

## Case Report

# INTESTINAL DUPLICATION ASSOCIATED TO PERFORATION IN A PEDIATRIC PATIENT: CASE REPORT

## DUPLICACIÓN INTESTINAL ASOCIADA A PERFORACIÓN EN UN PACIENTE PEDIÁTRICO: REPORTE DE CASO

María Camila Pinzón-Molina<sup>1\*</sup>, Ivette Jimenez-Lafaurie<sup>2</sup>, Rafael Roberto Peña-Fernandez<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Universidad Militar Nueva Granada. Hospital Militar Central. Bogotá D.C, Colombia

<sup>2</sup>Universidad El Bosque. Hospital Central de la Policía. Bogotá D.C, Colombia

<sup>3</sup>Universidad Militar Nueva Granada. Hospital Central de la Policía Nacional. Hospital Militar Central. Bogotá D.C, Colombia.

### \*Corresponding Author:

María Camila Pinzón-Molina

Universidad Militar Nueva Granada. Hospital Militar Central.

Tv. 3C #49-02, Chapinero, Bogotá D.C, Cundinamarca, Colombia.

E-mail: mariacpinmol@gmail.com

Received: 25 January 2024. Approved: 29 September 2024. Published: November 2024

### Abstract

**Introduction:** Intestinal duplication associated with perforation is rare in children. This malformation can present with non-specific symptoms or even asymptotically, until it is found as an incidental finding on diagnostic images. Perforation of the duplicated segment occurs mainly in adults and requires emergency surgical intervention.

**Case presentation:** A 10-year-old patient was referred for suspected acute appendicitis due to generalized abdominal pain, emetic episodes, and fever, with imaging findings of a thickened tubular loop with signs of perforation associated with intra-abdominal collection, for which she was taken to laparoscopic appendectomy. A communicating loop with contained perforation was evident in the distal ileum, which required resection and end-to-end anastomosis. The pathology report confirms the diagnosis of perforated intestinal duplication.

**Conclusion:** Intestinal duplication is a rare pathology. In patients who present gastrointestinal symptoms with signs of an inflammatory response, it should be considered as a differential diagnosis since it may be associated with intestinal obstruction or perforation.

## Resumen

**Introducción:** La duplicación intestinal asociada a perforación es poco frecuente en niños. Esta malformación puede cursar con sintomatología inespecífica, incluso de manera asintomática hasta que se encuentra como hallazgo incidental en imágenes diagnósticas. La perforación del segmento duplicado se presenta principalmente en adultos y requiere intervención quirúrgica de urgencia.

**Presentación del caso:** Paciente de 10 años remitida por sospecha de apendicitis aguda dado dolor abdominal generalizado, episodios eméticos y picos febriles, y hallazgos imagenológicos asa tubular engrosada con signos de perforación asociada a colección intraabdominal por lo que fue llevada a apendicectomía laparoscópica, donde se evidenció en íleon distal un asa comunicante con perforación contenida, que requirió resección y anastomosis termino-terminal. El reporte de patología confirma el diagnóstico de duplicación intestinal perforada.

**Conclusión:** La duplicación intestinal es una patología infrecuente. En los pacientes que presenten sintomatología gastrointestinal con signos de respuesta inflamatoria debe considerarse como diagnóstico diferencial ya que puede estar asociado con obstrucción intestinal o perforación.

**Keywords:** Gastrointestinal Tract, Intestinal Perforation, Congenital Anomalies, Cyst, Surgical Anastomosis.

## Introducción

La duplicación intestinal es una malformación con una incidencia de 1 de cada 4500 nacimientos, que puede ocurrir en cualquier parte del tracto digestivo [1,2], casi la mitad de los casos en el intestino delgado [3, 4]. En el 80-85% de los casos la sintomatología aparece antes de los 2 años teniendo una presentación variable desde dolor abdominal difuso, náuseas y emesis, hasta disfagia, sensación de masa abdominal, invaginación o perforación [4-6]. Sin embargo, existe un porcentaje de pacientes en quien esta patología pasa desapercibida y se diagnostica de manera incidental hasta la edad pediátrica o incluso adulta.

La asociación con perforación del segmento duplicado es aún más infrecuente presentándose principalmente en adultos. Por esto, presentamos el caso de una paciente preadolescente que cursó con dolor abdominal difuso y síndrome emético, en quien se realizó el diagnóstico de duplicación intestinal asociada a perforación.

## Caso clínico

Paciente femenina de 10 años sin antecedentes de importancia, quien fue remitida por dolor abdominal generalizado de 1 semana de evolución, asociado a múltiples episodios eméticos y picos febriles, con reporte de tomografía de abdomen con contraste que evidenció una colección intra abdominal tipo absceso localizado en mesogastrio en región parasagital izquierda, acompañada de un asa tubular engrosada, sugiriendo apéndice cecal con signos de perforación; sumado a, laboratorios con signos de respuesta inflamatoria por lo que fue remitida a nuestra institución bajo la sospecha de apendicitis aguda.

Al examen físico de ingreso, se evidenció dolor a la palpación profunda en cuadrante inferior derecho, sin signos claros de irritación peritoneal, sin embargo, por hallazgos imagenológicos fue llevada a apendicectomía laparoscópica. Durante el procedimiento se evidenció apéndice cecal sana, con una colección intraperitoneal en cuadrante inferior izquierdo. En el borde mesentérico del íleon distal se encontró un asa comunicante con el tracto gastrointestinal, de características macroscópicas similares a la pared intesti-

nal, con perforación contenida, compatible con duplicación intestinal tubular comunicante (Figura 1), por lo que se convirtió a cirugía abierta, se realiza resección de segmento comprometido con anastomosis termino-terminal.

La paciente presentó evolución clínica satisfactoria, con tolerancia al reinicio de la vía oral a los 5

días postoperatorios y posterior egreso. En el control ambulatorio a los 15 días se encontraba asintomática, con heridas quirúrgicas sin estigmas de infección o sangrado. El reporte histopatológico confirma la sospecha de duplicación intestinal, con cambios erosivos, inflamación aguda y serositis aguda localizada.

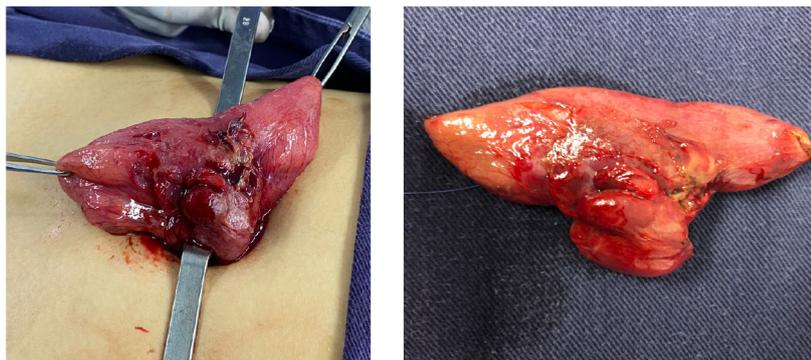


Figura 1. a) Duplicación intestinal perforada en íleon distal. b) Resección de segmento de íleon distal con duplicación intestinal comunicante.

## Discusión

La duplicación del tracto gastrointestinal (DI) es una malformación congénita poco común [1, 2], definida por Ladd en 1937 como una lesión congénita asociada al tracto gastrointestinal que contiene tejido epitelial gastrointestinal y una capa de músculo liso [3].

Se han planteado distintas teorías para explicar la patogénesis de las lesiones, sin embargo, ninguna logra abordar la heterogeneidad en el desarrollo de la presentación clínica, entre ellas, la teoría de la recanalización luminal aberrante, persistencia de divertículos embrionarios, accidentes vasculares intrauterinos, entre otras [1, 5, 7, 8].

La DI puede ser quística o tubular según los hallazgos histológicos, o comunicante y no comunicante según la relación con el tracto gastrointestinal, siendo las más frecuentes los tipos quística hasta en un 80% de los casos y no comunicante entre un 62-76% de los pacientes [1, 4, 6]. Contrario a lo anterior, en el caso reportado, la paciente presentaba la va-

riante histológica tubular y comunicante con el tracto gastrointestinal.

Hasta un 70% de los pacientes son diagnosticados antes de los 2 años, incluso en el periodo antenatal [9, 10] y hasta un 71.4% generan sintomatología en el primer año de edad [7]. Sin embargo, el espectro de manifestaciones clínicas es amplio. En la edad pediátrica el síntoma principal es el dolor abdominal con clínica de obstrucción intestinal [1-4], también se ha reportado sensación de masa abdominal, invaginación intestinal [4], hemorragia gastrointestinal [6] o dificultad respiratoria en localizaciones más superiores [6, 9]. Hay un porcentaje de pacientes que permanecen asintomáticos hasta la edad adulta o se encuentra como un hallazgo incidental mediante imágenes diagnósticas.

Dentro de los estudios imagenológicos se puede realizar la ecografía que puede evidenciar una masa anecoica con apariencia similar a la pared intestinal, conocido como el signo “doble capa intestinal”, hallazgo altamente específico para duplicación intestinal [9, 11]. La tomografía computada con doble contraste o la resonancia magnética son estudios de pre-

ferencia para identificar la relación de la lesión con el tracto gastrointestinal [2]. Al ser la DI una patología infrecuente, se pueden reportar como diagnósticos diferenciales la apendicitis aguda, divertículo de Meckel u otras masas intraabdominales, como ocurrió en nuestro caso; sin embargo, la interpretación de las imágenes diagnósticas es dependiente de la experiencia del profesional.

La perforación asociada al segmento de duplicación es infrecuente, con mayor incidencia en la edad adulta. Xiang y colaboradores reportó la perforación en un 11% de los pacientes pediátricos [6]. En el periodo neonatal, principalmente se manifiesta como obstrucción intestinal, incluso con volvulus asociado [11, 12]. En los pacientes pediátricos, la clínica varía según el tipo histológico, en el caso de duplicación tubular, la luz del segmento puede estar recubierta de mucosa gástrica, que secreta ácido gástrico y pepsina que pueden producir perforación de la mucosa intestinal, susceptible a la acción de estas sustancias, como lo reportó Prasadani y colaboradores, donde reportan un paciente que cursó con abdomen agudo y peritonitis, con historia de anemia crónica y hemorragia gastrointestinal [8].

Por otro lado, Sfoungaris y colaboradores reportaron una duplicación intestinal quística con perforación no ulcerativa, ocluida por un tapón mucoso que no permitió la salida del contenido hacia la cavidad abdominal [7]. En el caso de nuestra paciente, al ingreso presentaba signos de respuesta inflamatoria sistémica, con hallazgo de colección intraabdominal adyacente a la perforación del segmento de duplicación, pero sin peritonitis generalizada.

El manejo quirúrgico es el tratamiento de elección para las duplicaciones del tracto gastrointestinal sintomáticas. Se prefieren las técnicas mínimamente invasivas como laparoscopia o endoscopia, dependiendo de la localización de la malformación, aunque en ocasiones se requiere conversión a cirugía abierta ya que generalmente se requiere la resección del segmento intestinal asociado con anastomosis del intestino sano y revisión sistemática del tracto gastrointestinal. En caso de que la lesión no se encuentre conectada con el tracto gastrointestinal, es suficiente la enucleación simple o resección del quiste [6].

## Conclusión

La duplicación intestinal es una patología infrecuente, que se convierte en un reto diagnóstico tanto clínico como radiológico, puesto que requiere un alto índice de sospecha diagnóstica. La duplicación intestinal debe ser un diagnóstico diferencial en los pacientes que presenten sintomatología gastrointestinal inespecífica. Un diagnóstico temprano puede evitar la progresión hacia obstrucción intestinal, perforación o síntomas crónicos.

## Declaraciones de los autores

- Conflicto De Intereses: los autores declaran no tener conflicto de intereses.
- Fuentes De Financiamiento: el presente artículo no ha recibido ayudas específicas provenientes de agencias del sector público, sector comercial o entidades sin ánimo de lucro.

## Referencias

1. Kim S-H, Cho Y-H, Kim H-Y. Alimentary tract duplication in pediatric patients: Its distinct clinical features and managements. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr* [Internet]. 2020;23(5):423. Available from: <http://dx.doi.org/10.5223/pghn.2020.23.5.423>
2. Okur MH, Arslan MS, Arslan S, Aydogdu B, Türkçü G, Goya C, et al. Gastrointestinal tract duplications in children. *Eur Rev Med Pharmacol Sci*. 2014;18(10):1507–12.
3. Ladd, W.E. (1937) Duplications of the alimentary tract. *Southern Medical Journal*, 30, 363-371. <http://dx.doi.org/10.1097/00007611-193704000-00002>
4. Liaqat N, Latif T, Khan FA, Iqbal A, Nayyar SI, Dar SH. Enteric duplication in children: A case series. *Afr J Paediatr Surg* [Internet]. 2014;11(3):211–4. Available from: <http://dx.doi.org/10.4103/0189-6725.137327>
5. Ali SKS, Mukhopadhyay NN. Tubular ileal duplication causing small bowel obstruction in a child. *J Pediatr Surg Case Rep* [Internet]. 2022;76(102125):102125. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.epsc.2021.102125>

6. Xiang L, Lan J, Chen B, Li P, Guo C. Clinical characteristics of gastrointestinal tract duplications in children: A single-institution series review. *Medicine (Baltimore)* [Internet]. 2019;98(44):e17682. Available from: <http://dx.doi.org/10.1097/MD.00000000000017682>
7. Sfoungaris D, Magdalini M, Patoulas I, Panteli C, Valioulis I. Antimesenteric gastrointestinal tract duplication undergoing non-ulcerative perforation. *Rom J Morphol Embryol*. 2018;59(4):1275–8.
8. Prasadani TGM, Panditha K, Gunaratne SA, Suriyaarachchi C. Perforation of a Giant jejunal duplication in a child - A rare cause of acute abdomen in paediatrics. *J Pediatr Surg Case Rep* [Internet]. 2021;65(101762):101762. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.epsc.2020.101762>
9. Jeziorczak PM, Warner BW. Enteric duplication. *Clin Colon Rectal Surg* [Internet]. 2018;31(2):127–31. Available from: <http://dx.doi.org/10.1055/s-0037-1609028>
10. Matsukubo M, Muto M, Kedoin C, Matsui M, Murakami M, Sugita K, et al. An unusual presentation of intestinal duplication mimicking torsion of Meckel's diverticulum: a rare report of a pediatric case. *Surg Case Rep* [Internet]. 2022;8(1):53. Available from: <http://dx.doi.org/10.1186/s40792-022-01409-6>
11. Fonseca EKUN, Sameshima YT. Gut signature sign in enteric duplication cysts. *Abdom Radiol (NY)* [Internet]. 2018;43(12):3513–4. Available from: <http://dx.doi.org/10.1007/s00261-018-1620-2>
12. Puralingegowda AK, Mohanty PK, Razak A, Nagesh KN, Chandrayya R. Neonatal intestinal obstruction secondary to a small bowel duplication cyst. *BMJ Case Rep* [Internet]. 2014;2014(jul08 1):bcr2014204187–bcr2014204187. Available from: <http://dx.doi.org/10.1136/bcr-2014-204187>