

Perforación intestinal espontánea durante el período neonatal

Jorge León del Pedregal¹, Paula A. Pavez M.², Aldo Bancalari M.³

Resumen

Introducción: La perforación intestinal espontánea (PIE) es una patología no habitual de baja frecuencia en el periodo neonatal. **Objetivo:** Describir la evolución clínica de dos recién nacidos (RN) con perforaciones intestinales espontáneas y discutir la presentación clínica, el diagnóstico imagenológico, el tratamiento médico quirúrgico y las posibles causas que pueden producir esta patología. **Casos clínicos:** RN de pretérmino, ambos de sexo masculino de 680 y 1 370 gramos de peso al nacer, que a las 36 horas de vida presentaron signos clínicos de distensión abdominal y compromiso del estado general. La sospecha diagnóstica se confirmó con radiografía de abdomen simple, efectuándose una laparotomía en la cual se encontró una perforación única del colon en el neonato de menor peso, y dos perforaciones del ileon terminal en el otro. En ambos neonatos se realizó resección intestinal y anastomosis término terminal. El RN de mayor peso y edad gestacional evolucionó satisfactoriamente y el otro falleció a los 4 días de vida por falla mutisistémica. **Conclusión:** La perforación gastrointestinal espontánea neonatal se presenta como una brusca y progresiva distensión abdominal, el diagnóstico se sospecha por clínica y por el neumoperitoneo en la radiología de abdomen, y se confirma en la laparotomía.

(**Palabras clave:** Perforación intestinal, neonatal, espontánea).

Rev Chil Pediatr 77 (5); 506-511, 2006

Spontaneous intestinal perforation during neonatal period

Background: Spontaneous intestinal perforation (SIP) is a rare pathology in the neonatal period. **Objective:** To describe the clinical evolution of 2 newborns with spontaneous gastrointestinal perforations, in order to discuss clinical manifestations, diagnosis and medical-surgical treatment. Also, review possible events that may trigger this pathology. **Case-reports:** preterm newborns with SIP, both males with birth weight 680 and 1 370 g, showing clinical signs of abdominal distension before 36 hours of life. In both cases, the diagnostic suspicion arose from the abdominal radiography that revealed a pneumoperitoneum. Laparotomy was performed, where a single colon perforation was found in the smaller newborn and two ileum perforations in the other child. In both neonates, intestinal resection and end to end anastomosis was done. The newborn with major gestational age and birth weight evolved successfully, whereas the other one died at the 4^o day of life due to systemic failure. **Conclusion:** Spontaneous gastrointestinal perforation in neonates presents with abdominal distension. Diagnosis is suspected from clinical signs, abdominal radiology and confirmed by laparotomy.

(**Key words:** Spontaneous gastrointestinal perforation, newborn, abdominal distension).

Rev Chil Pediatr 77 (5); 506-511, 2006

1. Unidad de Neonatología, Servicio de Pediatría, Hospital G. Grant Benavente, Concepción.
2. Becada Departamento de Pediatría. Facultad de Medicina. Universidad de Concepción.
3. Unidad de Neonatología, Servicio de Pediatría, Hospital G. Grant Benavente. Concepción. Departamento de Pediatría. Facultad de Medicina. Universidad de Concepción.

Trabajo recibido el 14 de marzo de 2006, devuelto para corregir el 26 de mayo de 2006, segunda versión el 28 de julio de 2006, aceptado para publicar el 28 de septiembre de 2006.

Correspondencia a: Dr. Jorge León del Pedregal. E-Mail: leondelp@vtr.net

INTRODUCCIÓN

La perforación espontánea del tracto gastrointestinal en el período neonatal es una entidad infrecuente^{1,2,4}, siendo las gástricas más frecuentes que las intestinales³, en las cuales los segmentos más afectados son el íleon y el colon³.

En la mayoría de los casos publicados de perforaciones gastrointestinales en el recién nacido no se encuentran factores etiopatogénicos conocidos¹, denominándose a estas "perforaciones intestinales espontáneas" (PIE), ya que generalmente afectan a neonatos sanos, y su etiología es desconocida¹. Se han postulado diversas teorías para explicar la etiología de las PIE, las que incluyen un defecto congénito de la capa muscular, con mucosa y submucosas íntegras, y necrosis isquémica de la pared intestinal secundaria a hipoxia y/o asfixia perinatal². Estos dos posibles factores etiopatogénicos explicarían más del 50% de las PIE^{1-3,7}. En cuanto a la edad de presentación se describen las precoces, antes de la primera semana de vida, que generalmente son primarias y cuyos factores predisponentes son la prematuridad, el bajo peso de nacimiento, el sexo masculino, el embarazo gemelar, el estrés fetal y el consumo de cocaína en la madre; y las tardías, después de la primera semana de vida, habitualmente secundarias asociadas a sepsis bacteriana o fúngica, al uso de catéter arterial umbilical, algunos tratamientos farmacológicos como la administración de indometacina⁵, corticoides y a la apertura ductal^{1,3,9,10}. El signo clínico más constante de la PIE es la distensión abdominal rápidamente progresiva, debido al aire libre en la cavidad abdominal, mostrando un neumoperitoneo en la radiografía de abdomen simple¹¹⁻¹³. El diagnóstico precoz y el tratamiento quirúrgico oportuno condicionan el pronóstico final^{1,2}. La incidencia de PIE en recién nacido se ha estimado es el 1,1% en neonatos de menos de 1 500 g, aumentando a 7,4% en neonatos menores de 1 000 g en unidades de cuidados intensivos neonatales¹.

Esta comunicación tiene como objetivo describir la presentación clínica, imágenes radiológicas y evolución de dos recién nacidos de pretermino que presentaron una perforación intestinal espontánea.

CASOS CLÍNICOS

Caso clínico 1

Recién nacido de pretermino, PEG. Percentil 5%, 2º Gemelar discordante, con peso al nacer de 680 gramos y test de Apgar: 7 al minuto y 8 los 5 minutos de vida, de sexo masculino. Hijo de madre de 31 años, hipertensa en tratamiento con atenolol y aspirina con embarazo controlado desde las 8 semanas de gestación. Parto cesárea por gemelar discordante y flujo reverso de 28 semanas de edad gestacional. Madre recibió curso completo de corticoides antenatal. RN evolucionó con síndrome dificultad respiratoria adaptativo requiriendo oxígeno adicional suplementario no mayor a 30% por un período de cinco horas. Exámenes de laboratorio mostraron una gasometría y proteína C reactiva (PCR) dentro de rangos normales. A las 24 h de vida presentó deterioro progresivo del estado general destacando una distensión abdominal. Las Radiografías de abdomen solicitadas (figuras 1a y 1b) confirman un neumoperitoneo iniciándose manejo con régimen cero, nutrición parenteral total, tratamiento antibiótico triasociado e interconsulta a cirujano infantil. Se interviene quirúrgicamente, encontrándose una perforación colónica única y se realizó resección colónica de ± 2 cm y anastomosis termino-terminal, más aseo de la cavidad peritoneal. El informe de biopsia de la pieza operatoria, concluyó: "*Fragmento de pared de colon con congestión vascular en los vasos de la serosa, no reconociéndose inflamación en la muestra examinada*". Evolución post operatoria muy tórpida presentando insuficiencia renal, hemorragia pulmonar y falla multisistémica que le desencadenó su muerte a los 4 días de vida, a pesar de todas medidas terapéuticas instauradas.

Caso clínico 2

Recién nacido de pretermino, PEG. Percentil < 2%, con peso al nacer de 1 370 gramos con test de Apgar 8 al minuto y 9 a los 5 minutos de vida, sexo masculino, segundo hijo de madre de 35 años con hipotiroidismo en tratamiento con levotiroxina, con embarazo controlado desde las 16 semanas de gestación que cursó con síndrome hipertensivo del embarazo. Parto cesárea a las 32 semanas de edad gestacional por

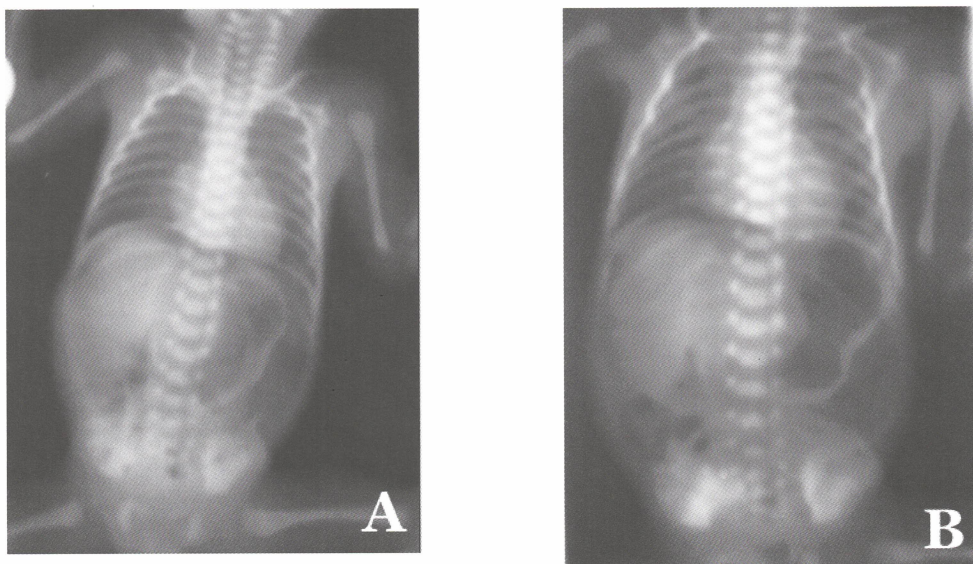


Figura 1. Neumoperitoneo secundario a perforación de colon en recién nacido de 24 h de vida.

preeclamsia severa, con maduración pulmonar previa. No presentó síndrome de dificultad respiratoria y en los exámenes de ingreso destacaron una hipocalcemia, neutropenia y plaquetopenia. Primeras 24 horas de vida con evolución satisfactoria con alimentación enteral y suero glucosado al 10% de mantención, con buena tolerancia. A las 39 horas de vida presentó distensión abdominal y residuos biliosos, iniciándose tratamiento antibiótico asociado con ceftriaxona y ampicilina, y solicitando radiografía de abdomen simple que mostró un neumoperitoneo (figura 2a). Cirujano infantil evalúa nuevamente en un lapso de 6 horas con radiografía de abdomen antero-posterior (figura 2b), e inicia tratamiento antianaerobio con metronidazol. Se intervino quirúrgicamente a las 8 horas de inicio de sintomatología y se encontró 2 perforaciones de ileon a 10-12 cm de válvula ileo-cecal, de 1cm diámetro. Se realizó resección intestinal de 5-6 cm de

cilina, y solicitando radiografía de abdomen simple que mostró un neumoperitoneo (figura 2a). Cirujano infantil evalúa nuevamente en un lapso de 6 horas con radiografía de abdomen antero-posterior (figura 2b), e inicia tratamiento antianaerobio con metronidazol. Se intervino quirúrgicamente a las 8 horas de inicio de sintomatología y se encontró 2 perforaciones de ileon a 10-12 cm de válvula ileo-cecal, de 1cm diámetro. Se realizó resección intestinal de 5-6 cm de

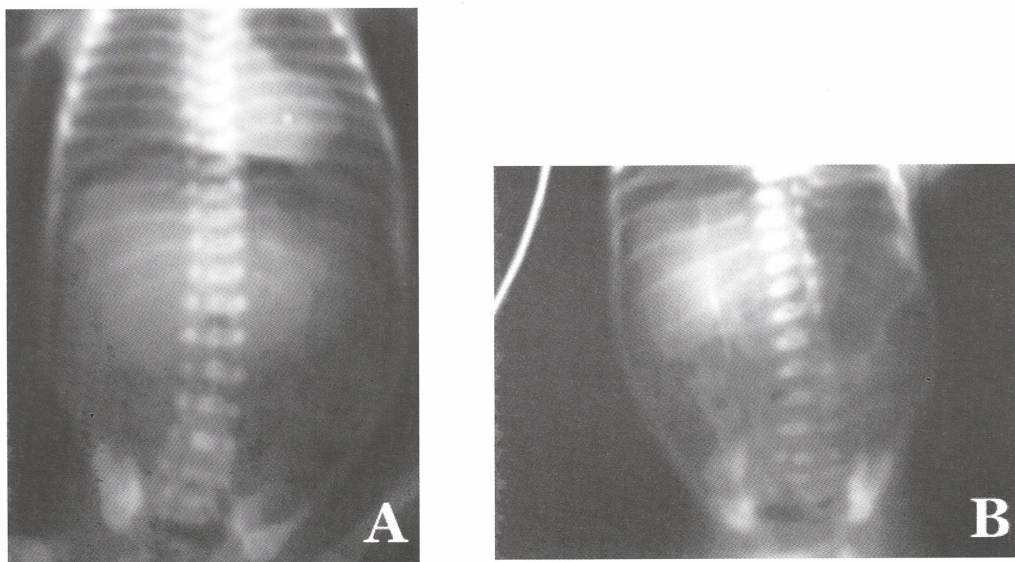


Figura 2. Neumoperitoneo secundario a perforación de ileon en recién nacido de 39 h de vida.

íleon con anastomosis íleo-ileal término terminal, más aseo peritoneal. El informe de biopsia de pieza operatoria describió: "*Segmento de intestino delgado con infarto hemorrágico transmural intenso, no se reconocen lesiones inflamatorias específicas ni compromiso de bordes quirúrgicos*". Evolucionó favorablemente realimentándose con buena tolerancia a los 8 días postoperatorios, completando 15 días de NPT y 14 días de tratamiento antibiótico triasociado. Alta a su hospital de origen a los 19 días de vida y con un peso de 1 680 gramos, con excelente tolerancia digestiva y en buenas condiciones clínicas y nutricionales.

DISCUSIÓN

Las perforaciones gastrointestinales durante el período neonatal son generalmente secundarias a enterocolitis necrotizante (ECN), íleo meconial y a obstrucciones intestinales secundarias a malformaciones³. Otras causas menos frecuentes son las perforaciones gastrointestinales espontáneas^{2,3,7}, idiópáticas o secundarias a diversos factores como isquemia⁹, infarto de la pared intestinal, o alteración de la capa muscular. Las PIE generalmente ocurren en los neonatos prematuros después de la primera semana de vida^{1,13}, pero también precozmente, antes de los 7 días, lo que sucedió en nuestros dos casos.

Entre los factores predisponentes se cuentan la prematuridad, el sexo masculino y el muy bajo peso al nacer^{1,7,15,13}, ambos casos compartirían los dos primeros factores ya que los pesos, a pesar de ser de menos de 1 500 gramos, eran diferentes. Ambos casos corresponderían a perforaciones espontáneas puesto a que además no hay antecedentes de isquemia o hipoxia pre y perinatales.

El mecanismo fisiopatológico que se postula para el desarrollo de una perforación espontánea es la isquemia intestinal localizada con el posterior infarto de la pared¹, no obstante, en algunos casos se ha encontrado un defecto congénito de la musculatura intestinal con ausencia de la capa interna de la muscular propia y de la muscularis mucosa¹⁶⁻¹⁹, que sería secundaria a un defecto congénito o a isquemia¹⁷⁻¹⁹. Las localizaciones más frecuentes de las PIE son el intestino delgado, en aproximadamente un 47% de los casos, comprometiendo habi-

tualmente el extremo distal, preferentemente el borde antimesentérico, con una mortalidad entre un 17 y 50%^{4,16,20}; las perforaciones del colon tienen aproximadamente un 16% de mortalidad¹¹.

En los dos casos presentados la sospecha diagnóstica se efectuó por distensión abdominal, tal como se describe en la literatura, y compromiso del estado general, se confirmaron por una radiografía simple de abdomen que mostraba un neumoperitoneo. La temprana aparición de las perforaciones y la ausencia de hallazgos operatorios que orientaran hacia una etiología en particular, asociado al aspecto macroscópico de las piezas operatorias, nos hizo pensar que estábamos frente a perforaciones espontáneas cuya etiología era difícil de precisar, sólo el estudio histológico nos confirmó el diagnóstico, ya que en el primer caso mostró fragmento de pared de colon con congestión vascular en los vasos de la serosa y en el segundo caso mostraba un infarto transmural intenso, sin lesiones inflamatorias específicas.

La presentación clínica característica de una PIE es la rápida distensión abdominal en un recién nacido prematuro^{4,15} consecuencia del aire libre en la cavidad intrabdominal, con el consiguiente cambio en la coloración (azulado) de la pared abdominal^{7,12,13}. La diferenciación clínica con una NEC no es fácil²¹, pero orientan hacia este cuadro un mayor compromiso de estado general de tipo séptico, un abdomen no tan distendido pero doloroso y empastado, con un estudio radiológico abdominal que muestra neumatosis y aire portal, y en el caso de existir un neumoperitoneo, éste no es tan significativo. Los hallazgos operatorios son muy diferentes ya que la NEC presenta un intestino necrótico con múltiples perforaciones y las PIE sólo muestran una perforación intestinal aislada en un intestino generalmente sano²⁰. Además los gérmenes encontrados en los cultivos peritoneales difieren, ya que en las PIE los más frecuentes son las candida y el *staphylococcus coagulasa* negativo, y en las NEC son las enterobacterias⁸.

El diagnóstico de PIE se confirma por una radiografía simple de abdomen anteroposterior y/o lateral, que muestra en un 96% de los casos un neumoperitoneo^{1,2,13}, lo que también sucedió en nuestros prematuros.

El tratamiento quirúrgico de elección, como sucedió en los casos presentados, es la

anastomosis primaria ya que esta tiene una mejor sobrevida que las ostomías⁹. Aquellos casos que por su gravedad no toleran una intervención quirúrgica mayor, se pueden manejar transitoriamente, a veces en forma definitiva, con drenaje peritoneal con buenos resultados⁶. Las complicaciones postoperatorias, principalmente la sepsis, como sucedió en nuestro primer paciente, son las que determinan el pronóstico vital, dependiendo la sobrevida fundamentalmente de la precocidad en el diagnóstico y tratamiento.

En nuestros pacientes, a pesar de que las horas de evolución preoperatorias de ambos fueron similares consideramos que en la muerte del primer caso influyó su prematuridad extrema y su muy bajo peso.

La mortalidad global en general de las perforaciones gastrointestinal es de alrededor del 47% y si consideramos solo las espontáneas son de un 32%.

En conclusión, deberíamos pensar que estamos frente a una perforación intestinal espontánea cuando nos enfrentamos a un neonato de pretermino sano, de extremo bajo peso (menor de 1 500 gramos), que presenta una distensión abdominal rápidamente progresiva, con cambios de coloración de su pared y con una radiografía de abdomen que muestre un neumoperitoneo sin neumatosis. El diagnóstico y el tratamiento quirúrgico oportuno condicionan la sobrevida.

REFERENCIAS

- 1.- *AJA Holland A, Shun H, CO Martin C*: Cooke-Yarborough J. Holland. Small bowel perforation in the premature neonate: congenital or acquired?, *Pediatr Surg Int* 2003; 19: 489-44.
- 2.- *Zamir O, Shapira SC, Udassin R, Peleg O, Arad I, Nissan S*: Gastrointestinal perforations in the neonatal period. *Am J Perinatol* 1988; 5: 131-3.
- 3.- *Weinberg G, Kleinhaus S, Boley SJ*: Division of Pediatric Surgery, Montefiore Medical Center, New York, NY. Idiopathic intestinal perforations in the newborn: an increasingly common entity. *J Pediatr Surg* 1989; 24: 1007-8.
- 4.- *Arsac M, Devaux AM, Blanc T, et al*: Early spontaneous ileal perforations in preterm infants: report of 4 cases *Arch Pediatr* 2005; 12: 1613-6. Epub 2005 Aug 3.
- 5.- *Attridge J., Clark R, Walker MW, Gordon PV*: New insights into spontaneous intestinal perforation using a national data set: SIP is associated with early indomethacin exposure. *J Perinatol* 2006; 26: 93-9.
- 6.- *Tepas JJ, Sharma R, Hudak ML, Garrison RD, Pieper P*: Coming full circle: an evidence-based definition of the timing and type of surgical management of very low-birth-weight (<1 000 g) infants with signs of acute intestinal perforation. *J Pediatr Surg* 2006; 41: 418-22.
- 7.- *Prabhakar G, Agarwal LD, Shukla A, et al*: Espontaneous gastrointestinal perforation in the neonate. *Indian Pediatr* 1991; 28: 1277-80.
- 8.- *Coates EW, Karlowicz MG, Croitoru DP, Buescher ES*: Distinctive distribution of pathogens associated with peritonitis in neonates with focal intestinal perforation compared with necrotizing enterocolitis. *Pediatrics* 2005; 116: 241-6.
- 9.- *Buchheit JQ, Stewart DL*: Clinical comparison of localized intestinal perforation and necrotizing enterocolitis in neonates. *Pediatrics* 1994; 93: 32-6.
- 10.- *Harms K, Ludtke FE, Lepsien G, Speer CP*: Idiopathic intestinal perforations in premature infants without evidence of necrotizing enterocolitis. *Eur J Pediatr Surg* 1995; 5: 30-3.
- 11.- *Knope SS, Vivekanand SS*: Neonatal colonic perforation with low anorectal anomaly. a case report. *J Postgrad Med* 1989; 35: 226-7.
- 12.- *Tan CE, Kiely EM, Agrawal M, Brereton RI, Spitz L*: Neonatal gastrointestinal perforation. *J Pediatr Surg* 1989; 24: 888-92.
- 13.- *Resch B, Mayr J, Kuttinig-Haim M, Reiterer F, Ritschl E, Muller W*: Spontaneous gastrointestinal perforation in very-low-birth-weight infants-a rare complication in a neonatal intensive care unit. *Pediatr Surg Int* 1998; 13: 165-7.
- 14.- *Cantero MT, Tejedor C*: Vaquerizo Pollino. Perforación duodenal neonatal espontánea. *An Pediatr (Barc)* 2005; 62: 76-84.
- 15.- *Mintz AC, Applebaum H*: Focal gastrointestinal perforations not associated with necrotizing enterocolitis in very low birth weight neonates. *J Pediatr Surg* 1993; 28: 857-60.
- 16.- *Miserez M, Barten S, Geboes K, Naulaers G, Devlieger H, Penninckx F*: Surgical therapy and histological abnormalities in functional isolated small bowel obstruction and idiopathic gastrointestinal perforation in the very low birth weight infant. *World J Surg* 2003; 27: 350.
- 17.- *Huang PC, Yau KI, Wu MZ, Huang SF*: Neonatal intestinal perforation caused by congenital defect of the small intestinal musculature: report of one case. *Acta Paediatr Taiwan* 1999; 40: 271-3.
- 18.- *Litwin A, Avidor I, Schujman E, et al*: Neonatal intestinal perforation caused by congenital defect of the intestinal musculature. *Am J Clin Pathol* 1984; 81:77-80.
- 19.- *Izraeli S, Freud E, Mor C, Litwin A, Zer M, Merlob P*: Neonatal intestinal perforation due to

- congenital defects in the intestinal musculature. European J of Pediatrics 1992; 151: 300-3.
- 20.- *Calisti A, Perrelli L, Nanni L, et al*: Surgical approach to neonatal intestinal perforation. An analysis on 85 cases (1991-2001). Minerva Pediatr 2004; 56:335-9.
- 21.- *Tarrado X, Castanon M, Thio M, et al*: Comparative study between isolated intestinal perforation and necrotizing enterocolitis Eur J Pediatr Surg 2005; 15: 88-94.