

Gastrosquisis en un hospital de tercer nivel de la ciudad de Cali, Colombia durante el período marzo 2004 a febrero 2006

HARRY PACHAJOA, MD^{1,4}, WILMAR SALDARRIAGA, MD^{2,4}, CAROLINA ISAZA, MD, MSc^{3,4}

RESUMEN

Introducción: La gastrosquisis es un defecto congénito de la pared abdominal, cuya prevalencia oscila entre 0.6 y 2.7 por 10,000 nacimientos. En los últimos años se ha encontrado un aumento de la prevalencia, asociado con una creciente proporción de madres adolescentes y a nuevos factores etiológicos como exposición a teratógenos específicos y deficiencias nutricionales.

Objetivos del estudio: Determinar la prevalencia de los recién nacidos con gastrosquisis nacidos en Hospital Universitario del Valle de Cali, Colombia, en un período de dos años y evaluar la asociación entre factores demográficos de los padres y la ocurrencia de gastrosquisis.

Metodología: Se realizó un estudio observacional descriptivo, tomando como universo todos los recién nacidos en el Hospital Universitario del Valle entre marzo de 2004 y febrero de 2006, para determinar la ocurrencia de gastrosquisis.

Resultados: Durante el tiempo del estudio, nacieron 16 niños con gastrosquisis de un total de 14,452 nacimientos, lo que representa una prevalencia de 11.1 por 10,000 nacimientos, de 7.8 en 10,000 nacimientos vivos y de 103.5 en nacidos muertos. Se encontró un promedio de edad materna de 18.3.

Conclusión: La prevalencia de gastrosquisis en el Hospital Universitario es 11.1 por 10,000 nacimientos, siendo una de las más altas informadas en la literatura. Se encontró en la mayoría de las madres de bebés con gastrosquisis materna en la segunda década y ser el primer embarazo.

Palabras clave: Gastrosquisis; Enfermedades congénitas.

Gastroschisis at hospital of third level in Cali, Colombia, from March 2004 to February 2006

SUMMARY

Introduction: Gastroschisis is a congenital malformation in the abdominal wall, whose prevalence ranges between 0.66 and 2.7 per 10,000 births. In the last years has been detected an increase of the prevalence has been detected in recent years. This is associated to an increasing proportion of teenage mothers and to new etiologic factors like exposition to specific teratogens and nutritional deficiencies.

Objectives: To determine the prevalence of newborns with gastroschisis born at Hospital Universitario del Valle (HUV) in Cali, during a two-year period and to evaluate the association between demographic factors of the parents and the occurrence of gastrosquisis.

Methods: An observational and descriptive study was made, considering as universe all newborns at Hospital Universitario del Valle in Cali, Colombia, between March 2004 and February 2006, to determine the occurrence of newborns with gastroschisis.

Results: During the time of the study, 16 children were born with gastrosquisis from a total of 14,452 births, representing a prevalence of 11.1 per 10,000 births, of 7.8 per 10,000 live newborns and of 103.5 in dead newborns. We found the mothers' average age at 18.3. In August 2005 at Hospital Universitario del Valle there were 611 births of which 5 were born with

1. Aspirante a Doctor en Ciencias Biomédicas, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia. e-mail: harrympl@yahoo.com
2. Profesor Auxiliar, Departamento de Morfología, Escuela de Ciencias Básicas, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia. e-mail: wsaldarriaga0608@yahoo.com
3. Profesora Titular, Departamento de Morfología, Escuela de Ciencias Básicas, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia. e-mail: carolinaisa@cable.net.co
4. Grupo de Malformaciones Congénitas Perinatales y Dismorfología, Hospital Universitario del Valle «Evaristo García», Cali, Colombia.

Recibido para publicación julio 26, 2007 Aceptado para publicación abril 18, 2008



Foto 1. Recién nacido con gastrosquisis. Nótese el defecto de la pared abdominal, es lateral al cordón umbilical y en este caso derecho.

gastroschisis, showing a prevalence of 81.8 per 10,000 and 1 per 122 newborns.

Conclusions: The prevalence of gastroschisis at HUV of 11.1 per 10,000 births is one of the highest reported in the literature. Maternal age under 20 years and being the first pregnancy were found in most of the mothers of newborns with gastroschisis. 5 cases of gastroschisis in August 2005 at HUV suggest a cluster for this malformation.

Keywords: *Gastroschisis; Abnormalities; Congenital disease.*

La gastrosquisis es un defecto congénito de la pared abdominal anterior, lateral a la inserción del cordón umbilical, por lo general al lado derecho (Foto 1)¹. Su etiología se considera multifactorial y actualmente se han involucrado factores maternos como exposición a agentes teratógenos, salicilatos y deficiencias nutricionales en las primeras semanas de gestación, pero no se ha encontrado una base de predisposición genética²⁻⁴. Cualquiera de los factores teratogénicos antes mencionados, produce probablemente una alteración vascular de la arteria onfalomesentérica (defecto primario), que destruye una porción de la pared abdominal a través del cual protruye el contenido abdominal hacia la cavidad amniótica^{5,6}.

El incremento de la prevalencia de gastrosquisis se observó por primera vez en Finlandia en 1970; luego el International Clearinghouse of Birth Defects Monitoring

Systems (ICBDMS) en 1980 informó igual tendencia en Estrasburgo, París, Israel, y Atlanta. Actualmente esta tendencia mundial continúa pero hay diferencias dependiendo de la situación geográfica, sin una razón clara⁷⁻¹⁰. La prevalencia oscila entre 0.66 y 2.17 con un promedio de 1.33 por 10,000 nacimientos¹¹.

En Latinoamérica la prevalencia de gastrosquisis según el Estudio Colaborativo Latino Americano de Malformaciones Congénitas (ECLAMC) en el período 1982-1998 fue de 1.1 por 10,000 nacimientos¹².

En los últimos años se ha encontrado que la edad materna menor a veinte años es un factor de riesgo significativo sobre todo en países desarrollados; la razón propuesta para esta asociación, aunque no se ha comprobado, es la utilización de teratogenos desconocidos como abortivos, cambios en el estilo de vida, dieta, drogas ilícitas, cigarrillo y uso de anticonceptivos orales^{2,3,13}. Otro factor asociado con el aumento de la prevalencia de gastrosquisis es el estado de primigravidez^{2,7,9,14}.

El ECLAMC es un estudio de vigilancia epidemiológica de las anomalías del desarrollo que se realiza en los hospitales de países latinoamericanos, con metodología de casos y controles. Actualmente los nacimientos estudiados superan los 200,000 por año. En Colombia este estudio se lleva a cabo desde junio de 2001 y en el Hospital Universitario del Valle (HUV) de Cali, Colombia, desde marzo del 2004. El HUV es un hospital

de niveles III y IV dentro del sistema de salud, de referencia para la ciudad de Cali y toda la región del suroccidente colombiano, con una región de influencia para los departamentos del Valle del Cauca, Cauca y Nariño.

El objetivo de este artículo es determinar la prevalencia de gastrosquisis en el HUV y evaluar la asociación entre factores demográficos de los padres y la ocurrencia de gastrosquisis entre marzo de 2004 y febrero del 2006.

MATERIALES Y MÉTODOS

Se realizó un estudio observacional descriptivo, tomando como universo todos los recién nacidos (RN) en el HUV, de Cali, Colombia, entre marzo 1 de 2004 y febrero 28 de 2006, para determinar la prevalencia de RN con gastrosquisis. Se consideró caso a todo RN vivo de cualquier peso y a los muertos de 500 g o más con diagnóstico clínico de gastrosquisis.

La recolección de la información de los casos la realizó el médico encargado de evaluar diariamente todos los RN intrahospitalarios, de acuerdo con la descripción recomendada por el manual operacional del ECLAMC versión 2002¹⁵.

Para cada paciente con gastrosquisis se diligenció la ficha de caso donde se anotaron las enfermedades agudas entre las cuales se registraron infección urinaria, gripa, vaginosis, rubéola, preeclampsia, otras infecciones, inmunizaciones, exposición a factores físicos como traumatismos severos, radiaciones, exposición a tóxicos, maniobras abortivas mecánicas, cerclaje, medicamentos recibidos especificando para cuál enfermedad fue prescrito, sus dosis y sus vías de administración, y la presencia de hemorragias durante el embarazo. Para estas variables se trató de precisar el tiempo exacto de su exposición durante el embarazo dividido en trimestres. También se incluyeron como variables en la mujer embarazada, las enfermedades crónicas, las cuales se definieron como aquellas enfermedades que se presentaron antes del embarazo y que al momento del embarazo persistían y requerían tratamiento continuo. Las variables universales tenidas en cuenta fueron, edad, paridad, edad gestacional, edad paterna, escolaridad en ambos padres, raza y oficio.

En el RN con gastrosquisis se tuvieron en cuenta: sexo, tamaño del defecto, malformaciones asociadas al

nacimiento, vía de parto, diagnóstico prenatal de la malformación y si nació vivo o no.

Para el análisis se utilizó el paquete estadístico SPSS. Para la descripción general de los pacientes se usó estadística descriptiva con el cálculo de medianas y frecuencias.

RESULTADOS

Del marzo 1 de 2004 a febrero 28 de 2006 en el HUV se atendieron 14,452 nacimientos de los cuales 16 presentaron gastrosquisis, correspondiendo a una prevalencia de 11.1 por cada 10,000 nacimientos. Del total de nacimientos, 13,969 nacieron vivos y de estos 11 tenían gastrosquisis, estimando una prevalencia de 7.8 por 10,000 nacidos vivos y se presentaron 483 mortinatos, de estos 5 tenían gastrosquisis representando 1% de los nacidos muertos.

La distribución por mes de los casos de gastrosquisis durante el período de estudio aparece en la Gráfica 1. La distribución por sexo de los recién nacidos con gastrosquisis fue 9 (56.6%) de sexo masculino y 7 (43.7%) de sexo femenino. El peso promedio fue 2,122 g; en 13 (81.2%) de los casos el peso fue bajo (menor a 2,500 g). El tamaño del defecto fue descrito en 12 de los 16 casos, con un promedio de 5.4 centímetros.

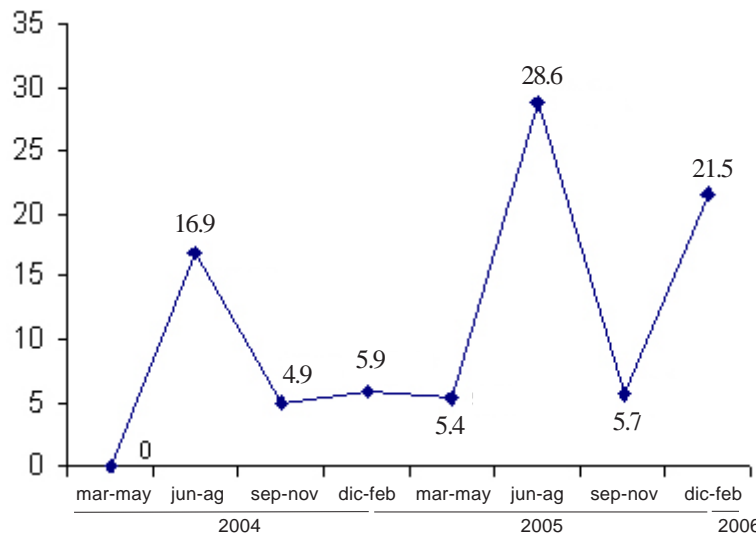
Del total de pacientes (16), 11 (68.8%) nacieron pretérmino y 5 (32.2%) a término. De los 11 casos con RN vivo, 9 (82%) nacieron por cesárea.

Al realizar el análisis de los factores asociados con los casos, se encontró lo siguiente por cada factor analizado:

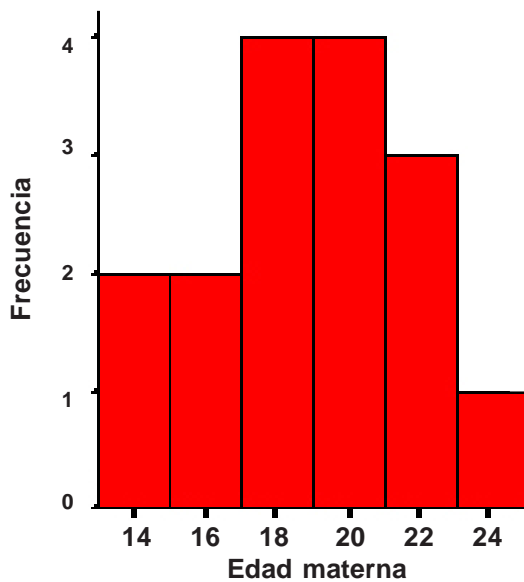
Edad materna. El promedio de edad materna y paterna en los casos fue 18.3 (Gráfica 2) y de 21.4 años respectivamente; 50% de los casos se presentaron en madres menores o iguales a 18 años y 75% en menores o iguales a 20 años. Durante el período de estudio se encontraron 408 madres menores o iguales a 14 años de las cuales, 2 presentaron RN con gastrosquisis, mostrando una prevalencia en este grupo etéreo específico de 1 caso por cada 204 nacimientos.

Control prenatal. Se realizó control prenatal en 14 (87.5%) de los 16 casos, con un promedio de 3.2 controles. A 15 (94%) de las madres se les realizó ecografía obstétrica prenatal y sólo a 9 (61%) de estas se les realizó diagnóstico prenatal de gastrosquisis.

Enfermedades agudas. La enfermedad aguda en-



Gráfica 1. Prevalencia por 10,000 nacimientos de gastrosquisis por trimestre durante el período marzo 2004 a febrero 2006. Nótese la prevalencia aumentada durante el trimestre junio-agosto 2005.



Desviación típica = 2.68 Media = 18.3 N = 16

Gráfica 2. Edad materna de recién nacidos con gastrosquisis durante el período marzo 2004 a febrero 2006.

contrada con más frecuencia (12.7%) fue la vaginosis.

Medicamentos recibidos durante el embarazo.

Consumo de multivitamínicos durante el embarazo en 12 (67%).

Escolaridad. Del total de madres, 6% no terminó la educación básica primaria, 19% sólo tenía este nivel

educativo. La escolaridad materna más frecuente fue la secundaria incompleta (50%), seguida de la secundaria completa (25%).

Procedencia. Procedían de Cali 10 (62%), de Buenaventura 2 (13%), de El Cerrito 2 (13%), Jamundí 1 (6%) y de La Unión 1(6%); todas del departamento del Valle del Cauca. De los 10 casos de Cali, sólo de 8 se tienen datos exactos del barrio; en los datos obtenidos las viviendas de los casos se distribuyeron en las comunas 19, 2, 8, 13, 4, 6; de estas cuatro son de estrato 2, dos de estrato 3, y uno de estrato 4 y uno de estrato 5.

DISCUSIÓN

La gastrosquisis es una malformación producto de una secuencia que se inicia probablemente con la alteración vascular de la arteria onfalomesentérica¹⁶, con una prevalencia mundial de 1.3 por 10,000 nacimientos¹¹. En el HUV se observaron 16 casos en un período de 2 años en un total de 14,452 nacimientos, lo que corresponde a una prevalencia de 11.1 por 10,000 RN y de 1 por cada 903 nacimientos, evidenciando una prevalencia de 8 veces lo informado por la literatura¹¹.

Sin embargo, el HUV un hospital de tercer y cuarto nivel que no sólo atiende las pacientes obstetricias de alta complejidad por enfermedad materna o fetal, sino también pacientes de baja complejidad pero con escasos recursos económicos; por tanto la prevalencia de gastros-

quisis en el HUV no puede ser extrapolada a la ciudad de Cali.

Si bien la prevalencia de gastrosquisis en el HUV está incrementada con respecto a la literatura, existe el sesgo de que es un hospital de remisión de hospitales de menor complejidad de la región; pero al comparar esta prevalencia con hospitales de nivel de atención y cobertura similares como la Maternidad Hospital Clínico de la Universidad de Chile, quienes durante el período 1991-2001 informaron una prevalencia de 2.1 por 10,000 nacimientos y durante el período 1996-2005 de 3.8^{17,18} y la prevalencia del Hospital Concepción Palacios de la ciudad de Caracas en Venezuela quienes durante el período 1995 a 1999 encontraron una prevalencia de 4.2 por 10,000 nacimientos¹⁹. La prevalencia informada en el HUV es de 2.5 a 5 veces lo reportado en estos hospitales, evidenciando que su prevalencia de gastrosquisis está por fuera de lo esperado.

La prevalencia de las malformaciones congénitas en mortinatos es sensiblemente mayor que en RN vivos. En este estudio se encontró gastrosquisis en 1% de los mortinatos, siendo esta prevalencia 11 veces mayor que la encontrada en RN vivos.

La aparición ocasional de malformaciones congénitas de baja ocurrencia con un número mayor de casos de lo esperado en un corto tiempo se denomina cluster en el tiempo²⁰. Recientemente se publicó un cluster para sirenomelia nacidos en el HUV²¹. Durante el período agosto 2 a 23 de 2005 (22 días), se presentaron 5 casos de gastrosquisis en el HUV, lo que correspondería a un nuevo cluster en el tiempo para malformaciones de baja ocurrencia en este hospital.

En el mes de agosto del 2005 se presentaron en el HUV 611 nacimientos de los cuales 5 eran RN con gastrosquisis, dando una prevalencia durante ese período de 81.8 por 10,000 y de 1 por cada 122 nacimientos (8.1%), lo que representaría la más alta descrita en un período tan corto.

Los factores de riesgo claramente establecidos para tener hijos con gastrosquisis son la edad materna menor de 20 años y el primer embarazo¹¹. En nuestra población, se encontró un promedio de edad materna de 18.3 años y 50% de los casos fueron de madres menores a 18 años; 56.3% de las madres cursaban con su primer embarazo; el promedio de gravidez fue de 1.6, estos hallazgos coinciden con lo informado en la literatura^{6,9,22}.

El pobre control prenatal, el bajo estrato socioeconómico, la baja escolaridad, la ingestión de bebidas alcohólicas y el consumo de cigarrillo, se han relacionado como factores de riesgo de malformaciones congénitas^{2,13}. En el presente estudio 14 (87.5%) de las 16 madres tuvieron control, con un promedio de 3.2 controles por madre.

Solo una de las madres admitió el consumo de alcohol durante el embarazo y todas negaron consumo de cigarrillo y cocaína, lo que no concuerda con lo informado en la literatura^{6,9,10,23}. Estos resultados pueden ser explicados por la no aceptación social del consumo de estas sustancias durante el embarazo y una sensación de culpabilidad sobre los defectos encontrados en el RN.

Se observó el sexo masculino en 9 de los 16 casos, lo que coincide con lo descrito por la mayoría de autores^{24,25}.

El diagnóstico prenatal de gastrosquisis es muy probable en personal entrenado y con equipos adecuados de ultrasonografía obstétrica²⁶. En esta serie de casos, 94% de las madres se le realizó ecografía obstétrica durante el segundo trimestre del embarazo, y 61% se les hizo el diagnóstico de gastrosquisis *in utero*, evidenciando un pobre diagnóstico de una malformación congénita mayor, de buen pronóstico si se realizan a tiempo las intervenciones necesarias por el grupo de neonatología y cirugía pediátrica después de un nacimiento electivo por cesárea²⁷.

La gastrosquisis se asocia raramente con alteraciones cromosómicas. Las anomalías estructurales asociadas con la gastrosquisis se encuentran entre 10% y 20% de los casos, siendo la atresia intestinal la más común²⁸.

En la actualidad el tratamiento del RN con gastrosquisis es quirúrgico; lo ideal es realizar el cierre primario completo; sin embargo, cuando el defecto es grande, este tipo de procedimiento quirúrgico no está indicado, por las complicaciones vasculares y respiratorias²⁹.

Los 16 casos presentados corresponden al sistema de vigilancia y registro de las malformaciones congénitas del HUV, evidenciando la utilidad de dichos registros en los hospitales.

Finalmente se destaca la importancia del registro y vigilancia de las malformaciones congénitas en Colombia, debido a los incrementos de malformaciones de baja ocurrencia y la aparición de cluster, como lo informado con sirenomelia, ciclopía y ahora gastrosquisis lo que amerita no sólo el registro de esta malformación sino estudios

encaminados a encontrar factores etiológicos y asociados con la ocurrencia de estos defectos, factores individuales, teratogénicos y medio-ambientales^{8,12,14,15,30,31}.

REFERENCIAS

- Aspelund G, Langer JC. Abdominal wall defects. *Curr Paediatr*. 2006; 16: 192-8.
- Lam PK, Torfs CP. Interaction between maternal smoking and malnutrition in infant risk of gastroschisis. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol*. 2006; 76: 182-6.
- Martínez-Frías ML, Rodríguez-Pinilla E, Prieto L. Prenatal exposure to salicylates and gastroschisis: a case-control study. *Teratology*. 1997; 56: 241-3.
- Komuro H, Mori M, Hayashi Y, Fukagawa M, Makino S, Takahara K, et al. Mutational analysis of the BMP-1 gene in patients with gastroschisis. *J Pediatr Surg*. 2001; 36: 885-7.
- Martínez-Frías ML, Bermejo E, Rodríguez-Pinilla E. Body stalk defects, body wall defects, amniotic bands with and without body wall defects, and gastroschisis: comparative epidemiology. *Am J Med Genet*. 2000; 92: 13-8.
- Hoyme HE, Higginbottom MC, Jones KL. The vascular pathogenesis of gastroschisis: intrauterine interruption of the omphalomesenteric artery. *J Pediatr*. 1981; 98: 228-31.
- Suita S. Changing profile of abdominal wall defects in Japan: Results of a national survey. *J Pediatr Surg*. 2000; 35: 66-72.
- Baerg J, Kaban G, Tonita J, Pahwa P, Reid D. Gastroschisis: A sixteen-year review. *J Pediatr Surg*. 2003; 38: 771-4.
- Rankin J, Dillon E, Wright C. Congenital anterior abdominal wall defects in the north of England, 1986-1996: occurrence and outcome. *Prenat Diagn*. 1999; 19: 662-8.
- Houglanda KT, Hannab AM, Meyersb R, Nulla D. Increasing prevalence of gastroschisis in Utah. *J Pediatr Surg*. 2005; 40: 535-40.
- Chabra S, Gleason CA. Gastroschisis: embryology, pathogenesis, epidemiology. *NeoReviews*. 2005; 6: e493-9.
- Estudio Colaborativo Latinoamericano de Malformaciones Congénitas. XXI Reunión Anual del Estudio Colaborativo Latinoamericano de Malformaciones Congénitas, 2000. [fecha de acceso enero 4 de 2007]. Disponible en: <http://www.biologia.ufrj.br/sociedades/eclamc>
- Torfs CP, Katz EA, Bateson TF, Lam PK, Curry C. Maternal medications and environmental exposures as risk factors for gastroschisis. *Teratology*. 1996; 54: 84-92.
- Emusu D, Salihu HM, Aliyu ZY, Pierre-Louis BJ, Druschel CM, Kirby RS. Gastrsochisis, low maternal age, and fetal morbidity outcomes. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol*. 2005; 73: 649-54.
- Castilla EE, Orioli IM. ECLAMC: The Latin-American Collaborative Study of Congenital Malformations. *Community Genet*. 2004; 7: 76-94.
- Hoyme HE, Higginbottom MC, Jones KL. The vascular pathogenesis of gastroschisis: intrauterine interruption of the omphalomesenteric artery. *J Pediatr*. 1981; 98: 228-31.
- Nazer J, Juárez ME, Hübner ME, Antolini M, Cifuentes L. Malformaciones congénitas del sistema digestivo. Maternidad Hospital Clínico de la Universidad de Chile. Período 1991-2001. *Rev Med Chile*. 2003; 131: 190-6.
- Nazer J, Cifuentes L, Águila A, Bello MP, Correa F, Melibosky F. Prevalencia de defectos de la pared abdominal al nacer. Estudio ECLAMC. *Rev Chile Pediatr* 2006; 77: 481-6.
- Ramos A, Mata D, Limardo L, Smaili S, Palmero M, Trejo E. Onfalocèle y gastrosquisis en la Maternidad «Concepción Palacios» 1995-1999. *Rev Obstet Ginecol Venez*. 2001; 61: 223-8.
- William LJ, Honein MA, Rasmussen SA. Methods for a public health response to birth defects clusters. *Teratology*. 2002; 66 (Suppl): 50-8.
- Solano AC, Saldarriaga W, Isaza C, Mastroiacovo P, Castilla EE. Foco epidémico de sirenomelia en Cali, Colombia. Informe de 4 casos en el Hospital Universitario del Valle en 54 días. *Colomb Med*. 2006; 37: 213-8.
- Alfonso CA, Dávalos FE, Guerra A, Rodríguez I. Incidencia y factores asociados a mortalidad en recién nacidos con gastrosquisis en el Hospital Universitario Dr. José E. González. *Med Univers*. 2005; 7: 71-5.
- Fajardo F, Olivás MR. Gastrosquisis y onfalocèle, caracterización clínica. *Bol Clin Hosp Infant Edo Son*. 2001; 18: 44-50.
- Suita S, Okamatsu T, Yamamoto T, Handa N, Nirasawa Y, Watanabe Y, et al. Changing profile of abdominal wall defects in Japan: Results of a national survey. *J Pediatr Surg*. 2000; 35: 66-72.
- Baerg J, Kaban G, Tonita J, Pahwa P, Reid D. Gastroschisis: A sixteen-year review. *J Pediatr Surg*. 2003; 38: 771-4.
- Hunter A, Soothill P. Gastroschisis -an overview. *Prenat Diagn*. 2002; 22: 869-73.
- Driver CP, Bruce J, Bianchi A, Doig CM, Dickson AP, Bowen J. The contemporary outcome of gastroschisis. *J Pediatr Surg*. 2000; 35: 1719-23.
- Molik KA, Gingalewski CA, West KW, Rescoarla FJ, Scherer LR, Engum SA, et al. Gastroschisis: a plea for risk categorization. *J Pediatr Surg*. 2001; 36: 51-5.
- Sauter ER, Falterman KW, Arensman RM. Is primary repair of gastroschisis and omphalocele always the best operation? *Am J Surg*. 1991; 57: 142-4.
- García H, Salguero GA, Moreno J, Arteaga C, Giraldo A. Frecuencia de anomalías congénitas en el Instituto Materno Infantil de Bogotá. *Biomedica*. 2003; 23: 161-72.
- Saldarriaga W, Isaza C, Mastroiacovo P, Castilla EE. Ciclopía en el Hospital Universitario del Valle (Cali, Colombia). Reporte de cuatro casos nacidos y revisión de la literatura. *Rev Colomb Obster Ginecol*. 2007; 58: 70-7.