCID iDs

Luis S. Florian

 <https://orcid.org/0000-0001-6003-1819>

Lizet Cuba Valencia

 <https://orcid.org/0000-0001-8739-2446>

Melissa P. Gentile

 <https://orcid.org/0000-0003-3240-8978>

Raissa B. Bustamante

 <https://orcid.org/0000-0002-0196-1925>

Orlando I. Bayona

 <https://orcid.org/0000-0001-9983-7545>