

Múltiples factores asociados a la mortalidad en el recién nacido con gastrosquisis: reporte de un caso

Multiple factors associated with mortality in a newborn with gastroschisis: report of a case

Teresa Alexandra Chimbo Oyaque, MD^{1*}, Carla Elizabeth Caicedo Torres, MD¹, Cristina Elizabeth Chimbo Oyaque, MD^{2*}, Mónica Estefanía Mariño Tapia, MD³

¹Ministerio de Salud Pública. Hospital Básico El Corazón. Provincia de Cotopaxi. República del Ecuador.

²Instituto Ecuatoriano de Seguridad Social. Hospital IESS Puyo. Provincia Pastaza. República del Ecuador.

³Ministerio de Salud Pública. Centro de Salud Guano. Provincia de Chimborazo. República del Ecuador.

*Autor de correspondencia: Teresa Alexandra Chimbo Oyaque, MD. Ministerio de Salud Pública. Hospital Básico El Corazón. Provincia de Cotopaxi. República del Ecuador. Teléfono 0996834476. Correo electrónico: alexita7c24@hotmail.com

Resumen

La gastrosquisis es una malformación congénita poco frecuente en los recién nacidos, sin embargo su elevada mortalidad la convierten en una malformación de gran importancia a tomar en cuenta. Existen ciertos factores de riesgo como lo son el embarazo adolescente, ser el producto de una primigesta, el hábito tabáquico y nivel educativo bajo. En los últimos años se ha observado un incremento en su prevalencia, no obstante no ha sido estudiada ampliamente en Ecuador. Se presenta el caso clínico de gestante de 18 años, primigesta, de bajo nivel socioeconómico y educativo, con mal control prenatal que acude a las 32 semanas con amenaza de parto pretérmino e infección del tracto urinario, la cual evoluciona a parto vaginal con la obtención de producto con gastrosquisis, el cual fallece en el nacimiento. La madre presentó numerosos factores de riesgo conocidos, como la edad, bajo nivel socioeconómico, exposición al humo de tabaco, incluyéndose también el pobre control prenatal, el cual es determinante para planificar el parto y el manejo inmediato del recién nacido, resaltándose la importancia de conocer esta patología, sus factores de riesgo asociados, así como la importancia de capacitar a la comunidad sobre el adecuado control prenatal para evitar un desenlace fatal como el del presente caso.

Palabras clave: Gastrosquisis, malformación congénita, embarazo adolescente, hábito tabáquico.

Abstract

Gastroschisis is a rare congenital malformation in newborns; however its high mortality makes it a very important malformation to take into account. There are certain risk factors such as teenage pregnancy, being the product of a primiparous, smoking habit and low educational level. In recent years there has been an increase in its prevalence, however it has not been widely studied in Ecuador. We present the clinical case of a pregnant woman of 18 years, first-time mother, of low socioeconomic and educational level, with poor prenatal control who attends at 32 weeks with the threat of preterm delivery and urinary tract infection, which evolves to vaginal delivery with the obtaining of a product with gastroschisis, which dies at birth. The mother presented numerous known risk factors, such as age, low socioeconomic level, exposure to tobacco smoke, and poor prenatal control, which is crucial for planning the delivery and the immediate management of the newborn, highlighting the importance of knowing this pathology, its associated risk factors, as well as the importance of training the community on adequate prenatal care in order to avoid a fatal outcome such as the one in this case.

Key words: Gastroschisis, congenital malformation, teenage pregnancy, smoking habit.

La gastrosquisis se define como una malformación congénita que produce una herniación de los intestinos, y en ocasiones, de otros órganos abdominales a través de la pared abdominal del feto. En la actualidad se ha determinado un aumento en su prevalencia, estimándose una frecuencia de 2 a 3 casos por cada 10.000 nacimientos vivos, la cual podría ascender en los próximos años¹. Esta condición afecta a todas las razas, observándose un predominio en las mujeres blancas y de origen hispano². Las causas del aumento de esta prevalencia son objeto de estudio en la actualidad.

Se ha sugerido al embarazo en las adolescentes como factor de riesgo para gastrosquisis (3), estimándose que las adolescentes, menores a 20 años, tienen un riesgo 7,2 veces más alto de tener un producto con gastrosquisis¹. Esto es un problema ya que el embarazo en las adolescentes ha aumentado drásticamente durante las últimas décadas en los países en vías de desarrollo. Uno de los factores que repercuten en la elevada tasa de embarazo adolescente es la escolaridad. Se ha establecido una asociación tanto con un bajo nivel de escolaridad así como con un alto nivel educativo, debido a que las adolescentes son menos dependientes de sus padres y se involucran más con sus pares del sexo opuesto; el componente educativo bajo tiene un mayor impacto ya que es más prevalente e implica un menor juicio sobre los riesgos de incurrir en la sexualidad temprana así como menor conocimiento respecto a métodos anticonceptivos³.

Se han evaluado múltiples factores de riesgo para gastrosquisis como el hábito tabáquico, bajo índice de masa corporal (IMC), infecciones urinarias, uso de drogas recreacionales y dieta baja en ácido fólico, frutas y vegetales. Estudios recientes reportan que el estrés materno durante el primer trimestre podría ser también un factor de riesgo para el desarrollo de esta patología⁴. A pesar de no haber extensa literatura en Ecuador, en el Estudio de Malformaciones Congénitas en Chile y Latino América (ECLAMC) se observó que la menor prevalencia de malformaciones congénitas en general fue en Ecuador, con un 1,4%⁵. Cabe destacar que la mortalidad por gastrosquisis es de hasta el 20% en los recién nacidos afectados⁶. Por lo tanto, a pesar de su baja prevalencia, la elevada mortalidad indica que se deben aumentar las investigaciones para determinar los factores asociados a dicha patología en nuestra población. Se expone el caso de un recién nacido con gastrosquisis en una adolescente embarazada con múltiples factores de riesgo con desenlace fatal, por lo que se debe concientizar a la población para aumentar el adecuado control prenatal, que permita planificar y conducir de manera correcta los embarazos de alto riesgo.

Caso clínico

Paciente femenina de 18 años de edad, primigesta con embarazo de 34 semanas por fecha de última menstruación. Gestaciones 0, partos 0, aborto 0. Grupo O positivo. Raza mestiza. Procedencia y residencia rural. Nivel socioeconómico bajo. Nivel educativo de primaria completa. Convivía con su abuela. Familia disfuncional. Estado civil soltera, sin pareja. Antecedentes patológicos personales: exposición a humo de tabaco 1 vez por semana hasta el segundo mes de gestación según referencia materna, asimismo infecciones de vías urinarias a repetición durante el embarazo, tratada con antibióticos sin complicaciones. Antecedentes familiares: niega malformaciones congénitas anteriores. Antecedentes gineco-obstétricos: bajo peso reportado durante el primer trimestre, con índice de 15,2 Kg/m² (Peso: 37,7 Kg; talla: 1,58 mts). Exámenes de VDRL y VIH negativos. Vacunación incompleta. Hemoglobina: 13 g/l. Embarazo no controlado, la madre acudió a 2 controles prenatales realizados por médico general, sin realización previa de algún estudio especializado de imágenes.

Se presenta gestante en la emergencia del hospital básico de primer nivel, del ámbito rural, en horas de la madrugada, con dolor de bajo vientre de tipo contracciones uterinas dolorosas, de un día de evolución en posición antálgica, acompañado de disuria. Se evalúa y examina por el médico general quien reporta: frecuencia cardíaca materna: 82 latidos por minuto; presión arterial: 110/80 mmHg; altura uterina de 30 cm; frecuencia respiratoria: 24 respiraciones por minuto. Altura uterina: 33cm. Feto único en posición longitudinal cefálico. Frecuencia cardíaca fetal: 130 latidos por minutos. Especuloscopia: sin pérdidas vaginales. Tacto vaginal: dilatación del cuello uterino dilatado 2 cm y borramiento del 10%. Ante estos hallazgos se diagnostica a la paciente de gestación 33 semanas según altura uterina (fecha de última regla imprecisa) + amenaza de parto pretérmino + embarazo de alto riesgo. Se ingresa para tocólisis y realización de examen de orina por sospecha de infección del tracto urinario bajo. El examen de orina mostró densidad: 1010; pH: 7; bacterias: +; moco: +; Hb: +; leucocitos: +++; piocitos: 30-40 por campo. Células epiteliales: 5-7. Microalbuminuria: Albumina 100 mg/L. Examen de sangre: hemoglobina 12 gr/dL; Hcto: 40%; VGS: 30 mm/h; Plaquetas: 205.000; leucocitos: 12.800; segmentados: 70%; linfocitos: 24%; monocitos: 3%; eosinófilos: 3%. Se administra solución dextrosada al 5% a 21 gotas por minuto; Ampicilina+sulbactam 1,5 gr endovenosos cada 6 horas; nifedipina 10 mg vía oral cada 8 horas (con dosis inicial de 20 mg en 3 dosis).

Se le realiza ecografía obstétrica intrahospitalaria a las 6 horas de evolución donde se muestra feto único de 32 semanas de gestación, detectándose deformidad de pared abdominal compatible con gastrosquisis, **Figura 1**. Posteriormente a las 8 horas de evolución intrahospitalaria, la paciente refiere mayor dolor con dilatación de 3cm y borramiento del 30%, con salida de líquido por OCE observada por especuloscopia. Ante la progresión del cuadro clínico, los diagnósticos mater-

no-fetales y además de no contar con unidad de cuidados intensivos neonatales ni especialista para la atención de parto vaginal, se decide rápidamente su transferencia al hospital de mayor complejidad más cercano (6 horas de distancia) con diagnóstico de embarazo de 32 semanas por Eco + amenaza de parto pretérmino + ruptura prematura de membranas + gastrosquisis + infección del tracto urinario + embarazo de alto riesgo.

Durante el traslado al hospital de mayor complejidad, en ambulancia junto con un médico y enfermera capacitados, la gestante se muestra rápida y progresivamente más álgica, con aumento de contracciones uterinas y pérdidas de líquido am-

niótico por vía vaginal. Al tacto vaginal se evidencia cuello cervical central con dilatación de 7 cm, borramiento del 80%. En el traslado dentro del transporte el parto evoluciona a período expulsivo donde se recibe a recién nacido, masculino, con defecto de la pared abdominal de tamaño considerable sobre el que protruía el intestino delgado, intestino grueso, vejiga y estómago, sin tener una membrana que los cubriese, flácido, con cianosis generalizada, pulso ausente, sin respuesta a estímulos. Se comienza maniobras de reanimación cardiopulmonar, sin recuperar frecuencia respiratoria, manteniéndose distrés respiratorio a pesar de maniobras por 15 min. Se continuaron las maniobras de reanimación, sin embargo el neonato llega sin signos vitales al hospital, declarándose su fallecimiento.

Figura 1. Ecografía obstétrica en gestante primigesta con feto único que muestra gastrosquisis y edad gestacional de 32 semanas.



Discusión

En el presente caso, se trató de una adolescente embarazada, el cual es uno de los principales factores de riesgo para la obtención de un producto con gastrosquisis. En efecto, en un estudio realizado por Lubinsky y colaboradores, se propone que en las madres jóvenes y primigestas, como el caso de la paciente, existen mayores niveles de estrógeno durante el primer trimestre, proponiendo que estos niveles elevados pueden causar la inducción de trombogénesis que afecten el desarrollo de la pared abdominal del feto, así como aumentar el efecto de otros factores de riesgo, tales como lo son el hábito tabáquico⁷. Asimismo, Escamilla-García y colaboradores en un estudio realizado en un hospital de México observaron que la mayoría de las pacientes con recién nacidos con gastrosquisis eran madres menores de 20 años⁸.

Ser madre soltera parece ser también un factor de riesgo para gastrosquisis. Es así como en una población canadiense se observó que el ser madre soltera se traducía en menores cuidados prenatales, lo cual dificulta tanto su diagnóstico prenatal así como los cuidados e indicaciones propias del embarazo⁹. En el presente caso, la madre manifestó ser soltera y el padre del producto de la concepción no se había hecho cargo de su embarazo, además provenía de un ambiente familiar disfuncional. Esto se encuentra estrechamen-

te relacionado con el estrés materno, tal y como fue reportado por Palmer y colaboradores en una población británica, quienes observaron que dos o más eventos estresores en el primer trimestre presentaban una asociación estadísticamente significativa con el riesgo de padecer gastrosquisis, lo cual resultó ser un riesgo independiente de otros factores socio-económicos¹⁰.

Otro factor de riesgo presente en el caso de nuestra paciente y que ha sido ampliamente descrito, son las infecciones del tracto urinario, las cuales ocurrieron a repetición en el presente caso. Yazdy y colaboradores evaluaron a 249 pacientes con gastrosquisis, obteniendo que las madres que habían reportado una infección del tracto urinario en al menos una ocasión tenían un mayor riesgo para esta malformación, a lo cual se agregaba un efecto sinérgico cuando la madre tenía menos de 20 años, tal como ocurrió en el caso presentado¹¹. En el caso de las infecciones urinarias, el mecanismo por medio del cual se produce la malformación es difícil de esclarecer. Se ha propuesto que tanto el tratamiento como la respuesta inmune a la infección pueden jugar un rol determinante en el desarrollo fetal¹². El bajo peso materno también es un factor de riesgo presente en el caso clínico descrito, ya que se han reportado alteraciones nutricionales asociadas a la gastrosquisis como el índice de masa corporal menor a

18,1 Kg/m² (OR=3,2; IC95%: 1,4-7,4), justificándose que la madre joven con bajo peso compite con el feto para la utilización de los nutrientes esenciales, lo cual puede afectar su desarrollo, derivando en malformaciones¹³.

En el presente caso se obtuvo un recién nacido pretérmino de 32 semanas de gestación, lo que concuerda con Emusu y colaboradores quienes encontraron en su estudio de 368 recién nacidos con gastrosquisis, que las madres con edad menor a 20 años tuvieron el doble de riesgo para prematuridad (OR=2,80; IC95%: 1,02-8,00) y bajo peso al nacer (OR=1,70; IC95%: 1,05-2,77)¹⁴. La situación materna de nivel socioeconómico bajo también concuerda con el estudio de casos y controles realizado por Cortés-Matus y colaboradores en Culiacán, donde reportaron que del total de recién nacidos con gastrosquisis el 90% de las madres pertenecieron a un estrato socioeconómico bajo, siendo mayor comparado con el grupo control ($p=0,02$)¹⁵.

Además la educación materna puede comportarse como un factor de riesgo, en el presente caso la gestante tuvo un bajo nivel educativo, concordando con el estudio de Torfs y colaboradores, en donde se evaluaron a 110 madres de recién nacidos con gastrosquisis, observando una asociación significativa entre la gastrosquisis y el nivel educativo bajo, ingreso anual familiar, consumo de drogas por la madre y el tabaquismo¹⁶. Cabe destacar que según referencia materna estuvo expuesta al humo de tabaco durante el primer trimestre. El tabaquismo se ha descrito como un factor de riesgo que aumenta al doble las probabilidades de gastrosquisis, lo cual fue observado en el estudio de Haddow y colaboradores, en su estudio prospectivo realizado en 62.103 gestantes, donde además reportaron que las madres jóvenes fueron las que tuvieron mayor probabilidad de presentar gastrosquisis, considerándose el factor de riesgo que mayor influencia tiene sobre esta patología¹⁷.

El desenlace en el presente caso fue desafortunadamente fatal. Existen reportes de una mortalidad estimada entre 9% y 20% para recién nacidos con gastrosquisis¹⁸. En efecto, en el estudio realizado por Risby y colaboradores¹⁹, en el cual se incluyeron a 71 pacientes con gastrosquisis a quienes se les realizó un seguimiento a largo plazo, se obtuvo una mortalidad de un 9,9%, la cual fue más frecuente en casos complicados. La mayoría de estas muertes fueron consideradas potencialmente prevenibles ya que las causas de muerte más comunes fueron la obstrucción intestinal y la nutrición parenteral, la cual ocasionó falla hepática. Otro factor importante a considerar es la prematuridad. A pesar de que existen recomendaciones publicadas referentes a una cesárea pretérmino electiva para un inicio más temprano de la alimentación enteral y del manejo general de la gastrosquisis²⁰, controversialmente se ha reportado a su vez un efecto negativo en la prognosis del paciente al nacer antes de las 35 semanas, observándose en el estudio de Kassa y colaboradores una mayor estadía intra-hospitalaria así como un mayor tiempo de administración de nutrición parenteral²¹.

Fueron múltiples factores de riesgo involucrados en la mortalidad de este caso de gastrosquisis, sobre todo la falta de un control adecuado del embarazo debido al bajo nivel educativo, bajo nivel socioeconómico, familia disfuncional, edad materna correspondiente a la adolescente, así como otros factores situacionales, área rural con importante distancia de traslado al hospital de mayor complejidad, falta de equipo especializado, carencia de un área de cuidados intensivos neonatales, entre otros; que pudieron ser previstos si se hubiese realizado un control prenatal adecuado. Cabe destacar que el sexo del recién nacido fue masculino, lo que es concordante con una investigación conducida por Mendizábal y colaboradores en Quito-Ecuador, quienes observaron que la mayoría de los recién nacidos con gastrosquisis que fallecen son de sexo masculino e hijos de madres adolescentes²².

Conclusiones

La gastrosquisis es una malformación congénita de origen multifactorial, entre los cuales se encuentran factores de riesgos modificables y no modificables. Una educación sexual temprana, el control adecuado del embarazo y el establecimiento de un diagnóstico temprano acompañado de un tratamiento oportuno, pueden mejorar el pronóstico de todo recién nacido con gastrosquisis. Sin embargo, mientras mayores sean los factores de riesgo agregados, son menores las probabilidades de un desenlace favorable. La edad materna y la funcionalidad familiar deben ser consideradas por las políticas a ser tomadas en cuenta en la comunidad, ya que la elevada frecuencia de adolescentes embarazadas dentro de familias disfuncionales aumenta la morbimortalidad materno-fetal. Ante esta situación se deben de establecer programas de intervención comunitaria que busquen mejorar el funcionamiento familiar y prevenir las prácticas sexuales de riesgo por los adolescentes, lo que producirá una reducción de estas patologías, conduciendo a una población cada vez más sana.

Referencias

1. Kirby RS, Marshall J, Tanner JP, Salemi JL, Feldkamp ML, Marengo L, et al. Prevalence and Correlates of Gastroschisis in 15 States, 1995 to 2005. *Obstet Gynecol.* agosto de 2013;122(2 0 1):275-81.
2. Jones AM. Increasing Prevalence of Gastroschisis — 14 States, 1995–2012. *MMWR Morb Mortal Wkly Rep.* 2016;65(2):23-6.
3. World Health Organization, Department of Child and Adolescent Health and Development. *Child and adolescent health and development: progress report 2006.* Geneva: World Health Organization; 2007.
4. Ortega-García JA, Soldin OP, Sánchez-Sauco MF, Cánovas-Conesa A, Gomariz-Peñalver V, Jaimes-Vega DC, et al. Violence against women and gastroschisis: a case-control study. *Int J Environ Res Public Health.* 17 de octubre de 2013;10(10):5178-90.
5. Nazer H J, Cifuentes O L. Malformaciones congénitas en Chile y Latino América: Una visión epidemiológica del ECLAMC del período 1995-2008. *Rev Médica Chile.* enero de 2011;139(1):72-8.

6. Peiró JL, Guindos S, Lloret J, Marhuenda C, Torán N, Castillo F, et al. Nueva estrategia quirúrgica en la gastrosquisis: simplificación del tratamiento atendiendo a su fisiopatología. *Cir Pediatr*. 2005;18(4):182-7.
7. Lubinsky M. Hypothesis: Estrogen related thrombosis explains the pathogenesis and epidemiology of gastroschisis. *Am J Med Genet A*. abril de 2012;158A(4):808-11.
8. Escamilla-García R, Reynoso-Argueta E. Predictores geográficos como factores de riesgo de gastrosquisis en un hospital de alta especialidad en México. *Perinatol Reprod Humana*. enero de 2013;27(2):92-7.
9. Brindle ME, Flageole H, Wales PW, Canadian Pediatric Surgery Network (CAPSNet). Influence of maternal factors on health outcomes in gastroschisis: a Canadian population-based study. *Neonatology*. 2012;102(1):45-52.
10. Palmer SR, Evans A, Broughton H, Huddart S, Drayton M, Rankin J, et al. The Role of Maternal Stress in Early Pregnancy in the Aetiology of Gastroschisis: An Incident Case Control Study. *PLOS ONE*. 8 de noviembre de 2013;8(11):e80103.
11. Yazdy MM, Mitchell AA, Werler MM. Maternal genitourinary infections and the risk of gastroschisis. *Am J Epidemiol*. 1 de septiembre de 2014;180(5):518-25.
12. Coico R, Sunshine G. *Immunology: a short course*. Seventh edition. Chichester, West Sussex, UK ; Hoboken, NJ: John Wiley & Sons Inc; 2015.
13. Waller DK, Shaw GM, Rasmussen SA, Hobbs CA, Canfield MA, Siega-Riz AM, et al. Pregnancy obesity as a risk factor for structural birth defects. *Arch Pediatr Adolesc Med* 2007; 161:745-750.
14. Emusu D, Salihu HM, Aliyu ZY, Pierre-Louis BJ, Druschel CM, Kirby RS. Gastroschisis, low maternal age, and fetal morbidity outcomes. *Birt Defects Res A Clin Mol Teratol*. octubre de 2005;73(10):649-54.
15. Cortés Matus NF, Barreras Salcedo JI, Villarreal Careaga J. Factores Asociados a Gastrosquisis en Recién nacidos en el Hospital General de Culiacán. *Arch Salud Sin*. 2010;4(1):14-17.
16. Torfs CP, Velie EM, Oechsli FW, Bateson TF, Curry CJ. A population-based study of gastroschisis: demographic, pregnancy, and lifestyle risk factors. *Teratology*. julio de 1994;50(1):44-53.
17. Haddow JE, Palomaki GE, Holman MS. Young maternal age and smoking during pregnancy as risk factors for gastroschisis. *Teratology*. marzo de 1993;47(3):225-8.
18. Moreno Pérez O, Meoro Avilés A, Martínez A, Boix E, Aznar S, Martín M^a D, et al. Factores pronósticos de morbi-mortalidad en nutrición enteral hospitalaria: estudio prospectivo. *Nutr Hosp*. junio de 2005;20(3):210-6.
19. Risby K, Husby S, Qvist N, Jakobsen MS. High mortality among children with gastroschisis after the neonatal period: A long-term follow-up study. *J Pediatr Surg*. marzo de 2017;52(3):431-6.
20. Moir CR, Ramsey PS, Ogburn PL, Johnson RV, Ramin KD. A prospective trial of elective preterm delivery for fetal gastroschisis. *Am J Perinatol*. julio de 2004;21(5):289-94.
21. Kassa A-M, Lilja HE. Predictors of postnatal outcome in neonates with gastroschisis. *J Pediatr Surg*. noviembre de 2011;46(11):2108-14.
22. Mendizábal S, Chacon Chandi PE, Gallardo Maigua MP. Prevalencia de gastrosquisis en recién nacidos atendidos en la unidad de Neonatología del Hospital Pediátrico Baca Ortíz durante el año 2012-2013. Tesis previa la obtención del título en especialidades en ciencias médicas. Universidad Central del Ecuador. Quito. 2015.

Manuel Velasco (Venezuela) **Editor en Jefe** - Felipe Alberto Espino Comercialización y Producción
Reg Registrada en los siguientes índices y bases de datos:

SCOPUS, EMBASE, Compendex, GEOBASE, EMBiology, Elsevier BIOBASE, FLUIDEX, World Textiles,

OPEN JOURNAL SYSTEMS (OJS), REDALYC (Red de Revistas Científicas de América Latina, el Caribe, España y Portugal),

Google Scholar

LATINDEX (Sistema Regional de Información en Línea para Revistas Científicas de América Latina, el Caribe, España y Portugal)

LIVECS (Literatura Venezolana para la Ciencias de la Salud), LILACS (Literatura Latinoamericana y del Caribe en Ciencias de la Salud)

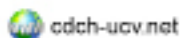
PERIÓDICA (Índices de Revistas Latinoamericanas en Ciencias), REVENCYT (Índice y Biblioteca Electrónica de Revistas Venezolanas de Ciencias y Tecnología)

SABER UCV, DRJI (Directory of Research Journal Indexing)

CLaCaLIA (Conocimiento Latinoamericano y Caribeño de Libre Acceso), EBSCO Publishing, PROQUEST



Esta Revista se publica bajo el auspicio del
Consejo de Desarrollo Científico y Humanístico
Universidad Central de Venezuela.



www.revistahipertension.com.ve

www.revistadiabetes.com.ve

www.revistasindrome.com.ve

www.revistaavft.com.ve