## Caso clínico



Vol. 72 • Núm. 2 Marzo-Abril • 2018 pp 148-151

Recibido: 07/12/2017 Aceptado: 29/02/2018

# Hemangioma gástrico neonatal. Reporte de un caso y revisión de la literatura

Ramón Antonio González López,\* Jorge Mauricio Acosta García,‡ Camilo Zalazar Torres,\* Francisco Viveros Carreño,§ Blanca Estela González,\* Javier Antonio Córdova Sabillón, Sandra de la Cruz Magaña, Melissa Fragoso Ortega, Gloria Estephannie Jasso Zarco, Jhoana Patricia Gandarillas Cruz

- \* Médico adscrito al Servicio de Neonatología.
- <sup>‡</sup> Jefe del Área de Neonatología. Médico adscrito al Servicio de Neonatología.
- § Médico adscrito al Servicio de Cirugía Pediátrica.
- Residente del primer año de Pediatría.
- ¶ Médico Interno de Pregrado.

Hospital Militar de Especialidades de la Mujer y Neonatología. Secretaría de la Defensa Nacional.

#### **RESUMEN**

Los hemangiomas son las neoplasias más comunes en la infancia; incluyen diferentes tipos según su histología, expresión proteica y curso clínico. Por lo general, aparecen en piel y tejidos blandos. Son lesiones raras a nivel intestinal, y más aún en un recién nacido; por ello, decidimos publicar un caso que ocurrió en nuestro hospital y el manejo que se le dio; revisamos la literatura.

Palabras clave: Hemangioma, hemorragia, laparotomía, neonatal.

# Neonatal gastric hemangioma. Literature review and a case report

#### **ABSTRACT**

The most common neoplastic lesions in the infancy are hemangiomas; they are classified according to their histology, proteic expression, and clinical presentation. They normally appear in the skin and soft tissue. They are very rare in the viscera, in the stomach, and in neonates they are even more unusual; this is the reason why we decided to review the literature and present this case.

Key words: Hemangioma, hemorrhage, laparotomy, neonatal.

### Introducción

Los hemangiomas son las neoplasias más comunes en la infancia; incluyen diferentes tipos según su histología, expresión proteica y curso clínico. Por lo general, aparecen durante la etapa neonatal tardía o temprano en el recién nacido, y afectan más comúnmente a femeninos que a masculinos. El lugar más común de expresión es la piel, aunque pueden manifestarse en cualquier órgano y pueden ser múltiples.

Los hemangiomas a nivel gástrico o intestinal son una entidad rara, y lo es mucho más su diagnóstico en etapas neonatales: sólo se han reportado una veintena de casos a nivel mundial, todos como hallazgo por sangrado intestinal o síntomas obstructivos, con muy mal pronóstico, y más a edades tan tempranas.

# Caso clínico

Recién nacida femenina, prematura tardía de 35.4 semanas de gestación por fecha de última mens-

truación; con restricción del crecimiento intrauterino y probable hidrocefalia. La madre inició con trabajo de parto; se decidió pasar a cesárea para resolución del embarazo.

Se recibió producto único, vivo, que lloró y respiró al nacer, con Apgar 8/9, SA de 0; respondió a las maniobras básicas de reanimación; tenía peso bajo para su edad gestacional (1,850 g), talla de 42 cm y signos vitales dentro de los parámetros normales. Se decidió su ingreso a cuidados intermedios para el manejo de la restricción y estudio complementario.

Se realizó un ecocardiograma de control, que se reportó sin alteraciones; la valoración por neurología descartó hidrocefalia. Se le mantuvo en ayuno durante las primeras 24 horas de vida; cursó estable. Durante el segundo día de vida extrauterina (DVEU) presentó vómito con sangre (aproximadamente 20 mL), por lo que se decidió realizar un lavado gástrico, pasar bolo de solución Hartmann y tomar controles de laboratorio; se administró, además, vitamina K. Exhibió sangrado abundante por la sonda orogástrica, llegando a la hematemesis. Se interconsultó con el Servicio de Cirugía Pediátrica para la realización de una endoscopia, la cual se llevó a cabo sin posibilidad de visualización directa por la cantidad de sangre y falta de distensión del estómago; por ello, se decidió realizar una laparotomía exploradora, donde se encontró una malformación vascular de la pared anterior del cuerpo y el fundus gástrico, compatible con hemangioma gástrico. En la laparotomía exploradora se halló gran cantidad de sangre libre y se efectuó hemigastrectomía con resección de la pared anterior gástrica y colocación de un catéter venoso central yugular interno izquierdo. Cursó con datos de choque hipovolémico y coagulación intravascular diseminada, que requirió manejo con volumen, plasma, concentrado eritrocitario, plaquetas y apoyo aminérgico. Continuó con mal estado general, sin mejoría clínica significativa a pesar del manejo intensivo. Presentó evento de paro cardiaco irreversible a maniobras. Se declaró su defunción el sexto DVEU.

# Revisión bibliográfica

Los hemangiomas son los tumores más comunes de la infancia, 7%; ocurren hasta en el 2.6% de todos los neonatos y hasta en el 10% de todos los pacientes de raza caucásica. Son más comunes en pacientes prematuros, especialmente en los menores de 1,500 g; son de dos a cinco veces más comunes en niñas que en niños; 50% se presentan desde el nacimiento y el resto aparecen durante el primer mes de vida.<sup>1-6</sup>

Por lo general, afectan la piel, en especial la cara y el cuero cabelludo, donde producen masas planas o elevadas, irregulares, de color rojo azulado. Pueden aumentar de tamaño a medida que el niño crece, llegando a su máximo a los 18 meses de edad. El 30% se resuelve espontáneamente a los tres años, 50% a los cinco, 70% a los siete y 90% a los nueve; por lo general, disminuyen con el paso de los años.

Los hemangiomas intestinales son muy raros, con una frecuencia de 0.05% de todas las neoplasias intestinales; los hemangiomas gástricos constituyen menos del 2% de las neoplasias gástricas benignas y son aún más raros, con menos de 20 casos reportados. 1.2.4.6.7-10

Los hemangiomas son lesiones congénitas benignas, por lo general, formadas por masas densas de capilares y grandes vasos sanguíneos dilatados que

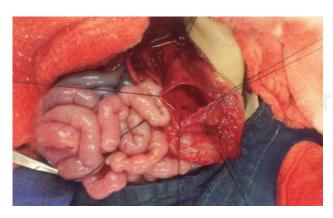


Figura 1. Fondo de saco, estómago reventado, donde podemos observar gran parte del entramado vascular del hemangioma.

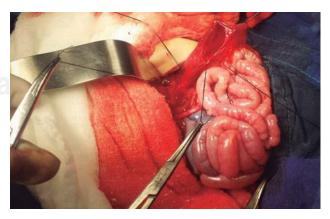


Figura 2. Pared del estómago después de la resección del hemangioma.

derivan del tejido mesenquimal; histológicamente, los podemos dividir en cavernoso, capilar o mixto. 1,2,5,6,7-9

Los tumores vasculares rara vez se malignizan; sólo el 20% se ha asociado a complicaciones (compromiso) de funciones vitales, insuficiencia cardiaca congestiva, coagulopatía por consumo, sangrado, ulceración o deformidad.<sup>1-4</sup>

Dentro del diagnóstico diferencial, debemos considerar tumores del estroma gastrointestinal, leiomiomas, leiomioblastomas, leiomiosarcomas, schwanomas, lipomas, várices y carcinomas. También, neoplasias del sistema linfático, aunque éstas tienen características de localización y distribución distintas; pueden asociarse a síndrome de *blue rubber bleb* (BRBNS) o a telangiectasia hemorrágica hereditaria (HHT), síndrome de Maffucci o síndrome Klippel-Trénaunay.<sup>1,4,6,7,11,12</sup>

Hay diversas variantes clínicas e histológicas de los hemangiomas:

- Hemangioma capilar: compuestos de vasos sanguíneos similares a capilares; aparecen por lo general en la piel, tejido subcutáneo y membranas mucosas de la cavidad oral o vísceras internas (hígado, baso y riñones).
- Hemangioma cavernoso: se distinguen por la formación de conductos vasculares cavernosos grandes; tienen predilección por la piel de cabeza, cuello y superficies corporales mucosas, pero también ocurren en muchas vísceras y cerebro (Von Hippel-Lindau). Por lo general, tienen poco significado clínico (más que cosmético). En el cerebro sí puede haber aumento de la presión intracraneana o hemorragia.
- Granuloma piógeno: hemangiomas de tejido de granulación, de naturaleza incierta; son considerados como una forma poliploide de tejido capilar. Aparecen como nódulos exofíticos en la piel y mucosa gingival u oral; a menudo están ulcerados. Un tercio de las lesiones se desarrollan tras un traumatismo. La mayoría no recurren después de la extirpación. Pueden presentarse en las encías de las mujeres embarazadas y desaparecen después del parto.
- Hemangiomas congénitos: son raros; se presentan con hemangiomas maduros al nacimiento. Se caracterizan por crecimiento intrauterino, poco crecimiento después del nacimiento e involución en el primer año de vida.
- Hemangiomatosis neonatal difusa: lesiones múltiples hasta en el 15% de los pacientes; pueden

- hacernos sospechar de posible compromiso visceral, del cerebro, hígado, riñones y tracto gastrointestinal. Los pacientes presentan al nacimiento lesiones de 0.2 a 2.5 cm de diámetro, y durante la infancia exhiben cientos de lesiones similares; tienen una alta tasa de mortalidad que va del 29% a 80%.
- Síndrome de PHACES: hemangiomas de gran tamaño en cara y cuello, asociados a otras anomalías congénitas. El acrónimo PHACES se refiere a malformaciones de la fosa posterior del cerebro, hemangiomas, anomalías arteriales, coartación de la aorta, defectos cardiacos, malformaciones de ojos, defectos de esternón y diáfisis supraumbilical.

# Discusión de los hemangiomas gástricos

Por lo general, son lesiones benignas asintomáticas con hallazgos incidentales; sin embargo, pueden causar sangrado abundante, e incluso fatal en el 40 al 70% de los casos. Normalmente, se manifiestan por sangrado profuso indoloro; aunque puede ser discreto y crónico, también se presenta de manera profusa y activa. 1,3,4,7,9,13 Debido a las paredes delgadas de los capilares, están predispuestos a su ruptura por el flujo sanguíneo aumentado.

El sangrado de tubo digestivo en neonatos se presenta en 10-40% de los pacientes internados en la unidad de cuidados intensivos neonatales (UCIN), sobre todo en pacientes con asfixia, infecciones y trombocitopenia. 13,14

La mayoría de los pacientes presenta hematoquesia y melena; ambas pueden causar anemia severa, incluso mortal. La endoscopia de emergencia es el paso inicial en el diagnóstico y tratamiento. De los pacientes, 52% presentan sangrado de tubo digestivo alto, mientras que 42% son de bajo; 6% de los sangrados son originados en otras regiones del cuerpo.<sup>15</sup>

Por lo general, el paciente no presenta ningún otro síntoma, aunque puede haber intususcepción con síntomas de obstrucción intestinal. Un número pequeño de pacientes más grandes de edad pueden presentar distensión abdominal, dolor, mareos, náusea, vómito, fatiga y malestar general.<sup>11</sup>

Hasta 50% de los pacientes pueden presentar hemangiomas o telangiectasias, y algunos manifiestan historia familiar de lesiones similares.

El diagnóstico es difícil de conseguir, ya que cursa con diferente presentación clínica, diferente edad, rareza y falta de sospecha por lo mismo; el diagnóstico definitivo es por histopatología. En la radiografía simple, se pueden localizar flebolitos. En el estudio ecográfico, se puede ver una masa sólida lobulada de ecogenicidad variable con examen Doppler positivo.

#### **Tratamiento**

Corticosteroides sistémicos (de 2 a 3 mg/kg/día por dos a cuatro meses) pueden hacer que las lesiones remitan rápidamente; disminuyen la expresión del factor de crecimiento endotelial VEGF-A, con tasa de respuesta del 30 al 50%.<sup>5,11</sup>

La radioterapia puede causar efectos indeseables como cicatrización, dermatitis, alteraciones del crecimiento y tumores secundarios. Por lo mismo, ya no es opción terapéutica.<sup>5,8,9,11</sup>

La cirugía puede ser difícil por el tamaño y causa cicatrización.

La embolización selectiva puede ocasionar embolización o necrosis de los órganos afectados.

Heparina o aspirina más dipiridamol, pentoxifilina, esteroides y ácido épsilon aminocaproico han sido útiles para el control de la coagulopatía por consumo.

El láser de colorante pulsado, de manera endoscópica, ha demostrado buenos resultados en el manejo de estas lesiones.<sup>8</sup>

Interferón alfa b2, considerado como inhibidor de la angiogénesis, exhibe tasas de respuesta de hasta 70%, pero tiene riesgo de diplejía espástica, aunque ha mostrado buenos resultados en aquellos pacientes que no responden adecuadamente a corticosteroides.

La gastrectomía sólo se debe realizar en situaciones de urgencia donde no es posible inhibir el sangrado o por localización anatómica.<sup>8,11</sup>

#### **REFERENCIAS**

- Cohen MB, Cotran RS, Kumar V, Robbins SL. Robbins' pathologic basis of disease. 5th ed. Philadelphia: Saunders; 1994. pp. 563-566.
- McMillan JA, David FR, DeAngelis C, Douglas JM Jr. Oski's solution: Oski's pediatrics: principles and practice. 4th ed. Plus Integrated Content Website (Pediatrics: Principles & Practice (Oski's/McMillan)) 4th ed. 2006. pp. 458-459.

- Kliegman R, Behrman R, Jenson H, Stanton B. Nelson textbook of pediatrics. 18th ed. 2007. p. 1643.
- Avery GB, MacDonald MG, Seshia MM, Mullett MD. Avery's neonatology: patophysiology and management of the newborn. 6th ed. 2005.
- Maya J, Blanco G, Maldonado R. Hemangiomatosis neonatal difusa. Bol Med Hosp Infant Mex. 2013; 70 (1): 38-43.
- De Diego GE, Fernández JI, Carrera T, González S. Hemangiomas y malformaciones vasculares. ¿Qué se puede hacer? Bol Pediatr. 2001; 41: 137-143.
- Espinoza RJ, Ferrufinino SM, Bravo PE, Cok GJ, Pinto VJ, Tagle AM et al. Hemangioma gástrico como causa de hemorragia digestiva alta. Rev Gastroenterol Perú. 2017; 37 (3): 261-358.
- Young Ah Lee, Peter Chun, Eun Ha Hwan, Yeoun Joo Lee, Chang Won Kim, Jae Hong Park. Gastric hemangioma treated whith argon plasma coagulation in a newborn. Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr. 2017; 20 (2): 134-137.
- Shukri N, Amara R, Malik S, Taher H, Kilany M. Neonatal intestinal perforation, a rare complication of small bowel hemangioma. European J Pediatr Surg Rep. 2013; 1 (1): 30-31.
- Massaro M, Suárez T, Huertas C, Cuervo C. Hemangiomas mesentéricos. Presentación de cuatro casos. Rev Colomb Radiol. 2012; 23 (3): 3541-3545.
- Eon Chul Han, MD, Soo-Hong Kim, MD, Hyun-Young Kim, Sung-Eun Jung, Kwi-Won Park. Gastrointestinal hemangioma in childhood: a rare cause of gastrointestinal bleeding. Korean J Pediatr. 2014; 57 (5): 245-249.
- Davenport M, Salisbury J, Karani J, Tan KC. Retroperitoneal haemangiolymphangioma presenting with proyectil vomiting and trombopcitopenia at 2 weeks of age. Journal of the Royal Society of Medicine. 1990; 83: 591-592.
- Tomaz SS, Chaves RR, Brito PL, de Campos VS, Silveira OL, Hideki L et al. Gastric hemangioma in a 5-year-old. Journal of Pediatric Surgery. 2007; 42 (4): 717-718.
- Ombeva OM, Ndeezi G, Mugalu J. Upper GI bleeding among neonates admitted to Mulago Hospital, Kampala, Uganda: a prospective cohort study. Afr Health Sci. 2013; 13 (3): 741-747.
- Okazaki H, Fujiwara Y, Sugimori S, Nagami Y, Kameda N, Yamagami H et al. Prevalence of mid-gastrointestinal bleeding with acute overt gastrointestinal bleeding: multi-center experience with 1044 consecutive patients. J Gastroenterol. 2009; 44 (6): 550-555.

Dirección para correspondencia: **Dr. Ramón Antonio González López**Eugenio Sue Núm. 355-107, Col. Polanco,
Del. Miguel Hidalgo, 05100,
Ciudad de México.

Tel: 553 1753
Cel: 044 55 3005 7655

**E-mail:** monchodr@gmail.com