

Sustitución esofágica por estenosis infecciosa en niños

Haurrenganako ordezte esofagikoa estenosi infekziosoarengatik

J.A. Tovar¹, M. Díaz¹, N. Leal¹, P. Olivares¹, J. Larrauri²

¹Departamento de Cirugía Pediátrica. ²Departamento de Anatomía Patológica, Hospital Universitario «La Paz», Madrid

Correspondencia: A. Tovar, Departamento de Cirugía Pediátrica, Hospital Universitario «La Paz», P. de la Castellana, 261, 28046 Madrid.

e-mail: jatovar@hulp.insalud.es

RESUMEN

Presentamos dos raros casos de esofagitis infecciosas causantes de estenosis que requirieron sustitución esofágica. Una fue debida a virus del herpes en un chico de 14 años y la otra, causada por *Candida albicans* apareció en una niña de 8 años con candidiasis mucocutánea crónica. La infección fue la causa única de la lesión en ambos pacientes en quienes las dilataciones repetidas no bastaron para tratarla. Ambos pacientes pudieron finalmente ser curados mediante transposición cólica para sustituir el esófago.

PALABRAS CLAVE

Esófago; Esofagitis; Herpes; Virus; Candida; Estenosis; Sustitución; Colon.

LABURPENA

Esofagitis infekziosoaren bi kasu xelebre aurkeztzen ditugu, ordezte esofagikoa behar izan zutenak. Bat herpesaren birusarengatik izan zen 14 urteko mutiko batengan, eta bestea *Candida albicans* sortua 8 urteko neskatik batengan, zeinak candidiasis mukokutaneo kronikoa baitzuen. Infekzioa izan zen lesioaren kausa bakarra bi pazienteengan, eta errepikapenezko dilatazioak ez ziren sendatzeko adina izan. Biak sendatu ziren esofagoa ordezteko transposizio kolikoaren bidez.

FUNTSEZKO HITZAK

Esofagoa; Esofagitisa; Herpesa; Birusa; Candida; Estenosis; Ordeztea; Kolona

ABSTRACT

We report on two unusual cases of severe infectious esophagitis causing strictures that ultimately required esophageal replacement. One was due to herpes virus infection in a 14 year-old boy and the other one, caused by *Candida albicans*, appeared in a 8 year-old girl suffering from chronic mucocutaneous candidiasis. Infection was the only cause for the lesion in both patients

in whom repeated pneumatic dilatations

failed to relieve stricture. Both patients could ultimately be treated successfully with colonic transposition.

KEY WORDS

Esophagus; Esophagitis; Herpes; Virus; Candida; Stricture; Replacement; Colon.

INTRODUCCIÓN

La esofagitis debida a infecciones por *Candida albicans* o por virus del herpes es observada con relativa frecuencia en pacientes inmunosuprimidos o tumorales en quienes la capacidad de defensa contra estos agentes puede estar disminuida. Sin embargo, estas causas de inflamación de la mucosa esofágica son muy raras en individuos sin tales enfermedades. Muy rara vez las esofagitis infecciosas causan hemorragia, perforación, pseudodivertículo o estenosis y en tales casos los tratamientos con aciclovir o ketoconazol suelen bastar. El tratamiento quirúrgico de una complicación o incluso la sustitución esofágica sólo son necesarias muy excepcionalmente. Presentamos dos casos de estenosis refractarias al tratamiento conservador debidas respectivamente a herpes virus y a infección por *Candida* en un chico de 14 años y una niña de 8 que requirieron sustitución esofágica tras el fallo del tratamiento etiológico y de repetidas dilataciones.

CASOS CLÍNICOS

Caso 1

Muchacho de 14 años sin historial previo de enfermedad que empezó súbitamente con disfagia, regurgitación y dolor retroesternal que duraron varios meses durante los que se produjo una pérdida progresiva de peso. El tránsito baritado re-

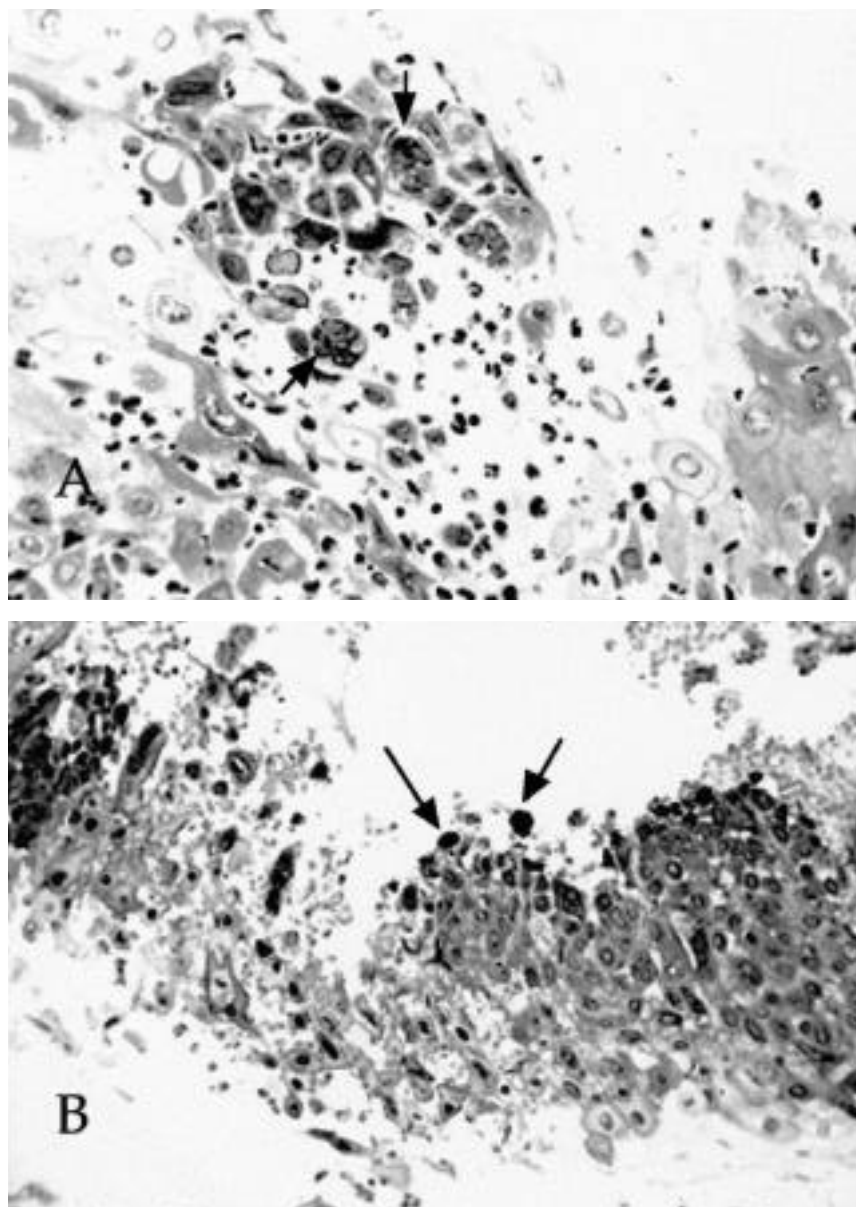


Figura 1. Biopsias esofágicas del paciente con esofagitis herpética. A: infiltración leucocitaria difusa con abundantes linfocitos y células multinucleadas gigantes (H+E, x 400). B: tinción inmunohistoquímica con anticuerpos antiherpes virus. Se ven células con cuerpos de inclusión redondeados fuertemente teñidos.

veló una estenosis esofágica severa que comenzaba en la unión del los tercios superior y medio y continuaba hacia abajo con un patrón de mucosa irregular. La endoscopia mostró una estenosis concéntrica grave, pero que pudo ser dilatada adecuadamente con balones neumáticos. Durante este procedimiento se tomaron biopsias mucosas que revelaron la presencia de células gigantes multinucleadas y de cuer-

pos de inclusión que se teñían positivamente con anticuerpos antiherpes virus (Fig. 1, A y B), así como evidencia de sobreinfección por *Candida*. La pH-metría esofágica prolongada realizada después de la dilatación nos permitió descartar la existencia de reflujo gastroesofágico. Un estudio inmunológico completo reveló un sistema defensivo inmunitario perfectamente competente. Tras 6 sesiones de di-

lataciones neumáticas del esófago estrecho que permitieron mejorías temporales decidimos, un año después del diagnóstico, proceder a la sustitución esofágica. La operación se realizó a través del hiato esofágico con un trasplante ileocólico isoperistáltico basado en un pedículo ileocecolítico situado en el lecho del esófago nativo que fue extirpado. Tras un postoperatorio sin complicaciones, el paciente come normalmente y en la actualidad, seis años después, permanece sin síntomas y hace vida normal.

Caso 2

Niña de 8 años con sordera congénita de percepción y candidiasis mucocutánea crónica diagnosticada a la edad de tres años tras infecciones repetidas por este hongo. Cuando tenía 5 años comenzó con disfagia progresiva que empeoraba con los brotes de infección mucocutánea. Mediante tránsito baritado se demostró una estenosis esofágica que se trató en su hospital de origen con un número considerable de dilataciones neumáticas ayudadas por una gastrostomía percutánea. A su ingreso en nuestro centro tenía múltiples lesiones cutáneo-mucosas debidas a su infección por *Monilia* (Fig. 2, A y B) y el estudio inmunológico completo reveló una inmunidad humoral normal y una inmunidad celular igualmente normal excepto por una disminución mínima de la relación CD4/CD8 y una ausencia completa y aislada de reactividad cutánea al antígeno de *Candida*. La respuesta linfocitaria *in vitro* al mitógeno de *Candida* 1/100 y 1/10 fue negativa mientras que las respuestas a los mitógenos PHA, ConA, PWM y OKY3 fueron normales. La paciente tenía una estenosis irregular con varios senos periestenóticos esofágicos, debida a dilataciones previas y probablemente a una perforación, así como abundantes lesiones de *Candida*. La estenosis fue considerada intratable por medios conservadores y se pro-

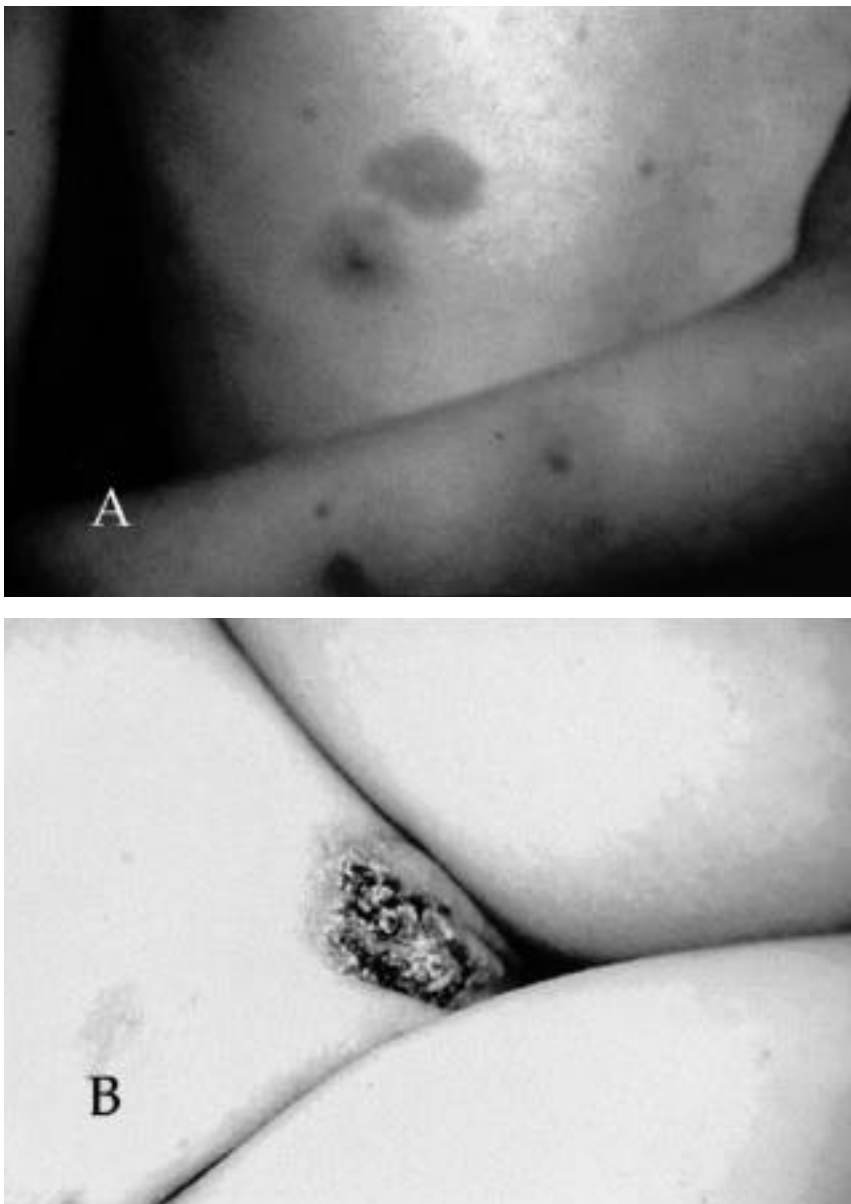


Figura 2. Lesiones superficiales de la paciente con candidiasis mucocutánea crónica. A: se aprecian numerosas placas moniliásicas en la mayor parte del cuerpo. B: en los genitales externos estas lesiones se hacen ulcerosas.

puso una sustitución esofágica que se llevó a cabo tras un tratamiento energético con anfotericina B. Se utilizó un segmento cólico izquierdo-transverso con pedículo cólico izquierdo colocado a través del hiato en el lecho del esófago nativo tras su extirpación sin complicaciones. La niña se encuentra perfectamente desde entonces aunque tiene naturalmente lesiones mucocutáneas persistentes.

DISCUSIÓN

Tanto la esofagitis por herpes como por *Candida albicans* han sido encontradas en pacientes neoplásicos o inmunodeprimidos y han sido más frecuentes desde la aparición y extensión por el mundo del virus HIV⁽¹⁻⁵⁾, pero son raras en pacientes inmunocompetentes en quienes originan complicaciones muy rara vez.

La infección por herpesvirus es común en el niño y muchos individuos poseen anticuerpos tipo I tras haber sufrido un cuadro catarral inespecífico con fiebre, mialgia y ocasionalmente lesiones vesiculares en la faringe. La afectación esofágica puede causar disfagia y/u odinofagia. En sujetos por lo demás normales esta infección esofágica que es aguda, benigna y autolimitada, cura en 10 a 12 días⁽⁶⁾. Este tipo de esofagitis se ha encontrado ocasionalmente en niños previamente sanos con inmunidad celular y humoral normales⁽⁷⁻¹²⁾. A esta edad la mayoría de los casos evolucionan favorablemente con sólo tratamiento sintomático y no dejan secuelas, siendo muy raras la ulceración y la hemorragia. Rattner y cols. publicaron en 1985 un caso de esofagitis herpética en un adulto con leucemia crónica en quien la hemorragia fue masiva⁽¹³⁾. Las lesiones eran compatibles con el diagnóstico de esofagitis por reflujo y se trataron, en consecuencia, con inhibidores de la secreción gástrica. El diagnóstico de la etiología herpética solamente se hizo al hallar inclusiones intranucleares y células multinucleadas en las biopsias. La hemorragia persistió a pesar del tratamiento hasta que se introdujo en éste el agente antiviral aciclovir con resultados espectaculares. La perforación espontánea del esófago en infecciones del órgano puede ocurrir a relativamente bajas presiones⁽¹⁴⁾, pero la esofagitis herpética causa raras veces estenosis⁽¹⁵⁾ y creemos que no ha sido publicado caso alguno hasta ahora en el que haya sido necesaria una sustitución esofágica.

El diagnóstico definitivo de esofagitis herpética se basa en los hallazgos de la biopsia consistentes en la presencia de células epiteliales con cuerpos eosinofílicos intranucleares rodeados por una zona pálida además de grandes células multinucleadas⁽¹⁶⁾. Sin embargo, la presencia de dichas células no siempre refleja el origen viral de la enfermedad⁽¹⁷⁾ y en ocasiones son nece-

sarias investigaciones inmunohistoquímicas y electromicroscópicas^(18, 19).

La esofagitis candidiásica es frecuente en adultos con competencia inmune disminuida^(3,5,20,21) y también en niños con dicha deficiencia⁽²²⁻²⁴⁾. En muy raros casos la infección puede conducir a complicaciones como perforación⁽²⁵⁾ o estenosis^(15, 26-29). La probabilidad de que se produzcan lesiones esofágicas en la candidiasis mucocutánea crónica es mayor⁽³⁰⁻³³⁾. El esófago es con frecuencia estrecho en adultos con esta enfermedad⁽³⁰⁾ y algo menor en niños⁽³²⁾. Kornblut estudió 12 pacientes con candidiasis mucocutánea crónica de los que 5 tenían afectación esofágica y 1 solamente estenosis. Se trataba de un niño de 5 años que requirió una gastrostomía para realizar dilataciones retrógradas⁽³⁴⁾. En nuestro segundo paciente la enfermedad esofágica se produjo en este contexto de severa disfunción celular ante la *Candida albicans*; el fallo de las dilataciones acompañadas de vigoroso tratamiento antifúngico, nos condujo a indicar una sustitución del esófago que pudo hacerse con éxito aun en el cuadro de dicha enfermedad.

BIBLIOGRAFÍA

- Malebranche R, Arnoux E, Guerin JM, Pierre GD, Laroche AC, Pean-Guichard C, Elie R, Morisset PH, Spira T, Mandeville R. Acquired immunodeficiency syndrome with severe gastrointestinal manifestations in Haiti. *Lancet* 1983;**2**:873-8.
- Agha FP, Lee HH, Nostrant TT. Herpetic esophagitis: a diagnostic challenge in immunocompromised patients. *Am J Gastroenterol* 1986;**81**:246-53.
- Wheeler RR, Peacock JE, Jr., Cruz JM, Richter JE. Esophagitis in the immunocompromised host: role of esophagoscopy in diagnosis. *Rev Infect Dis* 1987;**9**:88-96.
- Clark RA, Brandon W, Dumestre J, Pindaro C. Clinical manifestations of infection with the human immunodeficiency virus in women in Louisiana. *Clin Infect Dis* 1993;**17**:165-72.
- Wilcox CM, Karowe MW. Esophageal infections: etiology, diagnosis, and management. *Gastroenterologist* 1994;**2**:188-206.
- Shortsleeve MJ, Levine MS. Herpes esophagitis in otherwise healthy patients: clinical and radiographic findings. *Radiology* 1992;**182**: 859-61.
- Bastian JF, Kaufman IA. Herpes simplex esophagitis in a healthy 10-year-old boy. *J Pediatr* 1982;**100**:426-7.
- Ashenburg C, Rothstein FC, Dahms BB. Herpes esophagitis in the immunocompetent child. *J Pediatr* 1986;**108**:584-7.
- Moore DJ, Davidson GP, Binns GF. Herpes simplex oesophagitis in young children. *Med J Aust* 1986;**144**:716-7.
- Stillman AE. Herpes esophagitis in normal children [letter]. *J Pediatr* 1986;**109**:563-4.
- Lambert H, Eastham EJ. Herpes oesophagitis in a healthy 8 year-old. *Arch Dis Child* 1987;**62**: 301-2.
- Lerner CJ, Rupp RN. Herpes simplex esophagitis mimicking a lye burn in a child. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1993;**109**:758-61.
- Rattner HM, Cooper DJ, Zaman MB. Severe bleeding from herpes esophagitis. *Am J Gastroenterol* 1985;**80**:523-5.
- Cronstedt JL, Bouchama A, Hainau B, Halim M, Khouqueer F, al Darouny T. Spontaneous esophageal perforation in herpes simplex esophagitis. *Am J Gastroenterol* 1992;**87**:124-7.
- Wilcox CM. Esophageal strictures complicating ulcerative esophagitis in patients with AIDS. *Am J Gastroenterol* 1999;**94**:339-43.
- Enterline H, Thompson J. Esophagitis. In: *Pathology of the Esophagus*. New York, Berlin, Heidelberg, Tokyo. Springer Verlag, 1984; p. 82-89.
- Singh SP, Odze RD. Multinucleated epithelial giant cell changes in esophagitis: a clinicopathologic study of 14 cases. *Am J Surg Pathol* 1998;**22**:93-9.
- Feiden W, Borchard F, Burring KF, Pfitzer P. Herpes oesophagitis. I. Light microscopical and immunohistochemical investigations. *Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol* 1984;**404**:167-76.
- Burring KF, Borchard F, Feiden W, Pfitzer P. Herpes oesophagitis. II. Electron microscopical findings. *Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol* 1984;**404**:177-85.
- Clotet B, Grifol M, Parra O. Afectación esofágica por *Candida albicans* en pacientes con complejo relacionado con AIDS. *Med Clin (Barc)* 1986;**87**:169-70.
- Bashir RM, Wilcox CM. Symptom-specific use of upper gastrointestinal endoscopy in human immunodeficiency virus-infected patients yields high dividends. *J Clin Gastroenterol* 1996;**23**:292-8.
- Rao SP, Hammerschlag MR, Walk JA. Candida esophagitis in two children with acute leukemia: successful therapy with ketoconazole. *Am J Pediatr Hematol Oncol* 1985;**7**:308-11.
- Braegger CP, Albisetti M, Nadal D. Extensive esophageal candidiasis in the absence of oral lesions in pediatric AIDS. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1995;**21**:104-6.
- Isaac DW, Parham DM, Patrick CC. The role of esophagoscopy in diagnosis and management of esophagitis in children with cancer. *Med Pediatr Oncol* 1997;**28**:299-303.
- Gaissert HA, Breuer CK, Weissburg A, Mermel L. Surgical management of necrotizing Candida esophagitis. *Ann Thorac Surg* 1999;**67**:231-3.
- Orringer MB, Sloan H. Monilial esophagitis: an increasingly frequent cause of esophageal stenosis? *Ann Thorac Surg* 1978;**26**:364-74.
- Kelvin FM, Clark WM, Thompson WM, Hauch T. Chronic oesophageal stricture due to moniliasis. *Br J Radiol* 1978;**51**:826-8.
- Agha FP. Candidiasis-induced esophageal strictures. *Gastrointest Radiol* 1984;**9**:283-6.
- Kimura H, Kurachi M, Tsukioka Y, Minami M, Itou M, Fujii H, Nakanishi K. Esophageal stricture secondary to candidiasis without underlying disease. *J Gastroenterol* 1995;**30**:508-11.
- Rohrmann CA, Jr., Kidd R. Chronic mucocutaneous candidiasis: radiologic abnormalities in the esophagus. *AJR Am J Roentgenol* 1978;**130**:473-6.
- Rosenblatt HM, Byrne W, Ament ME, Graybill J, Stiehm ER. Successful treatment of chronic mucocutaneous candidiasis with ketoconazole. *J Pediatr* 1980;**97**:657-60.
- Kobayashi RH, Rosenblatt HM, Carney JM, Byrne WJ, Ament ME, Mendoza GR, Dudley JP, Stiehm ER. Candida esophagitis and laryngitis in chronic mucocutaneous candidiasis. *Pediatrics* 1980;**66**:380-4.
- Williamson MM, Gordon RD. Severe chronic mucocutaneous candidiasis. Favourable response to oral therapy with ketoconazole. *Med J Aust* 1983;**1**:276-8.
- Kornblut AD. An evolution of therapy for mucocutaneous candidiasis. *Laryngoscope* 1980;**90**: 1-30.