

Reporte de caso

Quiste de duplicación enteral de la lengua en recién nacido: Reporte de caso

Enteral duplication cyst of the tongue in a newborn: Case report

Jenny Yarely Muñoz Cortes^a, Itzayana Duran Pérez^b, Edmundo Martínez Garza^c, Adriana Nieto Sanjuanero^d

a. Departamento de Neonatología, Hospital Universitario "Dr. José Eleuterio González". Universidad Autónoma de Nuevo León. Monterrey, México.

b. Departamento de Neonatología, Hospital Universitario "Dr. José Eleuterio González". Universidad Autónoma de Nuevo León. Monterrey, México.

c. Departamento de Pediatría, Hospital Universitario "Dr. José Eleuterio González". Universidad Autónoma de Nuevo León. Monterrey, México.

d. Departamento de Neonatología, Hospital Universitario "Dr. José Eleuterio González". Universidad Autónoma de Nuevo León. Monterrey, México.

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido: 18 de enero de 2023

Aceptado: 20 de febrero de 2023

Editor Jefe

Fernando Suárez-Obando

Palabras clave:

Duplicación intestinal

Malformación congénita

Tumor de boca.

R E S U M E N

Antecedentes: los quistes de duplicación enteral son una patología poco frecuente, y muy poco descrita en la literatura, dependiendo de su localización. Son anomalías congénitas con una incidencia de 1 en 4 500 nacimientos, se originan del intestino primitivo e involucran el tracto gastrointestinal desde la cavidad oral hasta el ano. Se pueden diagnosticar de manera prenatal y pueden tener un curso clínico desde asintomático hasta dificultad respiratoria por el nivel de obstrucción. El tratamiento sugerido para esta patología es la escisión quirúrgica conservadora completa para proteger las estructuras cercanas. Se debe considerar esta patología como diagnóstico diferencial de tumoraciones de la cavidad oral en pacientes de población pediátrica, así como también su diagnóstico temprano en periodo prenatal para poder realizar un adecuado abordaje y tratamiento. **Reporte de caso:** Reportamos un caso de un recién nacido, diagnosticado prenatalmente con un quiste de duplicación enteral, la cual se confirma al nacimiento. Se realiza la presentación clínica, procedimiento quirúrgico y resultados del tratamiento. Además. Se realiza revisión de literatura sobre la patología, haciendo énfasis en diagnóstico y tratamiento. **Conclusión:** la presentación de duplicaciones del intestino anterior en la cavidad oral requiere de vigilancia de la vía respiratoria. Es un diagnóstico infrecuente, sin embargo, se debe de tener en cuenta a la hora de abordar una masa en cavidad oral. La resección quirúrgica completa de quiste es el tratamiento de elección, con un pronóstico a largo plazo excelente.

*Autor para correspondencia. Jenny Yarely Muñoz Cortes

Correo electrónico: jymc94@gmail.com

Keywords:

Intestinal duplication
 Congenital anomaly
 Mouth tumor

A B S T R A C T

Background: Enteral duplication cysts are a rare pathology, and very few cases are described in the literature, depending on their location. They are congenital anomalies with an incidence of 1 in 4 500 births, originate from the primitive intestine, and involve the gastrointestinal tract from the oral cavity to the anus. They can be diagnosed prenatally and have a clinical course from asymptomatic to respiratory distress due to obstruction. The suggested treatment for this pathology is complete conservative surgical excision to protect nearby structures. This pathology should be considered a differential diagnosis of oral cavity tumors in pediatric patients. Its early diagnosis in the prenatal period is relevant to carry out an adequate approach and treatment. **Case report:** We report a case of a prenatally newborn diagnosed with an enteral duplication cyst, confirmed at birth. The clinical presentation, surgical procedure, and treatment results are presented, besides a literature review on the pathology is carried out, emphasizing diagnosis and treatment. **Conclusion:** the presentation of duplications of the foregut in the oral cavity requires monitoring of the respiratory tract. It is an infrequent diagnosis; however, it must be considered when dealing with a mass in the oral cavity. Complete surgical resection of the cyst is the treatment of choice, with an excellent long-term prognosis.

Introducción:

El término quiste se define como una cavidad revestida de epitelio, mientras que los términos heterotopía o coristoma se utilizan para describir un órgano o tejido desplazado a una ubicación anormal. Por lo tanto, el quiste gastrointestinal heterotópico o de duplicación intestinal de la cavidad oral es una patología rara y benigna (1). Son anomalías congénitas con una incidencia de 1 en 4 500 nacimientos, se origina del intestino primitivo e involucran el tracto gastrointestinal desde la cavidad oral hasta el ano, con una localización más frecuente en el íleon (más del 40 % de los casos) y solo un 0.3 % reportado en la lengua (2).

Pueden diagnosticarse de manera prenatal mediante ultrasonido, su presentación clínica puede ir desde un cuadro asintomático hasta dificultad respiratoria marcada que requieren intervención quirúrgica de urgencia y hasta el 16 al 26 % cursan con malformaciones asociadas. El tratamiento sugerido para esta patología es la escisión quirúrgica conservadora completa para proteger las estructuras cercanas. Se presenta el caso de

un recién nacido con características clínicas e histopatológicas de quiste de duplicación enteral, evolución y resolución de la patología.

El objetivo del reporte es el de considerar esta patología como diagnóstico diferencial de tumoraciones de la cavidad oral en pacientes de población pediátrica, así como también su diagnóstico temprano en periodo prenatal para poder realizar un adecuado abordaje y tratamiento.

Reporte de caso

Recién nacido masculino, producto de la cuarta gesta de madre de 32 años, aparentemente sana y con adecuado control prenatal y diagnóstico de hipertensión arterial en la semana 14. En ultrasonido de segundo trimestre se reportó quiste en cavidad oral por lo que se programó cesárea a las 38 semanas de gestación, llora y respira al nacer con Apgar 9-9, sin dificultad respiratoria, peso de 3 660 gr, talla de 52 cm y perímetro cefálico de 35 cm. Durante el transoperatorio se realiza punción y aspiración de 20 cm² del quiste y se ingresa para abordaje (Ver imagen 1).



Imagen 1. Drenaje de quiste al nacimiento

Durante su estancia en cuidados intensivos se realizó abordaje en búsqueda de malformaciones asociadas, realizando ecocardiograma el cual se reporta sin alteraciones y ultrasonido abdominal donde se reporta de doble sistema colector derecho, el cual se comenta con urología y se decide seguimiento expectante.

En su evolución se evidencia dificultad para la alimentación, encontrando presencia de incremento de volumen de masa en base de la lengua de aproximadamente 2 cm, de consistencia dura, no dolorosa por lo que se comenta con el servicio de otorrinolaringología para valorar su manejo (Ver imagen 2).

Al quinto día de vida se realiza la extracción quirúrgica total, bajo anestesia general e intubación orotraqueal, de masa ovoide, irregular con un diámetro de 2.6 cm con posterior reconstrucción de la lengua en planos, sin complicaciones y con sangrado mínimo durante el procedimiento (Ver imagen 3).

El reporte histopatológico de la masa en lengua fue quiste de duplicación entérica. La evolución postoperatoria fue adecuada, se extuba a las 48 horas y se inicia la vía enteral, tolerando por succión al 5 día postoperatorio, con egreso a los 10

días. A las 2 semanas se examina en la consulta de seguimiento con succión y deglución adecuadas, así como una adecuada ganancia ponderal.

Discusión

Los quistes heterotópicos son estructuras revestidas de mucosa gastrointestinal y presencia de una pared de músculo liso y estos pueden presentarse a lo largo de todo el tubo digestivo. (2).

Hasta el momento se cree que estos quistes tienen un origen en las células endodérmicas en el desarrollo embrológico, las cuales quedan atrapadas en el estomodeo durante la fusión de los tejidos primordiales, como la fusión de la protuberancia lingual lateral (yema distal de la lengua) y el tubérculo impar (yema medial de la lengua). Estas células se pueden diferenciar en diferentes tipos de epitelio, como tejido gástrico, colónico, intestinal, respiratorio, etc. (3-6).



Imagen 2. Evolución del quiste en sala de observación
En a) Imagen del paciente al nacimiento, en b) Imagen del paciente a las 6 horas de vida

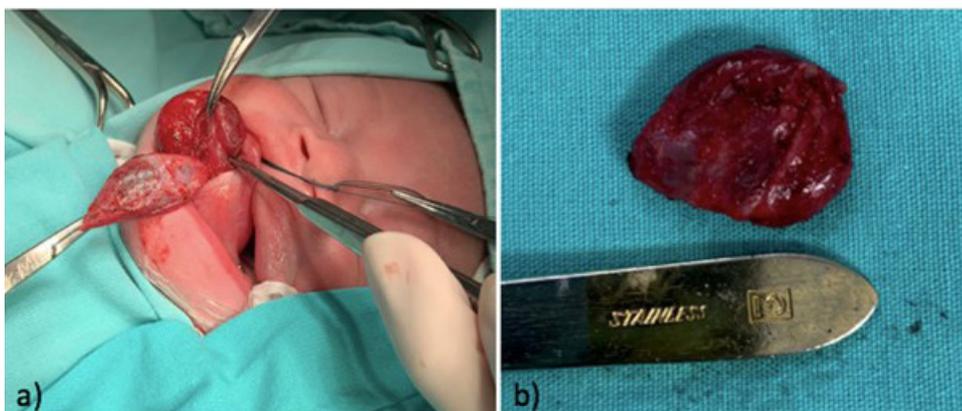


Imagen 3. Resección del quiste
En a) Disección intraoperatoria, en b) Pieza quirúrgica

El diagnóstico se basa en la exploración clínica al nacimiento, sin embargo, lo ideal es la identificación prenatal para preparar el equipo necesario para el manejo inmediato al nacimiento (3).

Las masas en lengua pueden ser asintomáticas, sin embargo, el tamaño puede dificultar la alimentación o comprometer la vía respiratoria, por lo que sería necesario asegurar la vía aérea (2).

En el paciente presentado inicialmente no fue necesario realizar secuencia rápida de intubación, sin embargo, durante su evolución presento incremento de volumen de la masa, comprometiendo la vía aérea y requiriendo la pronta intubación y manejo quirúrgico.

Las masas linguales deben abordarse y encontrar patologías asociadas realizándose un ultrasonido, tomografía o resonancia (3); en el paciente se realizó ecocardiograma reportándose sin alteraciones y ultrasonido abdominal encontrando doble sistema colector derecho.

Los diagnósticos diferenciales de patologías en suelo de la boca son: quiste dermoide en 21.5 %, duplicación quística y ránula 13.6 %, teratoma 12.5 % y en quiste heterotópico gastrointestinal 3.4 % (2), por lo cual el reporte histopatológico es de importancia para el diagnóstico definitivo.

El manejo definitivo es la resección quirúrgica, sin embargo, no existe una edad adecuada para el manejo (2), por lo cual cada caso debe ser individualizado y, se debe tomar en cuenta la dificultad a la alimentación, compromiso respiratorio, alteraciones en el lenguaje, por lo cual un manejo pronto sería lo ideal para una adecuada evolución.

Conclusión

La rara presentación de duplicaciones del intestino anterior en la cavidad oral requiere de vigilancia de la vía respiratoria. Es un diagnóstico infrecuente, sin embargo, se debe de tener en cuenta a la hora de abordar una masa en cavidad oral. Las manifestaciones clínicas de las duplicaciones intestinales son muy inespecíficas y dependen del tipo de duplicación, de su

localización, de la presencia de mucosa gástrica heterotópica y de las complicaciones que pudiesen ocasionar.

La resección quirúrgica completa de quiste es el tratamiento de elección, ya que la aspiración por si sola da como resultado la recurrencia. El pronóstico a largo plazo es excelente, sin recurrencias reportadas y con recuperación completa.

Agradecimientos

Agradecemos al departamento de Neonatología y Otorrinolaringología del Hospital Universitario Dr. José Eleuterio González quienes nos apoyaron con la obtención de las imágenes descritas.

Conflictos de Interés Los autores declaran que no existen conflictos de interés.

REFERENCIAS :

1. Arango de Samper, B., Muñoz López, E. E., & Morales González, E. Quieste gastrointestinal heterotópico en la cavidad oral. *Latin American Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2021;1(1): 40-44.
2. Duplicación quística intestinal. Caso clínico. *Archivos argentinos de Pediatría*. 2017;115(4):e233-e236.
3. Milán-Montenegro, José Guillermo, Jaramillo-Rodríguez, Yolanda, Nares-Cisneros, Jesús, & Guerrero-Sepúlveda, Jaime. Duplicación del tubo digestivo manifestada como quiste lingual: Caso clínico y revisión de la literatura. *Boletín médico del Hospital Infantil de México* 2017;71(3):163-166.
4. Bains GK, Pilkington R, Stafford J, Bhatia S. A case report of oral heterotopic gastrointestinal cysts (HGIC) and review of the literature. *Oral Surg*. 2021;1(1):40-44.
5. Solano N, Gómez-Delgado A, Sarmiento L, Pérez L. Congenital heterotopic gastrointestinal cyst of the oral cavity: report of rare case. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2016;54(8):969-970.
6. Lipsett J, Sparnon AL, Byard RW. Embryogenesis of enterocystomas- enteric duplication cysts of the tongue. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1993;75(5): 626-630.