

Boletín Médico del Hospital Infantil de México

www.elsevier.es



CASO CLÍNICO

Duplicación del tubo digestivo manifestada como quiste lingual. Caso clínico y revisión de la literatura

José Guillermo Milán-Montenegro^{a,*}, Yolanda Jaramillo-Rodríguez^b,
Jesús Nares-Cisneros^c y Jaime Guerrero-Sepúlveda^d

^aServicio de Cirugía Pediátrica, Hospital Universitario, Facultad de Medicina, Universidad Autónoma de Coahuila, Torreón, Coahuila, México

^bJefatura de Investigación, Unidad Médica de Alta Especialidad, Hospital de Especialidades No. 71, Instituto Mexicano del Seguro Social, Torreón, Coahuila, México

^cServicio de Gastroenterología y Nutrición Pediátrica, Unidad Médica de Alta Especialidad, Hospital de Especialidades No. 71, Instituto Mexicano del Seguro Social, Torreón, Coahuila, México

^dDirección Médica de Beneficencia Española de La Laguna, Sanatorio Español, Torreón, Coahuila, México

Recibido el 8 de abril de 2014; aceptado el 15 de abril de 2014

PALABRAS CLAVE

Duplicación de tubo
digestivo;
Quiste lingual

Resumen

Introducción: Los quistes de duplicación intestinal son anomalías poco frecuentes que se presentan principalmente en el período perinatal, y pueden causar problemas respiratorios y para la alimentación. Los quistes sublinguales de duplicación intestinal pueden presentar solo epitelio del aparato digestivo, del respiratorio o de ambos. En los dos últimos casos se denominan coristomas.

Caso clínico: Se describe un caso de un paciente de 10 meses de edad que presentó una masa quística sublingual desde el nacimiento. Se realizó la resección total con abordaje transoral y la reconstrucción de la lengua en planos. La pieza quirúrgica resultó una estructura quística de contenido mucoso, de 23 × 17 × 11 mm y color marrón. El revestimiento del quiste estaba formado por mucosa gástrica, con epitelio foveolar y glándulas formadas por células parietales y principales.

Conclusiones: El quiste de duplicación intestinal es una entidad extremadamente rara. El abordaje quirúrgico es eficaz y curativo con mínima morbilidad y mortalidad, sin recurrencia en su seguimiento.

© 2014 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Masson Doyma México S.A. Todos los derechos reservados.

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: memomilan@yahoo.com.mx (J.G. Milán-Montenegro).

KEYWORDS

Enteric duplication;
Lingual cyst

Enteric duplication presented as lingual cyst. Case report and literature review**Abstract**

Background: Intestinal duplication cysts are rare abnormalities that occur primarily during the perinatal period and may cause problems for feeding and/or breathing. Sublingual intestinal duplication cysts can present either gastrointestinal epithelium or respiratory or both; the latter two cases are called choristomas.

Case report: We describe a 10-month-old infant who presented a sublingual cystic mass at birth. Total successful transoral resection and reconstruction of the tongue was performed in planes. The surgical specimen was a brown cystic structure of mucoid content with dimensions of $23 \times 17 \times 11$ mm. The cyst lining consists of gastric mucosa with foveolar epithelium and glands composed of parietal and chief cells.

Conclusions: The intestinal duplication cyst is an extremely rare entity. The surgical approach is effective and curative with minimal morbidity and mortality and without recurrence in follow-up.

© 2014 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Published by Masson Doyma México S.A. All rights reserved.

1. Introducción

Los quistes de duplicación entérica se encuentran principalmente en el intestino delgado¹. Su frecuencia de presentación en la lengua anterior ocurre solamente en el 0.3% de los casos². Son entidades desafiantes para el pediatra y el cirujano, ya que la mayoría de las lesiones se encuentran en la parte ventral de la lengua anterior, y extendidas hasta el suelo de la boca.

Se pueden detectar antes o después del nacimiento³. Algunos casos cursan asintomáticos⁴; otros presentan dificultad respiratoria y requieren una intervención quirúrgica de emergencia⁵. Por ello, es necesario realizar el diagnóstico durante el examen prenatal, lo que permite la preparación del personal y el equipo necesario para el manejo adecuado de estos recién nacidos durante el parto. Debido a la posibilidad de obstrucción de las vías respiratorias en el parto, la preparación para la traqueotomía inmediata es muy importante cuando la intubación oral es imposible⁶ o cuando se requiere una cirugía intraparto ex útero⁷ (EXIT).

Algunos pacientes no presentan dificultad respiratoria a pesar del tamaño de la masa en lengua anterior, cuando el diámetro oscila entre 1.05 a 2.04 cm⁸. Otros quistes llegan a medir hasta 6.5 cm de diámetro y, por su tamaño, se consideran gigantes. Pueden causar dificultades en la alimentación y la obstrucción parcial de las vías respiratorias durante el sueño⁹.

El caso que se reporta presentó muchos aspectos del diagnóstico y el tratamiento quirúrgico de la lesión inusual. También se realizó la revisión de la literatura del diagnóstico diferencial y los hallazgos histopatológicos.

2. Caso clínico

Lactante masculino con los siguientes antecedentes: producto del primer embarazo, madre de 21 años de edad. Por alteraciones del ritmo cardíaco del producto se programó cesárea a las 30 semanas de gestación. Al nacimiento lloró y respiró, Apgar de 6-7, peso de 1,470 g y talla de 41 cm.

Permaneció internado por un mes. Egresó con un peso de 1,940 g y talla de 46 cm. Fue alimentado al seno materno.

En su primera revisión, al mes de vida, pesó 2,100 g y su talla fue de 46 cm. Se encontró inflamación quística que ocupaba el lado izquierdo de la lengua, aproximadamente de 2 cm de diámetro, de consistencia dura, no dolorosa. Así mismo, presentó hidrocele derecho y hernia inguinal bilateral. Se sugirió realizar cirugía del quiste lingual, pero los familiares decidieron esperar.

A los 4 meses de edad se realizó hernioplastia inguinal bilateral en otra institución.

Desde los 6 meses de edad mostró dificultad para la aceptación de biberón y llanto frecuente.

Regresó a los 9 meses de edad, con peso de 8 kg y talla de 68 cm. El tumor había aumentado aproximadamente a 2.3 cm de diámetro.

A los 10 meses de edad, y bajo anestesia general con intubación orotraqueal, se llevó a cabo la resección total del quiste (fig. 1). Su forma era ovoide, irregular y con un



Figura 1 Disección intraoperatoria que muestra una masa quística bien definida de forma ovoide, irregular y con un diámetro de 2.3 cm en el piso de la boca.

diámetro de 2.3 cm. Se efectuó la reconstrucción de la lengua en planos, con material reabsorbible. El resultado fue bastante satisfactorio y con sangrado mínimo (menor de 5 cc).

La evolución postoperatoria fue excelente. A partir del siguiente día se inició tolerancia oral, primero con solución glucosada y posteriormente con fórmula láctea. Se dio de alta a las 28 horas de su intervención.

La pieza quirúrgica fue una estructura de quística de $2.3 \times 1.7 \times 1.1$ cm, de superficie irregular y color marrón. En los cortes seriados se observó una cavidad de 0.8 cm, de paredes de 0.3 cm de espesor. El revestimiento epitelial estuvo formado por mucosa gástrica con epitelio foveolar y glándulas revestidas por células parietales y principales. El estroma circundante mostró algunos linfocitos maduros. Este epitelio alternó con epitelio simple escamoso estratificado maduro y glándulas mucoseras. La pared estuvo formada por músculo liso circular y longitudinal. El reporte histopatológico fue duplicación quística del intestino anterior (fig. 2).

El paciente fue examinado una semana después. La succión y deglución fueron adecuadas y sin dolor. El aspecto estético de la intervención fue muy satisfactorio. En la actualidad tiene 13 meses de edad, y su crecimiento y desarrollo son adecuados para la edad.

3. Discusión

Ante un recién nacido con presencia de una masa en los dos tercios anteriores de la lengua deben tomarse en consideración varios posibles diagnósticos diferenciales, como ránula, linfangioma, hemangioma, quiste dermoide, quiste epidermoide, quiste de retención, neurofibroma, teratoma, quiste ductal tirogloso, mucocele, quiste linfoepitelial, higromas quísticos o coristoma lingual¹⁰⁻¹⁴. El coristoma, a diferencia de las duplicaciones del intestino anterior, está revestido por epitelio propio del aparato digestivo y respiratorio, como los casos que reportaron Burkat y colaboradores¹⁵. Los quistes linguales se pueden presentar a lo largo de todo el aparato digestivo, desde el esófago hasta el colon¹⁶, y en otros órganos, como la vesícula biliar, páncreas, pulmones,

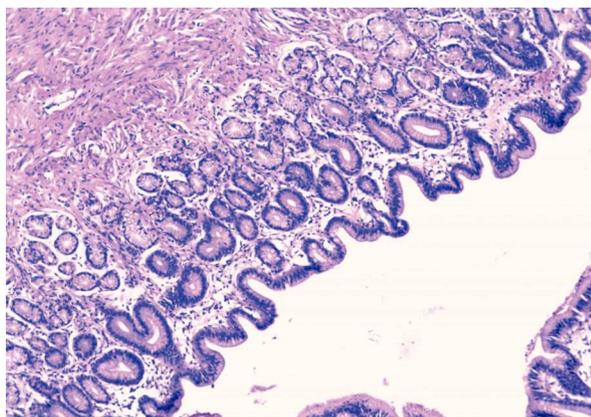


Figura 2 Pared de quiste donde se observa mucosa gástrica con glándulas revestidas por células parietales y principales (HE, 10x).

laringe y vejiga¹⁷. Los quistes de duplicación entérica son raros en la lengua, y su luz puede comunicar raramente con la luz del aparato digestivo. Frecuentemente existen como quistes separados o lesiones tubulares que semejan un segmento del intestino normal.

Se han descrito los criterios diagnósticos para los quistes de duplicación entérica, que incluyen la presencia de una cubierta de músculo liso, el quiste añadido a una parte del aparato digestivo y la presencia de un revestimiento de la mucosa del aparato digestivo, que es una variedad gástrica¹⁸. Esta mucosa gástrica heterotópica se puede ulcerar en algunos casos y en otros, se encuentra más de un tipo de mucosa, como en este caso.

Estos quistes son un grupo heterogéneo de lesiones que comparten algunos hallazgos morfológicos, quizás con diferente patogénesis². Se cree que estos quistes surgen de las células endodérmicas que quedan atrapadas durante la fusión de la protuberancia lingual lateral (de la yema lingual distal) y el tuberculum impar lateral (yema lingual media) en un embrión de 3.4 mm^{2,9,19}. Son células que derivan del estomodeo²⁰ o invaginación ectodérmica del embrión, de donde se forman la boca y la faringe. Estas células pluripotenciales pueden diferenciarse en varios tipos de epitelio, incluyendo gástrico, intestinal, colónico, o incluso respiratorio²¹.

El abordaje de estudio en niños con una masa lingual incluye ultrasonido, tomografía computada y resonancia magnética nuclear²².

El tratamiento consiste en la resección quirúrgica completa⁴. En la literatura solamente se refiere un reporte de recurrencia donde se había realizado la resección incompleta del quiste.

En los diagnósticos diferenciales de una masa quística lingual en todo niño debe considerarse al quiste de duplicación de intestino anterior y su abordaje quirúrgico temprano es muy importante para evitar en el futuro alteraciones para su alimentación, lo que ocasionaría falta de incremento de peso y talla además de posibles trastornos respiratorios.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Referencias

1. Willner A, Feghali J, Bassila M. An enteric duplication cyst occurring in the anterior two-thirds of the tongue. *Int J Pediatr Otorrhinolaryngol.* 1991;21:169-77.
2. Lipsett J, Sparnon A, Byard R. Embryogenesis of enterocystomas—enteric duplication cysts of the tongue. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1993;75:626-30.
3. el-Bitar MA, Milmoie G, Kumar S. Intralingual foregut duplication cyst in a newborn. *Ear Nose Throat J.* 2003;82:454-6.
4. Tucker R, Maddalozzo J, Chou P. Sublingual enteric duplication cyst. *Arch Pathol Lab Med.* 2000;124:614-5.
5. Duncan GW, Daniel RA Jr. Cystic tumor of the tongue. Report of an unusual case. *Arch Surg.* 1942;44:164-9.
6. Chen MK, Gross E, Lobe TE. Perinatal management of enteric duplication cysts of the tongue. *Am J Perinatol.* 1997;14:161-3.

7. Hall NJ, Ade-Ajayi N, Peebles D, Pierro A. Antenatally diagnosed duplication cyst of the tongue: modern imaging modalities assist perinatal management. *Pediatr Surg Int.* 2005;21:289-91.
8. Eaton D, Billings K, Timmons C, Booth T, Biavati JM. Congenital foregut duplication cysts of the anterior tongue. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2001;127:1484-7.
9. Grime PD. Giant enterocystoma within an infant's tongue. *J Laryngol Otol.* 1990;104:814-8.
10. Lister J, Zachary RB. Cyst duplications in the tongue. *J Pediatr Surg.* 1968;3:491-3.11. Mirchandani R, Sciubba J, Gloster ES. Congenital oral cyst with heterotopic gastrointestinal and respiratory mucosa. *Arch Pathol Lab Med.* 1989;113:1301-2.
12. Mandell DL, Ranganathan S, Bluestone CD. Neonatal lingual choristoma with respiratory and gastric epithelium. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2002;128:1321-4.
13. Manor Y, Buchner A, Peleg M, Taicher S. Lingual cyst with respiratory epithelium: an entity of debatable histogenesis. *J Oral Maxillofac Surg.* 1999;57:124-7.
14. Kim YS, Ahn SK, Lee SH. Sublingual foregut cyst. *J Dermatol.* 1998;25:476-8.
15. Burkart CM, Brinkman JA, Willging JP, Elluru RG. Lingual cyst lined by squamous epithelium. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2005;69:1649-53.
16. Ohbayashi Y, Miyake M, Nagahata S. Gastrointestinal cyst of the tongue: a possible duplication cyst of foregut origin. *J Oral Maxillofac Surg.* 1997;55:626-30.
17. Parikh DH, Ibrahim SK, Cook RC. Peptic ulceration in a lingual sinus. *J Pediatr Surg.* 1991;26:99-100.
18. Brown S, Kerr-Wilson R. Intra-oral duplication cyst. *J Pediatr Surg.* 1978;13:95-6.
19. Mir R, Weitz J, Evans J, Coren C. Oral congenital cystic choristomas: a case report. *Pediatr Pathol.* 1992;12:835-8.
20. Gorlin RJ, Kalnins V, Izant RJ Jr. Occurrence of heterotopic gastric mucosa in the tongue. *J Pediatr.* 1964;64:604-6.
21. Hambarde S, Bendre P, Taide D. Foregut duplication cyst presenting as lingual swelling: case report and review of literature. *Natl J Maxillofac Surg.* 2011;2:2-5.
22. Said-Al-Naief N, Fantasia JE, Sciubba JJ, Ruggiero S, Sachs S. Heterotopic oral gastrointestinal cyst: report of 2 cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1999;88:80-6.