

Caso clínico

Enfermedad de Jodhpur resuelta por piloroplastia laparoscópica (Jodhpur Disease resolved by laparoscopic pyloroplasty)

María Gabriela Jiménez-Méndez¹ y René Carmona-Barba²

Resumen

Antecedentes: la *obstrucción primaria y adquirida al vaciamiento gástrico* fue descrita en 1997, cuando se dieron a conocer los primeros reportes; es una entidad infrecuente y poco conocida entre cirujanos pediátricos, por lo tanto, el objetivo de este trabajo es presentar un caso clínico y ofrecer una sucinta revisión de esta patología.

Caso clínico: se presenta el caso de una niña de 3 años de edad, con cuadro de 3 meses de evolución de vómitos no biliosos posprandiales que fueron intensificándose, dolor abdominal y pérdida de peso. Se le realizó una serie esófago gastroduodenal, la cual mostró un estómago dilatado y un vaciamiento gástrico muy retardado, con medio de contraste hasta 72 horas después. Se complementó con una endoscopia digestiva alta, que mostraba un píloro estenótico con biopsia reportada sin malignidad, ni proceso inflamatorio específico. Sin respuesta al tratamiento médico. Se le realizó una laparoscopia diagnóstica, descartando alguna causa de compresión extrínseca y visualizando un píloro de apariencia normal, por lo que se decidió efectuar una antropíloroplastia tipo Heineke-Mikulicz laparoscópica, que descartó la presencia de una membrana, pero se encontró un anillo fibrótico pilórico que se resolvió con la cirugía. Evolución postoperatoria satisfactoria.

Discusión: el caso de la niña se agrupa en la categoría de obstrucciones primarias y adquiridas al vaciamiento gástrico o enfermedad de Jodhpur, caracterizada por un cuadro clínico de vómitos no biliosos, peristalsis gástrica visible, pérdida de peso, todos los síntomas sin causa aparente (no membrana o diafragma), con estudio histológico que descarta otra enfermedad (no fibrosis, no inflamación específica, no malignidad), y se resuelve satisfactoriamente con una piloroplastia tipo Heineke-Mikulicz. El caso analizado muestra que aunque esta entidad es rara, se debe empezar a

considerar tras descartar otras enfermedades más comunes, y que el abordaje laparoscópico de la antropíloroplastia es seguro y efectivo.

Descriptores: aciamiento gástrico, píloro, laparoscopia.

Abstract

Background: Primary and acquired gastric outlet obstruction was described in 1997 when the first reports were released. It is an unusual illness, widely unknown among pediatric surgeons; therefore the aim of this paper is to present a case and provide a brief analysis of the disease.

Case report: We report the case of a three-year old girl, with a three-month history of worsening postprandial non-bilious vomiting, abdominal pain and weight loss. The upper gastrointestinal contrast study showed an enlarged stomach and delayed gastric emptying, with contrast up to 72 hours later. Endoscopy displayed a stenotic pylorus. The result of the histopathologic examination was normal. Nonetheless, she didn't respond to medical treatment. A diagnostic laparoscopy was performed, but extrinsic compression causes were dismissed and it showed a normal pylorus, so a laparoscopic Heineke-Mikulicz antropyloplasty was performed. It dismissed the presence of a membrane but showed a fibrotic pyloric ring that was resected. She presented a satisfactory postoperative course.

Discussion: This case is grouped in the category of primary and acquired obstructions to gastric emptying or Jodhpur's Disease, which is characterized by clinical symptoms like non-bilious vomiting, visible gastric peristalsis and weight loss with no apparent cause (no membrane or diaphragm); a histopathological study that dismissed other pathologies (no fibrosis, no specific inflammation, no malignancy) and by the fact that it may be easily resolved using a Mikuliczpyloroplasty. This case shows that although this is a rare entity, it should be considered after ruling out other more common diseases. It is also possible to conclude that the laparoscopic approach for antropyloplasty is safe and effective.

Keywords: Gastric outlet, pylorus, laparoscopy.

Fecha recibido: 26 de mayo de 2014 **Fecha aprobado:** 09 de octubre de 2014

Trabajo realizado en: Departamento de Cirugía, Hospital del Niño Morelense, Cuernavaca, Morelos, Mexico.

✉ gabrielajimenezm@gmail.com

ISSN 0001-6012/2015/57/1/38-41
Acta Médica Costarricense, © 2015
Colegio de Médicos y Cirujanos
de Costa Rica

Aunque desde 1997 se dieron a conocer los primeros reportes de una entidad denominada *obstrucción primaria y adquirida al vaciamiento gástrico*, es infrecuente que se presenten casos y, en muchas ocasiones, son ignorados entre los cirujanos pediátricos.

Se caracteriza por un cuadro clínico de vómitos no biliosos, peristalsis gástrica visible, pérdida de peso, todos los síntomas sin causa aparente (no membrana o diafragma), con estudio histológico que descarta otra enfermedad (no fibrosis, no inflamación específica, no malignidad) y se resuelve satisfactoriamente con una piloroplastia tipo Heineke-Mikulicz.

El objetivo de este trabajo fue exponer el caso de una niña de 3 años de edad que presentó este cuadro clínico y que, de igual manera, se resolvió con una piloroplastia tipo Heineke-Mikulicz, pero con abordaje laparoscópico, sin complicaciones y evolución postoperatoria satisfactoria.

Presentación del caso

Se trata de una niña de 3 años de edad, con un cuadro de 3 meses de evolución de vómitos no biliosos posprandiales, los cuales fueron aumentando en frecuencia y gravedad, pues inicialmente se presentaban después de la ingesta de sólidos, y eventualmente también con líquidos. Asoció pérdida de peso, de aproximadamente 1,5 kg, y un desbalance hidroelectrolítico.

Durante este tiempo, había recibido tratamiento con omeprazol, metoclopramida y ranitidina, con mejoría transitoria, según indicaron los padres.

Se le realizó una SEG D que mostró una cámara gástrica distendida, sin paso a duodeno del medio de contraste, incluso una hora después, y con medio de contraste en estómago incluso 72 horas después (figura 1A). También se complementó con una endoscopia digestiva alta (figura 1B), que reportó una "tumoración pilórica", describiendo un píloro de 3 mm de

lumen, no franqueable, sin respuesta a la administración de metoclopramida, por lo que se descartó un espasmo pilórico. No se observó membranas a nivel de antro, ni prepilóricas. Se tomó biopsias con las que se descartó procesos infiltrativos e inflamatorios específicos.

La paciente fue sometida a una laparoscopia diagnóstica, sin evidenciar lesiones compresivas extrínsecas, ni un píloro hipertrófico. Se realizó inicialmente una piloromiotomía tipo Fredet-Ramstedt sin éxito, pues al insuflar la cámara gástrica con aire, aún existía una obstrucción al vaciamiento gástrico, por lo que se decidió realizar una pilorotomía longitudinal desde el borde duodenal hasta el antro, y se visualizó una estrechez prepilórica (figura 2a) que se seccionó, la cual concordaba con la imagen endoscópica; se realizó una piloroantroplastia tipo Heineke-Mikulicz en doble capa, con vicryl 3-0, y se pasó una sonda nasoduodenal bajo visión directa, con el objetivo de iniciar nutrición enteral temprana (figura 2b). Se colocó un parche de epiplón y se dejó un drenaje de Penrose.

La evolución posoperatoria fue satisfactoria; en el día postoperatorio 2 se inició la nutrición enteral con Alfaré® (fórmula semielemental para lactantes) en infusión continua por la sonda nasoduodenal, con adecuada tolerancia. Por el drenaje de Penrose salía poco líquido de características serohemáticas, cursó afebril y sin distensión abdominal. En el día postoperatorio 6 se le realizó un estudio contrastado (figura 2c), el cual mostró un adecuado paso del medio de contraste hacia duodeno, sin fugas ni zonas de estenosis, por lo que se retiró la sonda nasoduodenal y se inició la dieta por boca, inicialmente con líquidos y luego con dieta papilla, la cual fue bien tolerada. En el día 8 postoperatorio la paciente egresó en buenas condiciones, siendo valorada en la consulta externa a la semana y al mes postoperatorios, tolerando bien la dieta, sin molestias, y con un aumento de peso de casi 2 kg.

Discusión

La incidencia de la obstrucción al vaciamiento gástrico en niños es relativamente baja, de alrededor de 1:100000, cuando se excluye la estenosis hipertrófica del píloro (EHP).^{1,2} Sharma *et al.*, en 1997, formularon una modificación a la clasificación de Colin Moore sobre obstrucciones congénitas al vaciamiento gástrico, publicada en 1989,³ con el fin de agregar la estenosis hipertrófica del píloro y aquellas causas adquiridas de vaciamiento gástrico. Propusieron una clasificación con 3 categorías: las obstrucciones intrínsecas congénitas de antro y píloro, la EHP y las adquiridas.³ En la primera se incluyen la agenesia, la atresia y las membranas.⁴ Colocan la EHP en una categoría propia y por último, las causas adquiridas, que se subdividen a su vez en primarias y secundarias. En la primaria se describe la nueva entidad: la obstrucción adquirida al vaciamiento gástrico en infantes y niños. En las secundarias se incluyen la enfermedad ácido péptica y los tumores.³

Posteriormente, en 2008 se publicó una serie más grande de casos con las mismas características, además de una amplia revisión de bibliografía en la que se halló otros casos similares,

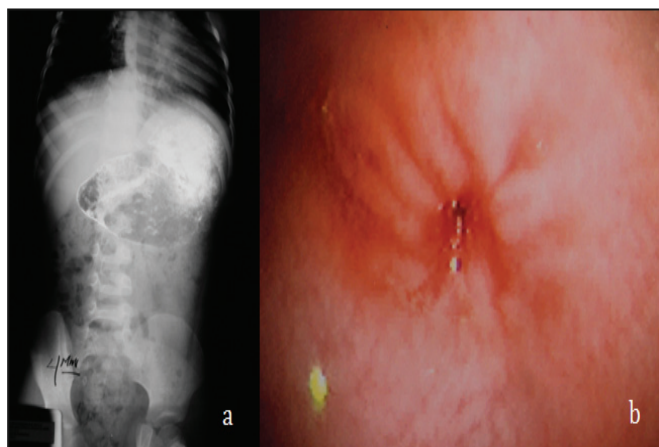


Figura 1. Estudios preoperatorios. a. SEG D (enero-2011), que muestra una cámara gástrica distendida, sin lograr el paso del medio de contraste a duodeno. b. Endoscopia digestiva alta (27-12-2010), que muestra un píloro estenótico, con un lumen de 3 mm diámetro, no franqueable con el endoscopio neonatal.

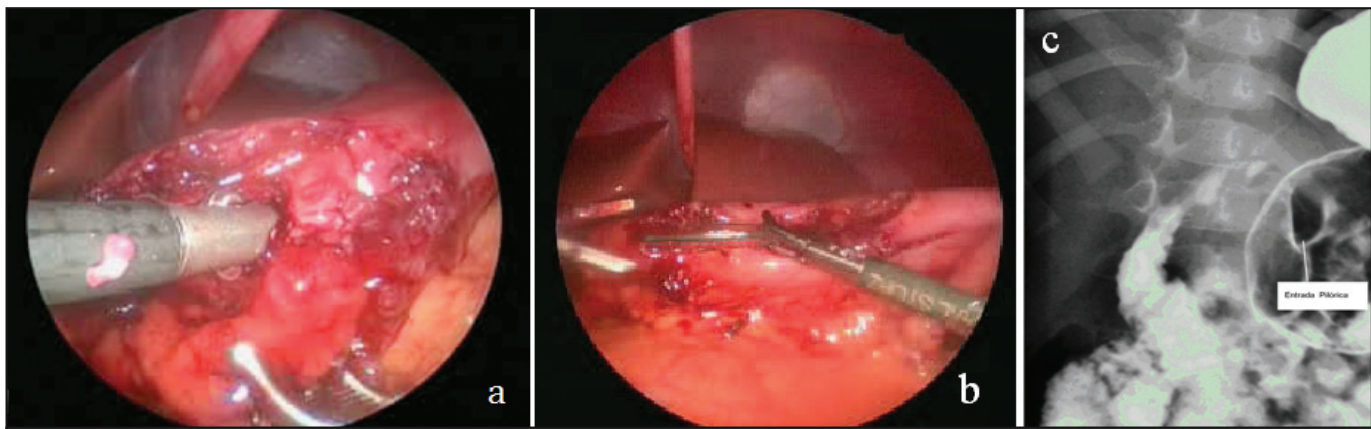


Figura 2. a. Imagen transoperatoria (23-2-11) que muestra la zona de estrechez antropilórica, apenas permeable para la punta de una pinza de Maryland. b. Región antropilórica seccionada para realizar una piloroplastia tipo Heine-Mickulicz, con el paso trasduodenal de una sonda para alimentación enteral temprana. c. Estudio contrastado al sexto día postoperatorio (1-3-11), que muestra piloro permeable, con adecuado paso del medio hidrosoluble al duodeno, sin fugas ni zonas estenóticas.

dando pie a consolidar esta entidad como una enfermedad, a la que se llamó la “*enfermedad de Jodhpur*”, en honor a la ciudad en India donde fueron descritos los casos en ese país.⁶ En esa publicación, los investigadores, además, ampliaron la clasificación, bautizada con el apellido del autor, “clasificación de Sharma”, y agregaron en la categoría de obstrucciones intrínsecas congénitas de antro y píloro, la obstrucción luminal (valvas) y, en la categoría de obstrucciones adquiridas secundarias, la lesión por químicos corrosivos, en la que cabe mencionar que los casos de obstrucción al vaciamiento gástrico son más frecuentes con los ácidos, pues afectan más el estómago que el esófago, a diferencia de las álcalis.⁷

Las úlceras pépticas usualmente se presentan en duodeno y, en segundo lugar, las prepilóricas.⁸ La complicación con una obstrucción al vaciamiento gástrico es rara en niños.⁹ El estudio de Azarow *et al*¹⁰ mostró que desde la introducción de los bloqueadores de la bomba de protones, disminuyó la necesidad de cirugía en los pacientes complicados con sangrado y perforación. Sin embargo, para los casos de obstrucción, la incidencia de cirugía se mantuvo constante, aunque hay otros reportes más recientes,⁹ en los que debido a los resultados positivos obtenidos, la tendencia es utilizar terapia médica para casos complicados con obstrucción al vaciamiento gástrico.

Se debe hacer referencia a algunos reportes de otras entidades causantes de obstrucción al vaciamiento gástrico, más raras aun en la población pediátrica, como un caso publicado de hiperplasia de glándulas de Brunner, que produjo una obstrucción total a nivel pilórico, en un niño de 8 años,¹¹ así como un caso de hiperplasia foveolar secundaria a hipersensibilidad a la leche de vaca, que se presentó con obstrucción al vaciamiento gástrico por la formación de una masa lobular prepilórica que ameritó resección quirúrgica.¹² Otro fue un caso de miofibromatosis infantil en un neonato con un miofibroma a nivel pilórico.¹³ Además, el linfoma gástrico,¹⁴ y los pólipos gástricos pediculados localizados en antro, que podrían protruir a través del píloro y producir una obstrucción al vaciamiento gástrico.¹⁵ Todos estos casos raros se clasificarían como obstrucciones adquiridas secundarias a tumores.

Las glándulas de Brunner se encuentran desde el píloro hasta la segunda porción del duodeno, y corresponden a células submucosas que secretan mucina; la hiperplasia de estas abarca del 5 al 10% de los tumores benignos del duodeno, usualmente es asintomática, aunque se reporta su asociación con sangrado intestinal alto, obstrucción e invaginación duodenal.¹¹ En el caso del niño de 8 años mencionado, la hiperplasia era circunferencial, y no tuvo respuesta adecuada a los inhibidores de bomba de protones, pero resolvió con una piloroplastia laparoscópica tipo Heineke-Mikulicz.¹¹

El caso analizado en este reporte muestra que aunque esta entidad es rara, se debe empezar a considerar tras descartar otras enfermedades más comunes, y que el abordaje laparoscópico de la antropiloro-plastia es seguro y efectivo.

Conflicto de interés: no existe ningún conflicto de interés entre los autores.

Referencias

- Nazir Z, Arshad M. Late-onset primary gastric outlet obstruction—an unusual cause of growth retardation. *J Pediatr Surg.* 2005;40:E13–E16.
- Srivastava P, Gangopadhyay A, Upadhyaya V, Sharma S, Jaiman R, Kumar V. Unusual acquired gastric outlet obstruction during infancy: a case report. *Cases J.* 2008;1:237. doi:10.1186/1757-1626-1-237.
- Moore C. Congenital gastric outlet obstruction. *J Pediatr Surg.* 1989;24:1241-46.
- Sharma K, Agrawal P, Toshniwal H. Acquired gastric outlet obstruction during infancy and childhood: A report of five unusual cases. *J Pediatr Surg.* 1989;32:928-30.
- Gerber BC. Prepyloric diaphragm, an unusual abnormality. A case report. *Arch Surg.* 1965; 90:472-9.
- Sharma K, Ranka P, Pushpa G, Dabi D. Gastric outlet obstruction in children: an overview with report of “Jodhpur disease” and Sharma’s classification. *J Pediatr Surg.* 2008;43:891-896.
- Özcan C, Ergün O, Sen T, Mutaf O. Gastric outlet obstruction secondary to acid ingestion in children. *J Pediatr Surg.* 2004;39:1651-3.

1. Tsamg TM, Saing H, Yeung CK. Peptic ulcer in children. *J Pediatr Surg.* 1990;25:744-8.
8. Huang FC, Chuang JH, Ko SF. Clinical experience in the treatment of ulcer-induced gastric outlet obstruction in seven children. *Acta Paediatr Taiwan.* 2000;41:189-92.
9. Azarow K, Kim P, Shandling B, Ein S. A 45-year experience with surgical treatment of peptic ulcer disease in children. *J Pediatr Surg.* 1996;31:750-3.
10. El Faleh I, Lutz N, Osterheld M, Reinberg O, Nydegger A. Gastric outlet obstruction by Brunner's gland hyperplasia in an 8-year-old child. *J Pediatr Surg.* 2009; 44:E21-4.
11. Morinville V, Bernard C, Forget S. Foveolar hyperplasia secondary to cow's milk protein hypersensitivity presenting with clinical features of pyloric stenosis. *J Pediatr Surg.* 2004;39:29-31.
12. Rohrer K, Murphy R, Thresher C, Jacir N, Bergman K. Infantile myofibromatosis: a most unusual cause of gastric outlet obstruction. *Pediatr Radiol.* 2005; 35:808-11.
13. Ciftci AO, Tanyel FC, Kotiloğlu E, Hiçsönmez A. Gastric lymphoma causing gastric outlet obstruction. *J Pediatr Surg.* 1996;31:1424-6.
14. Kumar A, Quick RG, L Carr-Locke D. Prolapsing gastric polyp, an unusual cause of gastric outlet obstruction: a review of the pathology and management of gastric polyps. *Endoscopy.* 1996;28:452-5.

Instrucciones para autores

Acta Médica Costarricense (AMC) es la publicación científica oficial del Colegio de Médicos y Cirujanos de Costa Rica. La revista publica trabajos inéditos que pueden ser originales, de revisión, de opinión, comunicaciones breves, reportes de casos, cartas al editor y editoriales. Artículos relacionados con las ciencias biomédicas básicas, son considerados en el tanto que ilustren su implicación con la clínica. En todos los casos, lo que se escriba debe estar dirigido a la audiencia médica general.

Los manuscritos presentados a consideración del Comité Editorial (CE), para publicarse en AMC, deben estructurarse de acuerdo con los "Requisitos uniformes para manuscritos enviados a revistas biomédicas", del Comité Internacional de Editores de Revistas Médicas, cuya última versión puede accederse en <http://www.icmje.org>. Los manuscritos enviados en forma inadecuada serán devueltos al autor.

Los artículos aceptados para publicación en AMC pasan a ser propiedad del Colegio de Médicos y Cirujanos de Costa Rica y no deben haber sido publicados total o parcialmente en ninguna otra revista o medio electrónico, aunque sea en otro idioma.

El manuscrito se ordena de la siguiente manera: página de título, resumen en español e inglés, texto principal, agradecimientos y colaboradores, referencias, cuadros, leyendas de las figuras y figuras.

Página de título

Título. En español e inglés, conciso pero informativo en cuanto al objetivo del trabajo. Debe incluir la información necesaria para permitir una recuperación electrónica eficiente. No debe contener abreviaturas. En caso de estudios en animales se debe mencionar la especie.

Autores. Primer nombre y dos apellidos de todos los autores (insertar guión entre el primer y segundo apellido, para evitar confusión en los bancos de datos internacionales entre nombres y apellidos) y su afiliación institucional (lugar(es) de trabajo actual). Deben listarse como autores quienes contribuyeron sustancialmente en el diseño del estudio, adquisición o análisis de la información, redacción del manuscrito o revisión crítica y aprobación de la versión final. Es preciso especificar la contribución de cada autor al trabajo según estas áreas señaladas.

Nombre del departamento(s) e institución(es). Donde se realizó el trabajo y a los que se debe atribuir.

Descriptores. De 3 a 5 palabras claves en español e inglés (keywords).

Título corto. Máximo 45 caracteres.

Listar número de páginas, figuras y cuadros.

Correspondencia. Correo electrónico y teléfonos del autor a quien se debe dirigir la correspondencia.

Fuentes de apoyo. Listado de quienes contribuyeron económicamente, con equipo, medicamentos u otros.

Conflictos de interés. Declaración detallada de todos los potenciales conflictos de interés que puedan tener los autores.

Instrucciones generales:

Artículo original

Resumen. En español e inglés, máximo 250 palabras, estructurado, utilizando los siguientes subtítulos: justificación, métodos, resultados y conclusión (background, methods, results and conclusion). No deben usarse abreviaturas, referencias o notas al pie de página en el resumen.

ESTRUCTURA DEL ARTÍCULO

Introducción. Expresa el propósito del artículo, plantea el objetivo en forma clara y precisa (justificar para qué se quieren los datos obtenidos por la investigación). Ubica el tema dentro del conocimiento actual, evitando una revisión muy extensa de la literatura o un resumen de los resultados.

Métodos. En esta sección se describe con claridad el diseño del estudio, método de selección de participantes (criterios de inclusión y exclusión), instrumentos, análisis de laboratorio, procedimientos u otros utilizados con suficiente detalle como para que sean reproducibles por el lector. Manuscritos que reporten información obtenida en seres humanos deben incluir una nota en la sección de métodos, que asegure que el protocolo del estudio cumplió con los requerimientos del Comité Ético-Científico (CEC) del centro correspondiente, o en su defecto de un CEC aprobado de acuerdo con la ley reguladora de investigación biomédica de Costa Rica (ley 9234); y adjuntar la carta de aprobación cuando se envía el manuscrito. Manuscritos que reporten experimentos con animales deben incluir una nota que asegure que se cumplieron las recomendaciones generales para el manejo y cuidado de animales de experimentación. Se deben identificar con precisión los medicamentos y químicos utilizados en el estudio, si alguno, incluyendo nombre genérico, dosis y vía de administración; además deben describirse claramente los análisis estadísticos y el *software* utilizado, y emplear unidades de medida convencional aprobadas (UI o SI). AMC se reserva el derecho de solicitar el protocolo utilizado en la investigación si lo considera necesario para aclarar algún punto del trabajo.

Resultados. Presentar los resultados de forma clara y concisa, en secuencia lógica en el texto, cuadros, figuras e ilustraciones. No se repiten en el texto datos presentados en los cuadros o ilustraciones, ni se comenta ningún resultado en esta sección.

Discusión. No repite información ofrecida en otra sección (introducción, resultados o métodos); menciona los aspectos nuevos e importantes aportados por el estudio y las conclusiones que se pueden obtener de los resultados. Conviene comparar y contrastar los resultados con otros reportes relevantes en la bibliografía. Señala las limitaciones del estudio y refiere las repercusiones sobre otras investigaciones presentes o futuras. No se derivan conclusiones de estudios no finalizados ni se proponen conclusiones no basadas en los resultados obtenidos

Apéndices. Si se presenta más de un apéndice, deben ser identificados como A,B, etc. las fórmulas y las ecuaciones en los apéndices deben ir numeradas separadamente: Eq. A-1. Eq. A-2, etc.; en un apéndice subsecuente, Eq. B-1 y así sucesivamente. Lo mismo para cuadros y figuras: Cuadro A-1; Fig. A-1, etc.