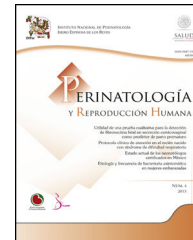




PERINATOLOGÍA Y REPRODUCCIÓN HUMANA

www.elsevier.es/rprh



ORIGINAL

Gastrosquisis: resultados en una institución de tercer nivel



A.J. Machuca Vaca^{a,*}, O. Guido Ramíres^a, L.A. Fernández Carrocera^b,
G. Cordero González^b, E. Yllescas Medrano^b, S. Carrera Muiños^b y E. Corral Kassian^b

^a Cirugía neonatal, Instituto Nacional de Perinatología, Ciudad de México, México

^b Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales, Instituto Nacional de Perinatología, Ciudad de México, México

Recibido el 27 de abril de 2017; aceptado el 16 de octubre de 2017

Disponible en Internet el 27 de noviembre de 2017

PALABRAS CLAVE

Gastrosquisis;
Defecto de pared
abdominal;
Recién nacidos

Resumen

Introducción: La gastrosquisis es un defecto congénito de la pared abdominal, su incidencia varía de 1.6 a 4.6 por 10,000; se localiza en forma lateral en relación a un cordón umbilical normoinserto, y no tiene saco de recubrimiento.

Material y métodos: Estudio retrospectivo y descriptivo de casos nacidos en el Instituto Nacional de Perinatología de 1996 a 2010; se observó la frecuencia de factores demográficos, cierre primario y diferido, el tamaño del defecto y los órganos involucrados, el cierre definitivo, la morbilidad, el inicio de la alimentación, el tiempo de alimentación completa y las malformaciones asociadas.

Resultados: La muestra fue de 228 casos; la tasa general de $30.5 \times 10,000$ RNV, el 55% de la edad materna correspondió a 20 o menos años y el 9% fue de 15 años o menos. En el 93% se realizó el diagnóstico prenatal, el 77% pesó 2,500 g o menos; la mortalidad fue del 6%. En relación con la morbilidad asociada, el mayor porcentaje lo presentó la sepsis con el 28%, seguido del síndrome colestásico con 16%, el 5% presentó intestino corto, solamente el 2% presentó displasia broncopulmonar; la instalación del silo se realizó a las 22 h de vida; al 86% se les practicó entre 1 a 3 reducciones del contenido antes de su cierre definitivo. Fueron ventilados en promedio 9 días, con inicio de la alimentación a los 17 días y la alimentación total se logró a los 22 días de vida.

Conclusión: La gastrosquisis es un defecto de pared abdominal frecuente que debe tratarse por un equipo multidisciplinario en una hospital de tercer nivel de atención. Nuestros resultados son comparables con la literatura internacional.

© 2017 Instituto Nacional de Perinatología Isidro Espinosa de los Reyes. Publicado por Masson Doyma México S.A. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: ajmachuca@yahoo.com.mx (A.J. Machuca Vaca).

KEYWORDS

Gastroschisis;
Abdominal wall
defects;
Neonate

Gastroschisis: Results in a third level institution**Abstract**

Introduction: Gastroschisis is a congenital abdominal wall defect, with an incidence that varies between 1.6 to 4.6 cases per 10,000 live births. It is located to the side of the umbilical cord, has no sac and has a normal insertion umbilical cord.

Material and methods: A retrospective, descriptive study of cases born in the Instituto Nacional de Perinatología between 1996 and 2010. A record was made of the frequency of demographic factors, surgical management, size of the defect and organs involved, morbidity, oral feeds, time to full feed, and associated malformations.

Results: There were 228 cases, with an incidence $30.5 \times 10,000$ live births. The majority (55%) of the mothers were less than 20 years old, and 9% were younger than 15 years old. There was prenatal diagnosis in 93%, 77% weighed 2500 g or less, and mortality was 6%. The most frequent associated morbidity was sepsis in 28%, followed by cholestasis in 16%, and short bowel syndrome in 5%. Only 2% had bronchopulmonary dysplasia. A silo was applied at 22 hours of life, with 86% requiring assisted ventilation for a mean of 9 days. Enteral feeding began at 17 days, and full feeding at 22 days of life.

Conclusion: Gastroschisis is a frequent abdominal wall defect that must be treated by a multi-disciplinary team at a third level hospital. Our results are similar those reported in international literature.

© 2017 Instituto Nacional de Perinatología Isidro Espinosa de los Reyes. Published by Masson Doyma México S.A. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La gastrosquisis es un defecto congénito de la pared abdominal, su incidencia varía de 1.6 a $4.6 \times 10,000$ RNV, aunque puede ser diferente de acuerdo al país; se localiza en forma lateral en relación con el cordón umbilical. El tamaño del defecto suele ser pequeño, de 2 a 4 cm, con saco ausente e inserción normal del cordón, el contenido varía puede observarse estómago, hígado, gónadas, etc., puede encontrarse malrotación intestinal e íleo prolongado. Existen factores de riesgo conocidos, como la edad materna, ingestión de alcohol, tabaco, algunos teratógenos ambientales, utilización de drogas, medicamentos vasoactivos y factores genéticos y hereditarios¹⁻³.

En 1943, Watkins realizó el cierre primario de una gastrosquisis, siendo la primera reparación exitosa con sobrevida del recién nacido⁴. A pesar de este éxito, la mortalidad siguió siendo alta⁵. La introducción del silo para la reparación del defecto por Schuster en 1967⁶, la mayor disponibilidad de recursos para apoyar al recién nacido, la ventilación y la nutrición parenteral entre otros, resultó en una mejoría en la supervivencia⁷. Este defecto congénito de la pared abdominal una vez asociado con una mortalidad extremadamente alta, ahora tiene tasas de supervivencia superiores al 90 en diversas series⁸.

Se han intentado diversas terapias prenatales sin resultados satisfactorios como el intercambio amniótico, amnioinfusión y furosemida intraamniótico⁹⁻¹¹.

Algunos artículos informan que la estancia hospitalaria oscila entre 35 a 41 días con un costo que va de 155,629 a 172,000 USD^{12,13}, el representando una carga significativa a los sistemas de salud¹⁴.

Por otro lado, se han descrito diferentes técnicas quirúrgicas: cierre abdominal primario, cierre abdominal diferido

por etapas mediante la utilización de un silo (preformado o de fabricación quirúrgica) y más recientemente, «turbante umbilical» o cierre de plástico; hasta el momento no existe evidencia clara de cuál es el mejor método ya que intervienen diversos factores^{4,15}.

En el 2003, Schlatter et al. realizan un estudio comparando el cierre primario contra la corrección del defecto por medio del silo y encuentran diferencia significativa a favor del silo en días de ventilación, inicio de la alimentación, días de alimentación completa, enterocolitis necrosante, disminución de las infecciones y días de hospital⁸.

Kunz et al. realizan un metaanálisis comparando la utilización de silo para corrección, la preferencia del cirujano de uno u otro método y la falla en el cierre primario, encontró que para el silo disminuyeron los días de ventilador, el inicio de la alimentación enteral y la disminución de la infección; el riesgo para mortalidad no disminuyó. Este metaanálisis demuestra que en estudios con menos sesgo de selección el cierre con silo se asocia a mejores resultados para los pacientes con gastrosquisis; los resultados también destacan la importancia de evaluar el sesgo antes de sacar conclusiones¹⁶.

Material y métodos

Se trata de un estudio retrospectivo y descriptivo de casos de gastrosquisis nacidos en el Instituto Nacional de Perinatología entre los años 1996 a 2010; se recopilaron 228 casos; se observó la frecuencia de factores demográficos, el tipo de cierre (primario o por etapas), el tamaño del defecto y los órganos involucrados, la morbilidad, el tiempo para el cierre definitivo, el inicio de la alimentación, la alimentación completa, además de malformaciones asociadas.

Los pacientes diagnosticados fueron atendidos en la unidad de tococirugía de la institución por un equipo multidisciplinario de cirujanos, neonatólogos y enfermeras. Las vísceras involucradas fueron cubiertas inmediatamente en forma temporal con gasas con solución salina; el paciente fue estabilizado y trasladado a la unidad de cuidados intensivos neonatales para la instalación ya sea del silo o el cierre primario.

Se excluyó a todos los pacientes que no se encontró el expediente clínico.

Para el análisis de los datos se utilizaron frecuencias y porcentajes y rangos.

Resultados

La tasa fue de $30.5 \times 10,000$ RNV. La estancia hospitalaria en promedio fue de 39 días con rango de 14 a 123 días; la mortalidad fue del 6%; el 43% fue cierre primario y el 56% diferido (tabla 1). El 85% se presentó en madres de 25 años o menos y en el 55% correspondió a 20 o menos años, el 9% fueron de 15 años o menos. El 92% fueron gestación 1 y 2: solamente el 60% tuvo control prenatal en el Instituto. En el 93% se realizó el diagnóstico prenatal; el 96% nació por cesárea. En relación con algunos factores que se han asociado a un aumento en el riesgo para la gastrosquisis; el tabaquismo se presentó en el 7%, consumo de alcohol en el 5% y cocaína en el 2%, entre otros.

El 55% fueron del sexo femenino, el 47% recién nacidos prematuros; el Apgar mayor o igual a 7 al minuto de vida predominó con un 72% y a los 5 minutos el 98%; el 77% pesó 2,500 g o menos, solamente en 2 pacientes se asoció a síndromes, uno con Eagle-Barret y uno con displasia esquelética.

En la tabla 2 se muestran los órganos involucrados en el defecto, donde destacan estómago, intestino delgado y colon.

En relación con la morbilidad asociada, el 52% no presentó ninguna. El mayor porcentaje lo presentó la sepsis

Tabla 1 Clasificación del cierre del defecto

Cierre del defecto (%)

Ninguna 1

Cierre primario 43

Cierre diferido 56

Tabla 2 Órganos involucrados en el defecto

Tamaño del defecto	3.3 cm (0.5-4 cm)
Órganos involucrados	Frecuencia (%)
Estómago	135 (59)
Intestino delgado	227 (99)
Colon	186 (82)
Hígado	2 (0.88)
Útero	17 (7.5)
Trompa de Falopio	36 (16)
Ovario	36 (16)
Testículo	22 (10)
Vejiga	6 (3)

Tabla 3 Morbilidad asociada a la gastrosquisis

Morbilidad	Frecuencia (%)
Ninguna	118 (52)
Sepsis	64 (28)
Síndrome colestásico	37 (16)
Infección y dehiscencia herida quirúrgica	16 (7)
Intestino corto	11 (5)
Crisis convulsivas	6 (3)
Oclusión por bridas	5 (2)
Displasia broncopulmonar	4 (2)
Hemorragia intraventricular	3 (1)
Otros	8 (3.5)

Tabla 4 Seguimiento de algunas variables

Variables	Promedio (rango)
Instalación quirúrgica del silo	22 h (1 h-7 días)
Cierre definitivo	7 días (3-13 días)
Sedación y relajación	4 días (1-27 días)
Ventilación	9 días (1-32 días)
Inicio alimentación	17 días (10-48 días)
Alimentación total	22 días (12-96 días)
Estancia hospitalaria	39 días (14-123 días)

Tabla 5 Patologías asociadas al defecto

Malformaciones asociadas	Frecuencia (%)
Atresia intestinal	37 (16.2)
Criptorquidia	56 (53.85)
Hernia inguinal	32 (14)
Anomalías cardíacas	13 (6)
Artrogriposis	1 (0.45)

con el 28%, seguida del síndrome colestásico con el 16%, el 5% intestino corto, el 2% displasia broncopulmonar y el 1% hemorragia intraventricular (tabla 3).

En los neonatos a los que se les aplicó silo, la instalación quirúrgica se realizó en promedio a las 22 h de vida dentro de la sala de cuidados intensivos neonatales, con un rango de 1 h a 7 días; al 86% se les practicó entre 1 a 3 reducciones del contenido del silo antes de su cierre definitivo, que ocurrió en promedio los 7 días de vida. Fueron ventilados en promedio 9 días, con inicio de la alimentación a los 17 días, y la alimentación total se logró a los 22 días de vida (tabla 4).

Por último, la patología que se asoció con mayor frecuencia fue la atresia intestinal en el 16% de los pacientes y en los pacientes masculinos la criptorquidia (tabla 5).

Discusión

Uno de los acontecimientos médicos más impactantes sin duda son los defectos de pared abdominal, en este caso, la gastrosquisis. Esta patología fue frustrante por décadas, ya que la mortalidad era muy alta, hasta el 95%⁸; sin embargo, a través del tiempo, la introducción de nuevas técnicas quirúrgicas, la creación de unidades de cuidados

intensivos neonatales, la alimentación parenteral y el mejor conocimiento de la patología, ha revertido el impacto de la enfermedad sobre la mortalidad, aunque los porcentajes varían de acuerdo al país y sus condiciones sanitarias, por ejemplo, en una publicación brasileña la mortalidad alcanzó hasta el 25%; sin embargo, en otras publicaciones informan mortalidades bajas, del 3 al 10%^{8,17-20}; nuestra mortalidad es comparable con estos reportes, siendo del 6%, aunque cabe mencionar que el 83% de dicha mortalidad ocurrió en las pacientes que tuvieron intestino corto. Con respecto a la incidencia, esta es variable, pudiendo ir de 1.3 a $4.6 \times 10,000$ RNV; la encontrada en este trabajo fue de $30.5 \times 10,000$, tomando en cuenta que nuestro Instituto es un centro de concentración de embarazos de alto riesgo^{1-3,16,18}. La edad materna es un factor importante en esta patología, ya que este se presenta en madres jóvenes, en su mayoría menores de 20 años: En este trabajo, el 55% tuvo menos de 20 años; la literatura informa consistentemente de esta condición^{18,21,22}.

Actualmente son conocidos algunos riesgos que se han asociado a los defectos de pared abdominal, como descongestionantes nasales, analgésicos como salicilatos, alcohol, tabaco, polimorfismos, etc. En este trabajo se encontró el 7% de consumo de tabaco, el 5% de alcohol y el 2% de cocaína^{8,18,23,24}.

En relación con los días de estancia hospitalaria, el trabajo arroja 39 días, con un rango de 14 a 123 días de estancia, lo que concuerda con diferentes artículos que van de 25 hasta más de 45 días, con rangos de 0 a 365 días^{21,22,25}.

Continúa siendo controvertida la resolución del embarazo. En el estudio que nos ocupa la resolución se dio en el 96% por cesárea; se aduce que si la resolución es vaginal puede generarse mayor compromiso de los elementos expuestos y un aumento de las infecciones; sin embargo, no son claras las diferencias entre la cesárea y la vía vaginal^{17,24,26}.

En el 56%, el cierre fue diferido con la instalación de silo quirúrgico; al respecto, existe controversia en relación a cuál de los procedimientos es mejor (cierre primario o silo). El tipo de procedimiento depende de varios factores, como el tamaño del defecto, el tipo de vísceras involucradas, entre otros, aunque algunas series no evidencian diferencias en la morbilidad en relación con los órganos involucrados, como tampoco las hubo en el presente trabajo, aunque existe evidencia significativa en relación con menos días de inicio de la alimentación y alimentación completa, menos días de ventilación y de estancia hospitalaria a favor del silo^{4,8,15,16,20,22,24}.

Uno de los factores importantes para una buena recuperación es el inicio de la alimentación y cuando esta se logró totalmente es conocido el efecto que se genera con el ayuno a nivel intestinal, como atrofia de las vellosidades, alteración de la función pancreática, aumento de infecciones y mayor estancia hospitalaria. En este trabajo, el inicio fue en promedio los 17 días y la alimentación completa a los 22 días. Existen numerosas publicaciones que dan importancia a este tópico y los resultados son variables; los nuestros se encuentran dentro del rango de dichas publicaciones^{20,22,26}.

Por último, las infecciones, como la sepsis, siempre se encuentran presentes en este tipo de defectos. En este trabajo se presentó en el 28%. Kunz et al., en su metaanálisis, advierten de un aumento de riesgo para infecciones en gas-

trosquisis (OR 0.46, IC del 95% 0.23-0.92¹⁶); Silva Carvahlo et al. refieren en su artículo el 77% de cultivos positivos¹⁷; Lusk et al. hablan de bacteriemias hasta el 17%²⁰ y Akshaya et al. de un 44% de prevalencia²³.

Conclusión

La gastrosquisis es un defecto de la pared abdominal que debe tratarse por un equipo multidisciplinario en un hospital de tercer nivel de atención para obtener los mejores resultados. Nuestros resultados son comparables con la literatura internacional.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Saleem I. Clinical care outcomes in abdominal wall defects. *Current Opinion in Pediatrics*. 2008;20:305-10.
2. Penman DG, Fisher RM, Noblett HR, Soothill PW. Increase in incidence of gastroschisis in the south west of England in 1995. *Br J Obstet Gynaecol*. 1998;105:328-31.
3. Kilby MD. The incidence of gastroschisis. *MBJ*. 2006;332:250-1.
4. Watkins D. Gastroschisis. *Van Med Mon*. 1943;70:42.
5. Di Lorenzo M, Yazbeck S, Ducarme JC. Gastroschisis: 15-year experience. *J Pediatr Surg*. 1987;22:710-2.
6. Schster SR. A new method for the staged repair of large omphaloceles. *Surg Gynecol Obstet*. 1967;125:837-50.
7. Charlesworth P, Akinola I, Hammerton C, Praveena P, Desai A, Patel S, et al. Preformed silos versus traditional abdominal wall closure in gastroschisis: 163 infants at a single institution. *Eur J Pediatr Surg*. 2014;24:88-93.
8. Schlatter M, Norris K, Uitvlugt N, DeCou J, Connors R. Improved outcomes in the treatment of gastroschisis using a preformed silo and delayed repair approach. *Journal of Pediatric Surgery*. 2003;38:459-64.
9. Luton D, de Lagausie P, Guibourdenche J, Oury JF, Sibony O, Vuillard E, et al. Effect of amniocentesis on the outcome of prenatally diagnosed gastroschisis. *Fetal Diagn Ther*. 1999;14:152-5.
10. Aktug T, Demir N, Akgür F, Olguner M, et al. Pretreatment of gastroschisis with transabdominal amniotic fluid exchange. *Obstet Gynecol*. 1998;51:821-3.
11. Hakguder G, Ates O, Olguner M, Api A, Ozdoğan O, Değirmenci B, et al. Induction of fetal diuresis with intraamniotic furosemide increases the clearance of intraamniotic substances: An alternative therapy aimed at reducing intraamniotic meconium concentration. *J Pediatr Surg*. 2002;37:1337-42.
12. Centers for Disease Control and Prevention. Hospital stays, hospital charges, and in-hospital deaths among infants with selected birth defects. United States, 2003. *MMWR Morb Mortal Wkly Rep*. 2007;56:25-9.
13. Lao OB, Larison C, Garrison MM, Waldhausen JH, Goldin AB, et al. Outcomes in neonates with gastroschisis in U.S. children's hospitals. *Am J Perinatol*. 2010;27:97-101.
14. Sisko AM, Truffer CJ, Keehan SP, Poisal JA, Clemens MK, Madison AJ, et al. National health spending projections: The estimated impact of reform through 2019. *Health Aff (Millwood)*. 2010;29:1933-41.
15. Chabra S. Management of gastroschisis: Prenatal, perinatal, and neonatal. *Neoreviews*. 2006;7:e419.

16. Kunz SN, Tieder JS, Whitlock K, Jackson JC, Avansino JE. Primary fascial closure versus staged closure with silo in patients with gastroschisis: A meta-analysis. *J Pediatr Surg.* 2013;48:845–57.
17. Silva Carvahlo NS, Micheletti elfer TM, de Oliveira Serni P, Terasaka OA, Araujo Júnior E, Nardoza LM, et al. Postnatal outcomes of infants with gastroschisis: A 5 year follow-up in a tertiary center in Brazil. *J Matern Fetal Neonatal Med.* 2016;29:418–22.
18. Holland AJA, Walker K, Badawi N. Gastroschisis: An update. *Pediatr Surg Int.* 2010;26:871–8.
19. Henrich K, Huemmer HP, Reingruber B, Weber PG. Gastroschisis and omphalocele: Treatment and long-term. *Pediatr Surg Int.* 2008;24:167–73.
20. Lusk LA, Brown EG, Overcash RT, Grogan TR, Keller RL, Kim JH, et al. Multi-institutional practice patterns and outcomes in uncomplicated gastroschisis: A report from the University of California Fetal Consortium (UCFC). *J Pediatr Surg.* 2014;49:1782–6.
21. Weil BR, Leys CM, Rescorla FJ. The jury is still out: Changes in gastroschisis management over the last decade are associated with both benefits and shortcomings. *J Pediatr Surg.* 2012;47:119–24.
22. Schlatter M, Norris K, Uitvlugt N, DeCou J, Connors R. Improved outcomes in the treatment of gastroschisis using a preformed silo and delayed repair approach. *J Pediatr Surg.* 2003;38:459–64.
23. Gamba P, Midrio P. Abdominal wall defects: Prenatal diagnosis, newborn management and long-term outcomes. *Semin Pediatr Surg.* 2014;23:283–90.
24. Weber TR, Au-Fliegner M, Downard C, Fishman SJ. Abdominal wall defects. *Curr Opin Pediatr.* 2002;14:491–7.
25. Vachharajani AJ, Dillon PA, Mathur AM. Outcomes in neonatal gastroschisis: An institutional experience. *Am J Perinatol.* 2007;24:461–6.
26. Drewett M, Michailidis GD, Burge D. The perinatal management of gastroschisis. *Early Human Development.* 2006;82:305–12.