

GASTROSQUISIS. MANEJO PERINATAL CON INTERVENCIÓN MÍNIMA PRECOZ. DATOS PRELIMINARES.

GASTROSCHISIS. PERINATAL MANAGEMENT WITH MINIMAL EARLY INTERVENTION. PRELIMINARY DATA.

*CARLOS DEGUER, JAVIER SVELITZA, ANA ESPINOSA, UBALDO TENTONI,
FERNANDA MAURÍN, MARIANA CALAHORRA, CINTHYA BECEGATO.
Servicio de Neonatología. Hospital Interzonal «Dr. José Penna». Bahía Blanca. Argentina.*

Resumen: La gastrosquisis es un defecto congénito de la pared abdominal anterior, de uno a cinco cm, paraumbilical y generalmente a la derecha, donde el contenido abdominal sobresale a través del defecto. Su etiología no está definida. El principal objetivo del presente trabajo fue describir nuestra experiencia en el manejo de gastrosquisis. Otro de los objetivos planteados fue evaluar si se mejoran la evolución y complicaciones de esta malformación, con las nuevas estrategias de diagnóstico y tratamiento como el diagnóstico prenatal ecográfico y el tratamiento Mínimamente Invasivo Precoz en sala de partos, sin anestesia general. En los últimos años, el manejo realizado en nuestra institución ha sido reparación y cierre abdominal por medio de un silo (CS) o el cierre quirúrgico primario cuando el caso lo permitía. Nosotros hemos cambiado el CS por el manejo perinatal con

Intervención Mínima en Sala de Partos, sin intubación y sin anestesia endotraqueal. No existen datos concluyentes sobre esta nueva estrategia con esta patología.

Palabras claves: gastrosquisis, diagnóstico prenatal, manejo perinatal con intervención mínima.

Abstract: Gastroschisis is a paraumbilical congenital defect in the anterior abdominal wall, that is usually one to five centimeters thick and that is located to the right of the umbilical cord insertion site, where the abdominal content protrudes through the defect. The etiology is not defined. The main objective of this work is to describe our experience in gastroschisis management. A second objective is to determine if new diagnosis and treatment strategies, such as prenatal ultrasonic diagnosis and minimally invasive early treatment at the delivery room without general anesthesia, improve the evolution and reduce complications in this malformation. In the last few years, the management used at our institution consisted in repairing and closing the abdomen by means of a silo closure (CS) or primary surgical closing when the case allowed it. We have replaced the CS by perinatal management with minimal intervention at the delivery room, without intubation or endotracheal anesthesia in selected cases. There are no conclusive data yet on this

Correspondencia: Dr. Carlos Deguer. Servicio de Neonatología. Hospital Interzonal "Dr. José Penna". Láinez 2401, (8000) Bahía Blanca, Argentina.
E-mail: cdeguer@bvconline.com.ar

Recibido: 29 de Octubre de 2007

Aceptado: 20 de Diciembre de 2007

new strategy for approaching this pathology.

Key words: Gastroschisis, prenatal diagnosis, perinatal management with minimal intervention.

INTRODUCCIÓN

La gastrosquisis es un defecto congénito de la pared abdominal anterior, de 1 a 5 cms, paraumbilical y generalmente a la derecha, donde el contenido abdominal sobresale a través del defecto sin saco que lo recubra. Su etiología no está definida (1). El incremento de esta patología ha sido focalizada por varios autores en diversos reportes bibliográficos (2). En los últimos años, el manejo realizado en nuestra institución ha sido reparación y cierre abdominal por medio de un silo (CS), que consiste en la colocación de una bolsa de silastic recubriendo al intestino que se encuentra fuera del abdomen, o el cierre quirúrgico primario cuando el caso lo permitía. Nosotros hemos cambiado el CS por el manejo perinatal con intervención mínima en Sala de Partos, o sea reducción de las vísceras abdominales intraparto previa a la ligadura del cordón, sin intubación ni anestesia endotraqueal en casos seleccionados (3). No existen datos concluyentes sobre esta nueva estrategia con esta patología (4). La gastrosquisis es uno de los defectos de la pared abdominal que con mayor frecuencia se observa en el recién nacido (RN) y constituye un reto para el cirujano pediatra dada su elevada morbimortalidad (5).

La etiología de la gastrosquisis no está definida. Las hipótesis embriológicas propuestas han sido: a) falla en el mesodermo para formar la pared abdominal; b) ruptura del amnio alrededor del anillo umbilical, con la consiguiente herniación del intestino; 3) anormal involución de la vena umbilical derecha conduciendo al debilitamiento de la pared corporal y herniación del intestino; c) disrupción de la arteria vitelina derecha con subsecuente daño de de la pared abdominal y herniación del intestino; d) anormal plegamiento de la pared abdominal resulta en un defecto abdominal ventral de la pared a través del cual se hernia el intestino (6).

Existen evidencias que sostienen que una respuesta inmunológica materna a un nuevo patrón de antígenos paternos puede aumentar el riesgo para varias alteraciones adversas en la evolución del embarazo, que incluyen preeclampsia, bajo peso y parto prematuro. Hay datos que sugieren que factores maternos inmunológicos podrían jugar un rol en la causa de las gastrosquisis (7). Se están realizando estudios de casos control para la determinación de factores de riesgo, que podría traer pistas sobre la etiología del defecto. Solamente la edad materna por debajo de 25 años está realmente

asociada (8). Se han descrito varias formas de tratamiento quirúrgico con buenos resultados en la reducción de las vísceras intestinales a la cavidad abdominal.

Hemos observado y experimentado una mejora en nuestros resultados en pacientes con este problema. El cierre primario con reducción y cierre primario, mediante Silo con reducción progresiva de las vísceras ha demostrado ser una opción que ofrece resultados aceptables (9). Se han descrito técnicas con cierre primario sin anestesia (3,10). En nuestra serie hemos observado mejorías en el diagnóstico prenatal, en la asistencia respiratoria, sepsis y mortalidad.

Si bien la muestra poblacional es pequeña para sacar conclusiones, nos permite observar las nuevas tendencias en el diagnóstico y tratamiento de esta patología.

MATERIALES Y MÉTODOS

Es un ensayo retrospectivo, descriptivo, con muestra única consecutiva. Se revisaron las historia clínicas todos los Recién Nacidos (RN) (n=14) ingresados con diagnóstico de gastrosquisis a nuestro Servicio de Neonatología del Hospital Interzonal «Dr. José Penna» desde el año 2000 al 2006.

Las variables estudiadas fueron: edad materna; diagnóstico prenatal; edad gestacional; peso nacimiento; días de internación; intervenciones quirúrgicas, Silo; días de Asistencia Respiratoria Mecánica (ARM); días de alimentación parenteral; sepsis confirmada; mortalidad.

Se realizó un análisis descriptivo y la prevalencia de los eventos estudiados. Se evaluaron los RN que fueron tratados convencionalmente y aquellos a los que se les aplicó el manejo con intervención mínima. El análisis comparativo de los grupos estudiados incluirá la evaluación de la significación estadística de ambos grupos de acuerdo a las variables estudiadas utilizando el test de Fisher y el Chi cuadrado.

RESULTADOS

En el período 2000 a 2006 se revisaron 14 historias clínicas con diagnóstico de gastrosquisis (Tablas 1 y 2). En este período, sobre 18.738 nacidos vivos, la frecuencia de gastrosquisis fue de 14 con una tasa de 7,5 cada 10000 nacidos vivos. De los catorce casos estudiados sólo 8 (ocho) tuvieron diagnóstico prenatal. La edad materna promedio fue de 20 años con un desvío estándar de 1,86.

En la Figura 1 se observa la prevalencia de embarazo adolescente del período analizado. La media de peso de nacimiento fue de 2234 g, la edad gestacional promedio fue de 35 semanas. Los días promedio de internación fueron 28,21 y recibieron 19 intervenciones en total; en cuatro de los casos se utilizó CS.

Recibieron una media de 11,5 días de alimentación parenteral y los días de asistencia respiratoria mecánica (ARM) fueron 4,14. Anestesia general fue recibida por nueve de los casos estudiados y anestesia local por cuatro de ellos. Entre el 14 al 50% de los casos estudiados padeció episodios de sepsis. La mortalidad global fue de 28,14% la cual fue considerada alta. Cuatro casos tuvieron malformaciones asociadas (28%).

Si observamos detenidamente las Tablas 1 y 2 notaremos

algunas diferencias en función de la técnica de resolución de la gastrosquisis, es decir el cierre convencional (CS), versus el manejo perinatal con intervención mínima (Tabla 3), técnica que se comenzó a utilizar en el 2005. De acuerdo a lo hallado en ocho casos se utilizó el tratamiento convencional y luego en los restantes se utilizó total o parcialmente la Intervención Mínima sin anestesia general.

Fue notable la mejoría en el diagnóstico perinatal en el segundo grupo, cinco de seis casos sin ser significativa con

Diagnóstico Prenatal	Fecha	Días Internac.	Nº intervenciones.	Cierre Silo	Alim. Parent	ARM/días	Anestesia
no	27/11/2000	4	1	no	0	4	general
no	10/10/2000	59	3	si	0	1	general
si	09/12/2001	17	1	no	9	5	general
no	04/02/2002	34	1	no	9	8	general
no	11/10/2002	26	2	si	19	8	general
si	23/11/2004	26	1	no	15	3	general
si	15/02/2005	1	1	no	0	1	general
no	16/05/2005	28	1		13	6	general
si	22/12/2005	21	1	no	6	0	local
si	18/01/2006	34	1	no	19	0	local
si	18/06/2006	16	1	no	4	0	local
si	05/07/2006	19	1	no	14	0	local
no	27/11/2006	24	1	no	13	2	local
si	25/10/2006	86	2	si	40	20	local/gral.
		28.21			11.5	4.14	

Tabla 1.

Sepsis	Mortalidad	Malformaciones	Edad Materna	Peso	EG
no	si	no	20	2300	38
Si	Si	no	22	1900	37
no	no	no	18	2750	38
si	no	Hidronefrosis	18	2500	39
si	si	no	19	2000	35
si	no	no	23	3200	36
no	si	Perf. intestinal	18	2230	34
Si	no	no	20	1840	34
no	no	no	15	2360	37
si	no	Artrogriposis	21	2120	35
no	no	no	26	2170	37
no	no	CIV	19	2220	36
no	no	2 gemelar	19	1980	35
si	no	Quiste mesot.	22	1710	33
7	4	5	Media 20 DE1.86	2234.28	35.2

Tabla 2.

	N°	Diagnóstico Prenatal		Alimentación Parenteral	ARM	Sepsis	Mortalidad.	Edad Mat.	Edad Gestacional	Peso
		Si	No							
Convencional	8	3	5	65	35	5	4	19,75	2340	36,37
Intervención Mínima	6	5	1	78	22	2	0	20,33	2093	35,5
P		0.659		0.578	0	0,656	0.245	0,819	0.003	0.06

Tabla 3.

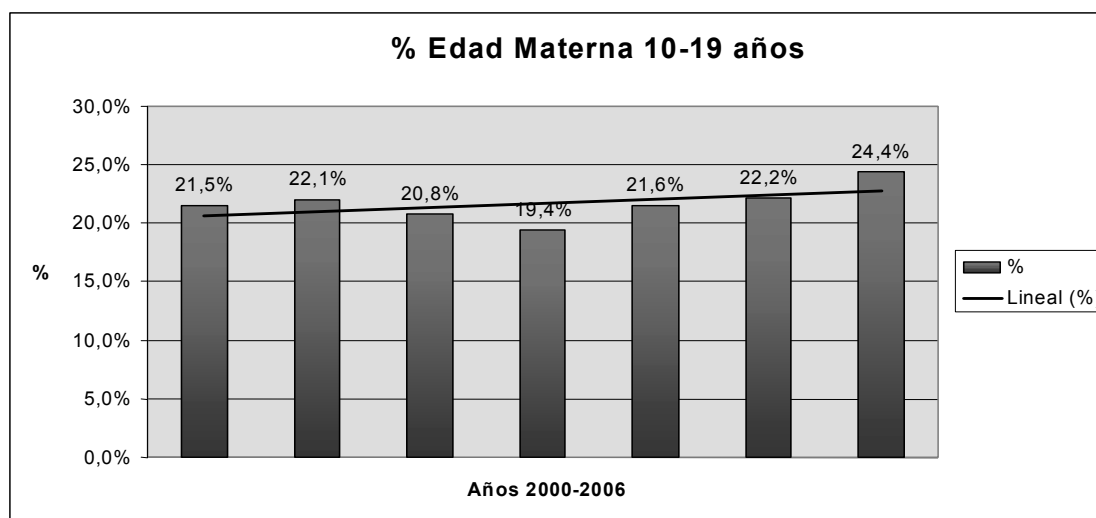


Figura 1.

respecto al grupo convencional (T. de Fisher 0,659); la alimentación parenteral se utilizó más en el segundo grupo (65 días versus 78 días) probablemente debido a que en el período analizado (año 2006) disponíamos más liberalmente de este recurso, económicamente hablando. La cantidad de días de ARM fueron significativamente menores en el segundo grupo (35 versus 22) con una p de 0,001.

Cinco bebés de ocho versus dos de seis contrajeron sepsis confirmada, diferencias no significativas según test de Fisher (p 656). La media de edad materna fue de 19,75 años versus 20,33.

El promedio de peso del primer grupo fue de 2340 vs. 2093 (p 0,003), significativamente menor. La edad gestacional de terminación del embarazo, es superior en el primer grupo 36,37 versus. 35,5 (p ,06).

DISCUSIÓN

La gastrosquisis es una afección a la que se le está prestando más atención, debido al aumento de incidencia. Algunos trabajos relatan un aumento de la prevalencia de más de 400% desde 1983 (2). Nuestros datos están reflejados en la Tabla 4 y la Figura 2.

En nuestra población sobre un total de 18.661 nacidos vivos la frecuencia en el período analizado fue de 14 con una tasa de 7,5 cada 10000 nacidos vivos pero con un intervalo de confianza (IC) 95% de 3,73 -11,27, muy amplio. Aunque se han observado muchos casos en los últimos dos años, no podemos concluir en un aumento de la prevalencia hasta tener una muestra más amplia. Sin embargo, nuestras tasas son preocupantes.

Según datos del Estudio Colaborativo Latino Americano de Malformaciones Congénitas (ECLAMC) (11) analizando el período 1982-2003 en 82 hospitales y sobre 3.080.859 de nacimientos, la tasa es de 1.72/10.000, IC 95% (1.58-1.88).

La frecuencia de gastrosquisis aumentó aproximadamente 50 % (IRR=1.47) a partir del periodo 1988-1990 (Figura 2) (12). Otros datos muestran una prevalencia de 1,76 por 10000 en una serie de 265.858 nacimientos.

La gastrosquisis es un defecto de la pared abdominal anterior, donde el contenido abdominal sale a través del defecto sin saco que lo cubra. La reducción del contenido al abdomen es necesaria en el transcurso de pocas horas después del nacimiento, ya que el lactante presenta riesgo, no solo de pérdida de agua y de calor debido a la exposición

Años	2000	2001	2002	2003	2004	2005	2006
NV	2560	2657	2807	2977	2707	2496	2497
Frecuencia	2	1	2	0	1	3	5
Tasa/1000	0,78	0,37	0,71	0	0,36	1,20	2

Tabla 4.

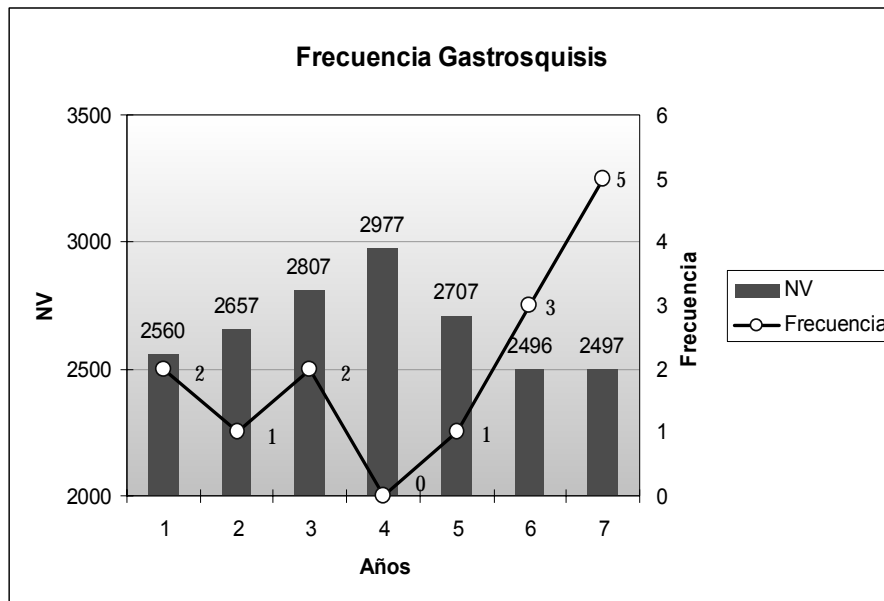


Figura 2.

intestinal, sino también debido al compromiso de la circulación intestinal, con isquemia e infarto. En nuestra serie hemos observado un incremento del diagnóstico prenatal, 80% de los casos en los últimos tres años, lo que creemos es uno de los pilares para una mejor estrategia de tratamiento. En una importante serie sobre 265.858 nacimientos el examen ultrasónico detectó el 57,4% de los casos y también fue el 57% en toda nuestra serie.

Las malformaciones mayores asociadas a gastrosquisis en la serie del Clearinghouse fue del 10%, en nuestros recién nacidos con gastrosquisis fueron el 28,57% de los casos con malformaciones mayores y menores, si seleccionamos sólo las mayores, la asociación de malformaciones se reduce sólo al 7,14%. Algunos estudios reportan anomalías intestinales coexistentes, como las más frecuentes, 9,9%, seguidas por las cardíacas y pulmonares (13), en nuestra serie las anomalías intestinales encontradas fueron solo 1 de las 4 malformaciones reportadas.

En el último año se realizó la reducción del contenido abdominal sin intubación endotraqueal o anestesia general en quirófano durante la cesárea, antes de ligar el cordón, con una técnica denominada "Simil - Exit", sin anestesia general, por Svelitza y col. (2007). Esta técnica se aplicó en cinco

pacientes (Tablas 1 y 2), y parcialmente en el último paciente que presentaba una malformación que impedía la utilización de la técnica (Tabla 3).

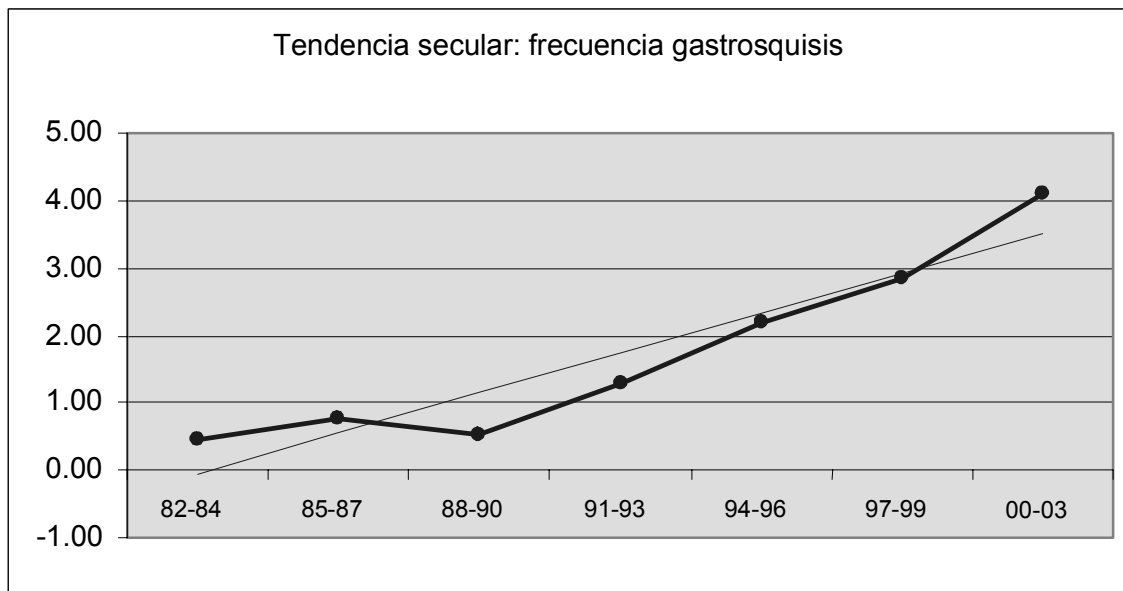
La edad gestacional y el peso son menores en el segundo grupo debido a la programación del parto por cesárea debido al diagnóstico prenatal.

Los resultados más claros han sido la mejoría en la mortalidad en el último año 4 fallecidos en el primer grupo, versus ninguno en el segundo grupo (P 0,24), con menor incidencia de sepsis, cinco bebés de ocho versus dos de seis contrajeron sepsis confirmada, diferencias no significativas según test de Fisher (P 0,656), y menor cantidad de días de ARM, fueron significativamente menos en el segundo grupo (35 vs. 22) con una P de 0,001, lo que disminuye los riesgos y por ende la morbilidad.

Los días de internación en ambos grupos son similares pero se debe tener en cuenta que la mortalidad fue elevada en el primer grupo, lo que hace difícil compararlos.

La n de nuestra muestra es muy pequeño para sacar conclusiones sobre qué método es el mejor para tratar la gastrosquisis, no hay en la literatura datos concluyentes al respecto y más estudios deben realizarse, queda claro que el trabajo en equipo multidisciplinario entre obstetras, image-

nólogos, cirujanos y neonatólogos es la base del diagnóstico y tratamiento de esta patología.



Regresión de Poisson

Variable	Incidence Rate Ratio	95% IC	p	Interpretación
tendencia	1.47	1.40-1.55	<0.001	Aumento significativo

Figura 3. Cedido gentilmente por Jorge Lopez Camelo, ECLAMC

BIBLIOGRAFIA

- Stein N, Zandona D, Calcagnotto H, Costa E, Santos R, Loguercio JFC. Factores de riesgo para gastrosquisis: revisión de literatura. *Femina* 2004;32:211-7.
- Eggink BH, Richardson CJ, CMalloy MH, Angel CA. Outcome of gastroschisis: a 20-year case review of infants with gastroschisis born in Galveston, Texas. *J Pediatric Surg* 2006;41:1103-8.
- Svelitza J, Palermo M, Espinoza A, Gallo M, Calahorra M, Guzman E. Procedimiento simil-exit para el manejo de gastrosquisis. Hospital Penna Bahía Blanca. *Revista Iberoamericana de Medicina Fetal y Perinatal* 2007; 1: 7-12.
- Davies MW, Kimble RM, Woodgate PG. Reducción en la sala de hospital sin anestesia general versus reducción y reparación bajo anestesia general para la gastrosquisis en recién nacidos (Revisión Cochrane traducida). La Biblioteca Cochrane Plus (ISSN 1745-9990). La Biblioteca Cochrane Plus, número 2, 2006. Oxford, Update Software Ltd.
- Jáuregui Y, Sanchez MC, Davila E. Incidencia de onfalocele y gastrosquisis. *Bol Hosp Niños JM de los Ríos* 2003;39:39-44.
- Feldcamp ML, Carey JC, Sadler T. Development of gastroschisis: Review of hypotheses, a novel hipótesis, and implications for research. Department of Pediatrics, Division of Medical genetics, University of Utah. *Am J Med Genetic A*. 2007;143:639-52.
- Chambers C, Chen B, Kalla K, Jernigan L, Jones K. Novel risk

- factor in gastroschisis: Change of paternity. Division of Dysmorphology and Teratology, Department of Pediatrics, University of California. *Am J Med Genet A* 2007;143: 653-9.
8. Stein N, Zandona D, Calcagnotto H, Costa E, Santos R, Loguercio JFC. Fatores de risco para gastrosquise: revisão de literatura. *Femina* 2004;32:211-7.
 9. 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. DeVos children's Hospital, Grand Rapids, Michigan 49503, USA *J Pediatric Surg* 2003;38:459-64.
 10. Duncan ND, Brown B, Dundas S, Wierenga K, Kulkarni S, Pinnock- Ramsaram C, Abel C. Minimal Intervention management for gastroschisis: a preliminary report. *West Indian Med J* 2005;54:152-4.
 11. Castilla E, Orioli M. ECLAMC: The Latin-American Collaborative Study of Congenital Malformations, Instituto Oswaldo Cruz, and Department of Genetics, Universidade Federal do Rio de Janeiro, Brazil, and Centro de Estudios Médicos e Investigaciones Clínicas, Conicet, Buenos Aires, *Community Genet* 2004;7:76-94.
 12. Jorge Lopez Camelo. ECLAMC . *Gastroschisis Trends* 2004.
 13. Abdullah F, Arnold MA, Nabaweesi R et al. Gastroschisis in the United States 1988-2003: analysis and risk categorization of 4344 patients. *Journal of Perinatology* 2007; 27: 50-5.