

Case Report

ANORRECTAL MALFORMATION WITH MANIFESTATION IN ADULTHOOD. MANAGEMENT WITH DARTOS FLAP. CASE REPORT

MALFORMACIÓN ANORRECTAL CON MANIFESTACIÓN EN EDAD ADULTA. MANEJO CON COLGAJO DE DARTOS. REPORTE DE CASO

Ivette C. Jiménez^{1*}, Nairo J. Senejoa¹

¹ Departamento de Coloproctología. Hospital Central de la Policía Nacional. Universidad El Bosque. Bogotá D.C. Colombia.

*Corresponding author:

Ivette C. Jiménez.

ORCID-ID: <https://orcid.org/0000-0001-9836-7174>

E-mail: Ivettej197@gmail.com

Departamento de Coloproctología. Hospital Central de la Policía Nacional. Universidad El Bosque. Dirección: Cra 12 #90-42 Bogotá D.C. Colombia.

Received: 03 September 2023, Approved: 11 November 2024, Published: April 2025

Abstract

Anorectal malformations (ARM) are a spectrum of congenital malformation in which diagnosis and management in adulthood continues to be a challenge. Transitional surgery seeks to show alternatives to ensure good results and management of complications in adulthood of these patients. The Dartos flap is one of the therapeutic options for repairing rectourethral fistulas in complex perineal surgery with less morbidity.

We present the case of a patient with a history of ARM and posterior sagittal anorectoplasty in neonatal period, with rectourethral fistula (RUF) manifested in adulthood that required surgical management with interposition with a Dartos flap. We performed a correction of the RUF with interposition with a Dartos flap with satisfactory postoperative and good clinical outcomes. Later, we achieved colostomy closure.

Patients with ARM face a challenge in adulthood regarding complications of this pathology. The use of the Dartos flap has shown to be a technique with excellent exposure, good vascularization and great results, with less morbidity. The Dartos flap has been shown to be a safe option with good results for the treatment of rectourethral fistulas in patients with previous perineal surgical history.

Resumen

Las malformaciones anorrectales (MAR) son un espectro de anomalías congénitas en las que el diagnóstico y el manejo en la edad adulta es un desafío. La cirugía de transición busca mostrar alternativas para garantizar buenos resultados y manejo de las complicaciones en la edad adulta. El colgajo de Dartos es una de las opciones terapéuticas para la reparación de fistulas recto uretrales en patología perineal compleja con menos morbilidad.

Se presenta el caso de un paciente con antecedente de MAR y anorrectoplastia sagital posterior con fistula rectouretral (FRU) manifestada en edad adulta que requirió interposición quirúrgico con interposición con colgajo de Dartos. Se realizó corrección de la FRU con interposición con un colgajo de Dartos con postoperatorio satisfactorio hasta lograr posterior cierre de colostomía.

Las complicaciones en edad adulta de pacientes con MAR son un desafío. El uso de colgajo de Dartos ha mostrado ser una técnica con excelente exposición y facilidad para avance de colgajo con mejor vascularización y con mínima morbilidad al no requerir una incisión adicional. El colgajo Dartos ha demostrado ser una opción segura y con buenos resultados para el tratamiento de fistulas recto uretrales en pacientes con antecedente quirúrgico perineal complejo previo.

Keywords: Anorectal Malformations, Urinary Fistula, Myocutaneous Flap, Congenital Malformations, Colorectal Surgery

Introducción

Las malformaciones anorrectales (MAR) son un espectro de anomalías congénitas que afectan la salud colorrectal en la población pediátrica, con una incidencia de 1 en cada 2.500 a 5.000 nacidos vivos aproximadamente a nivel mundial [1,2]. En nuestro medio, se reportó una incidencia de malformaciones anorrectales de 2.2 por cada 10.000 nacidos vivos [2]. El diagnóstico inicial de las MAR es clínico y el tratamiento es quirúrgico, con tasas de éxito/recurrencias dependientes del pronóstico y complejidad de cada malformación, las cuales deben ser resueltas durante la etapa neonatal por cirujanos pediátricos.

Ante esto, en países en vía de desarrollo el diagnóstico de las MAR se ve desafiado por escasez de cirujanos entrenados y poco personal de apoyo con entrenamiento en estas patologías, lo que lleva a la presentación tardía y compleja de estas en etapa adulta [3]. Por esto, se han intentado establecer estrategias de tratamiento para el abordaje de estas malformaciones congénitas por parte de cirujanos, entendiendo la magnitud y complejidad de estos. En

este contexto, se ha intentado abordar el manejo de estos pacientes por medio de la cirugía de transición, mediante el conocimiento y manejo conjunto con cirujanos de adultos.[4]

Dentro del arsenal terapéutico para el manejo de complicaciones asociadas a malformación anorrectal, se han descrito el colgajo de Dartos o de gracilis para la reparación de fistulas recto-uretrales en adultos, el cual puede aumentar las tasas de éxito, promoviendo la cicatrización y al agregar un suministro de sangre adicional [5]. En consecuencia, se presenta el caso de un paciente adulto joven con antecedente de malformación anorrectal y manifestación de fistula rectouretral (FRU) en etapa adulta que requirió interposición con colgajo de Dartos.

Presentación del caso

Se presenta el caso de un paciente masculino de 19 años que consultó al servicio de Coloproctología, remitido de urología, por cuadro clínico de 5 años de evolución de salida de orina por el recto asociado a múltiples infecciones de vías urinarias. Al interrogatorio el paciente refirió antecedente de

malformación anorrectal sin fistula que requirió Anorrectoplastia sin colostomía con posterior esquema de dilataciones anales. Se solicitó ecografía de vías urinarias y cisturografía miccional donde

se evidencia fistula recto uretral dependiente de uretra posterior. Se realizó cistoscopia por urología, donde se evidenció hallazgo de orificio a 6 cm del meato con prueba de azul de metileno positiva.

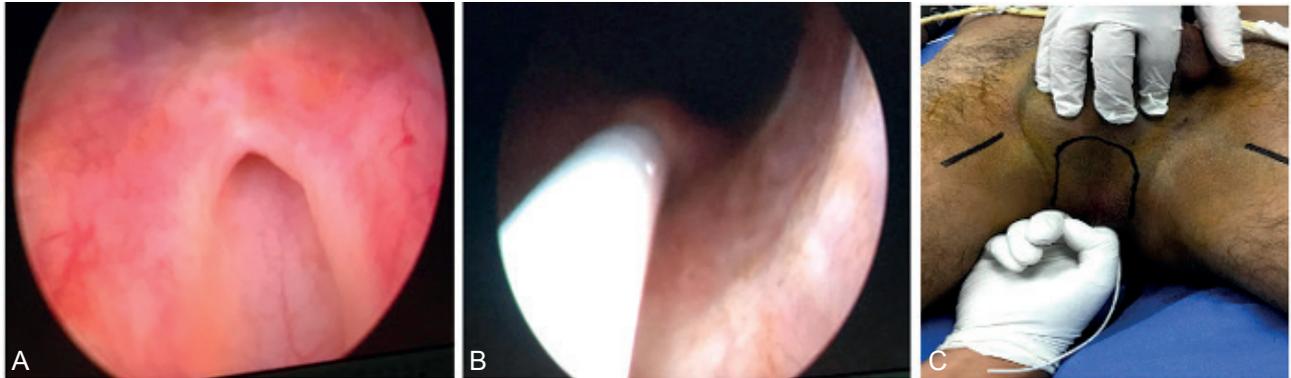


Figura 1. A: Cistoscopia. Fístula rectouretral. B: Canalización de FRU con guía hidrofílica. C: Marcación del colgajo con salida de guía hidrofílica por el recto

Por estos hallazgos, sumado al examen físico, se realizó derivación con colostomía en asa del colon transverso y cistostomía. Luego, se realizó manejo

quirúrgico definitivo con corrección de la FRU con interposición con un colgajo de Dartos con postoperatorio satisfactorio hasta posterior cierre de colostomía.

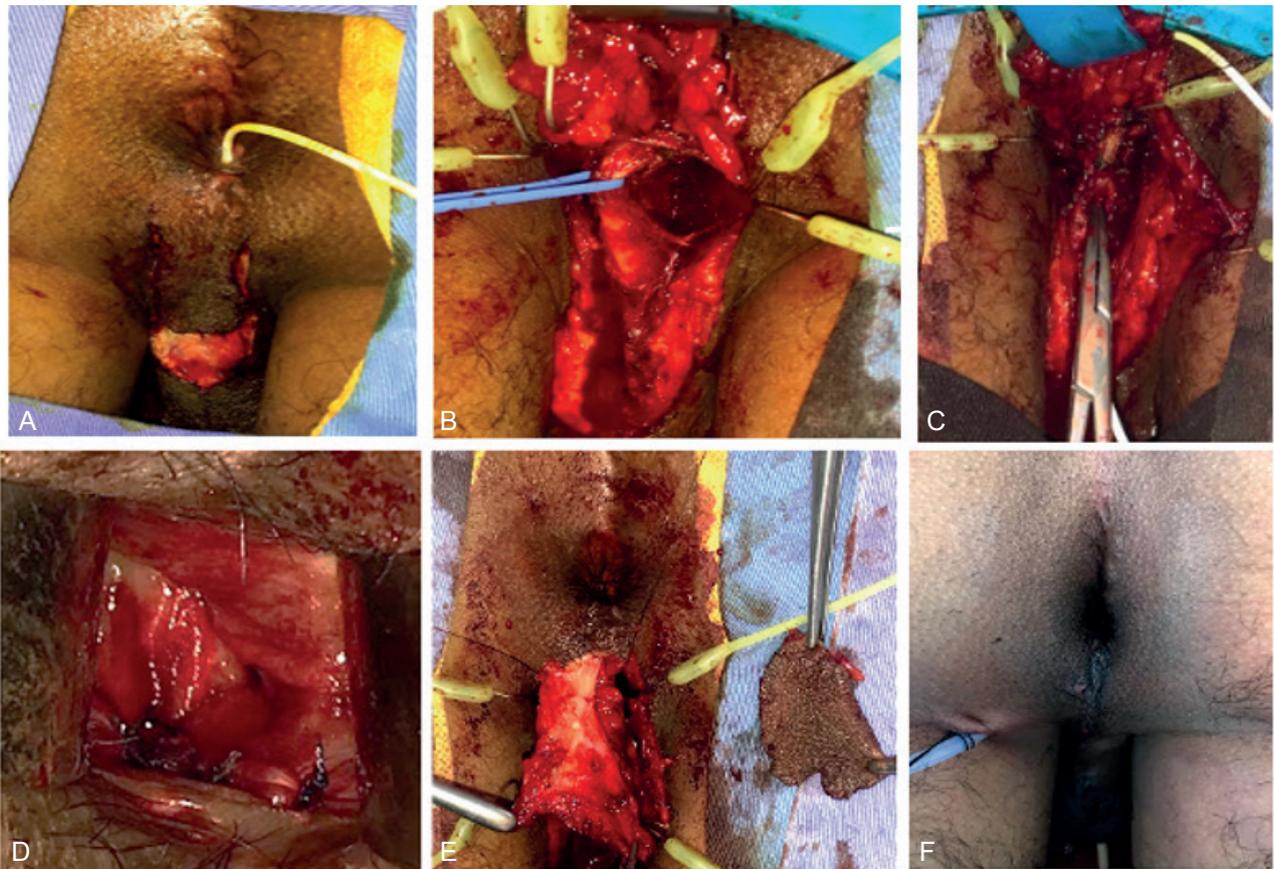


Figura 2. Imágenes intraoperatorias. A: Tallaje del colgajo. B: Disección de la fístula. C: Rafia uretral. D: Rafia de recto transanal. E: Flap de Dartos. F: Postoperatorio inmediato.

Discusión

Las MAR deben ser resueltas en etapa neonatal, sin embargo, en muchos casos el diagnóstico y las complicaciones se manifiestan en etapa adulta. Los adolescentes y adultos con MAR se enfrentan a problemas como la incontinencia fecal, constipación, alteraciones urológicas, sexuales, psicológicas, entre otras [6]. Por esto, se ha planteado la necesidad de evaluar el seguimiento a largo plazo de cirujanos pediátricos a pacientes en etapa adulta operados de MAR [6–8].

Las MAR con manifestaciones y complicaciones tardías en etapa adulta pueden debutar con estreñimiento, en mujeres con infertilidad, pobre ganancia de peso o en casos de infecciones urinarias a repetición [9], como lo fue en el caso presentado, sin dejar a un lado las manifestaciones psicológicas que estas MAR implica en la calidad de vida de los pacientes.

A pesar de las crecientes publicaciones científicas en la última década al respecto de la cirugía de transición, no se han establecido protocolos estandarizados para la atención de los pacientes con MAR. Se han publicado diferentes metaanálisis que dejan en evidencia la transferencia tardía de los pacientes a servicios quirúrgicos de adultos y la comunicación ineficiente entre cirujanos pediátricos y cirujanos colorrectales para unificar el manejo de estos pacientes, entender las complicaciones de estas enfermedades y poder establecer soluciones efectivas que garanticen buena calidad de vida y salud a nuestros pacientes [4].

Dentro de las complicaciones más frecuentes de las MAR, se han reportado las fístulas recto-uretrales, caracterizada por una conexión entre el epitelio del recto y de la uretra, que ser congénitas, iatrogénicas, inflamatorias o neoplásicas, siendo esta última la causa más frecuente de FRU en etapa adulta. Estas pueden llevar a complicaciones como abscesos, fascitis necrotizantes, osteomielitis, infección de vías urinarias o sepsis [10,11].

Se han descrito múltiples opciones terapéuticas y quirúrgicas para la corrección de fístulas recto-uretrales en los adultos. En algunos casos se opta por realizar manejo conservador, pero con bajas tasas de éxito [12], por lo que el manejo quirúrgico es comúnmente indicado por cirujanos con experiencia. Se han descrito diferentes técnicas y abordajes para la corrección de FRU con interposición de colgajos,

siendo el abordaje transperineal y transesfinteriano los de mejores resultados [5,11,13]

La interposición de colgajos de Gracilis o de Dartos por vía transperineal ha sido ampliamente reportada, ambas con buenos resultados y preservación de violación de cavidad peritoneal evitando un abordaje transabdominal [10].

En cuanto al colgajo de Gracilis se ha descrito beneficios como la curación acelerada, resistencia a infección por abundante flujo sanguíneo, entre otras [14]. También, este músculo está lejos de ser un lugar de radiación exento de daño isquémico y por hipoxia asociado a patología oncológica [15]. Sin embargo, el estrecho campo quirúrgico por vía transperineal implica mayor complejidad para su realización, además de una incisión quirúrgica adicional [14], y se reserva para rescate. Varios autores reportaron una serie de casos de pacientes operados con transposición de colgajo de músculo Gracilis por FRU, con resultados aceptables, pero morbilidad y complicaciones asociadas [11,12,16,17], entre estas, la incontinencia urinaria ante la intervención del mismo alrededor del esfínter uretral, con incidencias de 58-78% [18].

El uso de colgajo de Dartos ha mostrado ser una técnica con excelente exposición y facilidad para avance de colgajo, proporcionar una capa de interposición adicional entre la uretra y el recto, evitar las líneas de sutura superpuestas, mejor vascularización y con mínima morbilidad al no requerir una incisión adicional [5,10]. También, series de casos han optado por este procedimiento en pacientes adultos con antecedentes quirúrgicos por anomalías anorrectales o perineales complejas con excelentes resultados y sin infecciones del sitio operatorio [5,10,15].

Conclusión

Las malformaciones anorrectales, a pesar de ser diagnosticadas y tratadas en su gran mayoría en edad pediátrica, hoy en día siguen siendo las complicaciones tardías un tema de controversia que implica tanto a cirujanos pediátricos como a cirujanos de adultos. El colgajo Dartos ha demostrado ser una opción segura y con buenos resultados para el tratamiento de fístulas recto-uretrales en pacientes con antecedente quirúrgico perineal complejo previo.

Declaraciones de los autores

— Los autores declaran que no existen conflictos de intereses e informan que tampoco existen intereses en competencia. Además, los autores siguieron protocolos institucionales y éticos y no obtuvieron financiación para este trabajo.

Referencias

- Gangopadhyay AN, Pandey V. Anorectal malformations. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2014;20(1):10–5.
- Correa C, Mallarino C, Peña R, Rincón LC, Gracia G, Zarante I. Congenital malformations of pediatric surgical interest: Prevalence, risk factors, and prenatal diagnosis between 2005 and 2012 in the capital city of a developing country. Bogotá, Colombia. *J Pediatr Surg*. 2014;49(7):1099–103.
- Bedada AG, Gaffey AC, Azzie G. Managing adults with previously treated anorectal malformations. *J Pediatr Surg Case Reports* [Internet]. 2019;40(October 2018):34–7. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.epsc.2018.10.008>
- Chen S, Gao R, Li H, Wang K, Plasecivic J, Shah S, et al. Transitional Care in Anorectal Malformation and Hirschsprung's Disease: A Systematic Review of Challenges and Solutions. *J Pediatr Surg* [Internet]. 2024;59(6):1019–27. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2023.10.066>
- Varma MG, Wang JY, Garcia-Aguilar J, Shelton AA, McAninch JW, Goldberg SM. Dartos muscle interposition flap for the treatment of rectourethral fistulas. *Dis Colon Rectum*. 2007;50(11):1849–55.
- Bhojwani R, Ojha S, Gupta R, Doshi D. Long-term follow-up of anorectal malformation-how long is long term? *Ann Pediatr Surg*. 2018;14(3):111–5.
- Bjoersum-Meyer T, Kaalby L, Lund L, Christensen P, Jakobsen MS, Baatrup G, et al. Long-term Functional Urinary and Sexual Outcomes in Patients with Anorectal Malformations—A Systematic Review. *Eur Urol Open Sci*. 2021;25:29–38.
- Chavan RN, Chikkala B, Das C, Biswas S, Sarkar DK, Pandey SK. Anorectal Malformation: Paediatric Problem Presenting in Adult. *Case Rep Surg*. 2015;2015:1–4.
- Bokhari I, Ali SU, Farooq AR, Khan A. Late presentation of a patient with an anorectal malformation (ARM). *J Coll Physicians Surg Pakistan*. 2010;20(12):825–7.
- Choi JH, Jeon BG, Choi SG, Han EC, Ha HK, Oh HK, et al. Rectourethral fistula: Systemic review of and experiences with various surgical treatment methods. *Int J Surg Case Rep* [Internet]. 2022;30(1):35–41. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2022.106856>
- Medina LG, Rangel E, Fuchs I, Silva MC, Hernandez A, Cacciamani GE, et al. Rectourethral Fistula: Operative Technique and Outcomes. *Curr Bladder Dysfunct Rep*. 2019;14(3):151–6.
- Singla N, Morey AF. Rectourethral fistula reconstruction in elderly patients. *Curr Opin Urol*. 2015;26(2):171–6.
- Hardev B, Ankur A, Vineet N. Use of pedicled dartos flap wrap around technique in elaborated perineal repair of complex pelvic fracture urethral distraction defect. *J Clin Urol*. 2022;15(2):149–51.
- Takeda T, Shonaka T, Tani C, Hayashi T, Kakizaki H, Sumi Y. Gracilis muscle flap combined with a laparoscopic transabdominal approach is effective in the treatment of post-prostatectomy rectourethral fistula: A case report. *Int J Surg Case Rep* [Internet]. 2022;92(January):106856. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2022.106856>
- Mishra K, Hoy NY, Wood HM, Angermeier KW. Rectourethral Fistula—Review of Current Practices, Developments, and Outcomes. *Curr Bladder Dysfunct Rep*. 2019;14(4):231–7.
- Zmora O, Potenti FM, Wexner SD, Pikarsky AJ, Efron JE, Noguerras JJ, et al. Gracilis Muscle Transposition for Iatrogenic Rectourethral Fistula. *Ann Surg*. 2003;237(4):483–7.
- Vermaas M, Ferenschild FTJ, Hofer SOP, Verhoef C, Eggermont AMM, de Wilt JHW. Primary and secondary reconstruction after surgery of the irradiated pelvis using a gracilis muscle flap transposition. *Eur J Surg Oncol*. 2005;31(9):1000–5.
- Chen S, Gao R, Li H, Wang K. Management of acquired rectourethral fistulas in adults. *Asian J Urol*. 2018;5(3):149–54.