

## SÍNDROME DE SECRECIÓN INADECUADA DE HORMONA ANTIDIURÉTICA SECUNDARIA A INFECCIÓN POR VIRUS EPSTEIN BARR.

María Laura Alves (1), Brayan Infante (2), Pedro Blanco (3), Mariana Stanchieri (4)

Recibido: 19/03/2024  
Aceptado: 15/05/2024

### RESUMEN

El síndrome de secreción inadecuada de hormona antidiurética (SIADH), se define como el aumento anormal o inadecuado de la hormona antidiurética (ADH) en respuesta a una variación de la volemia y / o de la osmolaridad plasmática. Tiene etiología diversa, incluyendo causas infecciosas, aunque poco frecuentes. Se presenta el caso de escolar masculino de 6 años de edad, quien cursó con clínica de 10 días de evolución caracterizada por edema bpalpebral matutino, fiebre de difícil manejo, odinofagia y malestar general; con hallazgos al examen físico de edema bpalpebral, faringitis, adenopatías generalizadas y visceromegalias; paraclínicos con leucocitosis a expensas de linfomonocitosis, trombocitopenia, hiponatremia, osmolaridad urinaria aumentada y serologías para virus de Epstein-Barr (VEB) positiva; por lo que se concluyó como presentación de SIADH desencadenado por etiología infecciosa viral. Es fundamental tener presente la posible asociación de SIADH y patologías infecciosas para hacer diagnóstico precoz y manejo adecuado.

*Arch Venez Puer Ped 2024; 87 (1): 30 - 32*

**Palabra Clave:** Síndrome de Secreción Inadecuada de ADH, Infecciones por Virus de Epstein-Barr, Hiponatremia.

### SYNDROME OF INAPPROPRIATE SECRETION OF ANTIDIURETIC HORMONE SECONDARY TO EPSTEIN BARR VIRUS INFECTION.

### SUMMARY

Syndrome of inappropriate antidiuretic hormone secretion (SIADH) is defined as the abnormal or inappropriate increase in antidiuretic hormone (ADH) in response to a variation in plasma volume and/or osmolarity. It has diverse etiology, including infectious causes, although rare. The case of a 6-year-old male schoolboy is presented, who had a 10-day history of symptoms characterized by morning double-eyelid edema, difficult-to-manage fever, odynophagia, and general malaise; with physical examination findings of bpalpebral edema, pharyngitis, generalized lymphadenopathy and visceromegaly; paraclinical with leukocytosis at the expense of lymphomonocytosis, thrombocytopenia, hyponatremia, increased urinary osmolarity and positive serologies for Epstein-Barr virus (EBV); Therefore, it was concluded as a presentation of SIADH triggered by viral infectious etiology. It is essential to keep in mind the possible association of SIADH and infectious pathologies to make early diagnosis and appropriate management.

*Arch Venez Puer Ped 2024; 87 (1): 30 - 32*

**Keywords:** Syndrome of Inappropriate ADH Secretion, Epstein-Barr Virus Infections, Hyponatremia

## INTRODUCCIÓN

El síndrome de secreción inadecuada de hormona antidiurética (SIADH), se define como el aumento anormal o inadecuado de la hormona antidiurética (ADH) en respuesta a una

variación de la volemia y/o de la osmolaridad plasmática; dando como resultado hiponatremia dilucional, disminución de la osmolaridad sérica y aumento de la osmolaridad urinaria; produciendo activación de mecanismos natriuréticos y por ende la excreción urinaria de sodio (1).

La etiología de este síndrome es diversa, abarca desde causas relacionadas con alteraciones del sistema nervioso central (SNC), neoplasias, causas hereditarias, farmacológicas e infecciosas (1).

La clínica dependerá de la gravedad y la velocidad de instauración de la hiponatremia; pudiendo cursar asintomáticos, presentar clínica inespecífica como náuseas, vómitos, irritabilidad o cefalea; hasta síntomas neurológicos importantes, como convulsiones, obnubilación, signos de hipertensión intracraneal y coma (1).

El diagnóstico incluye una historia clínica detallada, con examen físico exhaustivo y pruebas de laboratorio que incluyan concentraciones séricas y urinarias de electrolitos y osmolaridad sérica y urinaria; ya que principalmente en estos pacientes se encuentra: hiponatremia (< 130 mEq/l), osmolaridad sérica disminuida (< 270 mOsm/kg) y osmolaridad urinaria aumentada (> 300-500 mOsm/kg) (2).

El tratamiento se basa en la resolución de la causa subya-

- (1) Especialista en Puericultura y Pediatría. Adjunto de la Consulta de Atención Primaria en Pediatría del Ambulatorio Docente Asistencial. Hospital Universitario de Caracas. Venezuela. Teléfono: 0416-6152713. Correo electrónico: marialauraalves0706@gmail.com ORCID: 0000-0002-6611-4022
- (2) Especialista en Puericultura y Pediatría. Adjunto de la Consulta de Atención Primaria en Pediatría del Ambulatorio Docente Asistencial. Hospital Universitario de Caracas. Venezuela. Teléfono: 0424-2508965. Correo electrónico: brayan.infante@hotmail.com ORCID: 0000-0003-1801-8498
- (3) Especialista en Puericultura y Pediatría. Nefrólogo pediatra. Adjunto del Departamento de Pediatría del Hospital Universitario de Caracas. Venezuela. Teléfono: 0412-6183037. Correo electrónico: pantonio19@gmail.com ORCID:00900611025125
- (4) Especialista en Puericultura y Pediatría. Infectólogo pediatra. Adjunto de Sección de Infectología Pediátrica del Hospital Universitario de Caracas. Venezuela. Teléfono: 0414-3723525. Correo electrónico: maristan1701@hotmail.com. ORCID:0000-0002-1157-5761

Autor correspondiente:  
María Laura Alves. Telf: 0416-6152713.  
Correo: marialauraalves0706@gmail.com

cente, restricción hídrica y aumento de los aportes de sodio; en algunos casos es necesario el uso de antagonistas de vasopresina. En general es un proceso autolimitado y los síntomas desaparecen al revertirse la causa (2).

Por su parte, la mononucleosis es una infección sistémica producida en el 90 % de los casos por el virus de Epstein-Barr (VEB), frecuente en niños y adolescentes, cuya prevalencia incrementa con la edad. Se presenta con síntomas que incluyen la tríada clásica (fiebre, adenopatías y odinofagia) acompañados de malestar general, astenia, cefalea, mialgias; y signos clínicos como faringitis, linfadenopatías, enantema palatino y hepatoesplenomegalia (3).

El diagnóstico se basa en la presencia de signos, síntomas clínicos típicos y pruebas de laboratorio con hallazgos de linfomonocitosis y presencia de linfocitos atípicos y en algunos casos incluso trombocitopenia, así como pruebas serológicas confirmatorias como la determinación de anticuerpos específicos contra el VEB (2,3).

La mayoría de los cuadros se resuelven de forma espontánea en un período de 2 a 3 semanas; ocasionalmente puede presentarse complicaciones que pueden afectar los distintos sistemas en especial el sistema nervioso central e incluso llegar a presentarse como síndromes linfoproliferativos (2,3).

## CASO CLÍNICO

Escolar masculino de 6 años de edad, natural y procedente de Distrito Capital, quien inició enfermedad actual el 07 de enero de 2023, cuando presentó aumento de volumen bpalpebral bilateral, de inicio matutino. A las 24 horas, se asoció al cuadro clínico episodios febriles cuantificados en 39° C, de difícil manejo, odinofagia, tos no productiva y cefalea holocraneana de leve intensidad, que persistió durante 10 días, motivo por el cual acude a facultativo de su localidad quien indicó paraclínicos que reportaron leucocitosis (31.800 10<sup>3</sup>/μL), trombocitopenia (24.800 10<sup>3</sup>/μL) y aumento de la LDH (1.620 U/L), por lo que fue referido al Hospital Universitario de Caracas, donde posterior a evaluación se decidió su ingreso.

Al examen físico presentó edema bpalpebral bilateral que no limitaba apertura ocular, faringe eritematosa con hipertrofia de amígdalas no congestivas, rinorrea hialina anterior moderada, adenopatías de 1,5 cm de diámetro, blandas, móviles, no adheridas a planos profundos en región laterocervical bilateral y otras de 0,5-1 cm de diámetro de mismas características en región submandibular, retroauricular, axilar e inguinal; abdomen doloroso a la palpación superficial y profunda en ambos flancos con hígado palpable a 6 cm por debajo de reborde costal derecho, bazo palpable Boyd 2.

Exámenes paraclínicos reportaron glóbulos blancos 31.800 10<sup>3</sup>/μL, neutrófilos 29 %, linfocitos 63 %, monocitos 8 %, hemoglobina 13 g/dL, plaquetas 24.800 10<sup>3</sup>/μL, urea 7,4 mg/dL, creatinina 0,46 mg/dL, LDH 1.620 U/L. Uroanálisis: color amarillo, ligeramente turbio, densidad 1030, pH 6, pro-

teínas trazas, resto de química negativo. Leucocitos 0-2x<sub>C</sub>, células planas 4-6x<sub>C</sub>, bacterias escasas, mucina escasa. Ultrasonido abdominal: hepatoesplenomegalia. En vista de clínica, hallazgos al examen físico y paraclínicos se decidió ingresar al paciente bajo diagnóstico de síndrome febril prolongado y adenomegálico en estudio. Es evaluado por nefrología pediátrica por evidenciarse edema bpalpebral bilateral de inicio matutino, se realizan pruebas de funcionalismo renal, las cuales reportaron: sodio sérico 128 mEq/L, sodio urinario 51,7 mEq/L, ácido úrico en orina 78,9 mmol, creatinina en orina 30 mg/dL; con FENa en 0,62 % y osmolaridad urinaria: 875; resultados compatibles con síndrome de secreción inadecuada de hormona antidiurética (SIHAD). Se indicó dieta con aumento de la ingesta de sodio y control de paraclínicos en 48 horas; lo cuales reportaron en comparación con los de ingreso descenso de glóbulos blancos (4.370 10<sup>3</sup>/μL) y aumento de las plaquetas (194.000 10<sup>3</sup>/μL), creatinina de 0,99 mg/dL, ácido úrico 2,0 mg/dL, sodio en 135 mg/dL, ácido úrico en orina 58,4 mg/dL y creatinina en orina 91,8 mg/dL; por lo que se ajusta dieta a normosódica.

Dentro de protocolo de estudio de síndrome febril prolongado y adenomegálico con paraclínicos a predominio de linfomonocitosis se solicitó evaluación por servicio de hematología, quienes realizaron frotis de sangre periférica, donde evidenciaron linfocitos reactivos, motivo por el cual realizaron aspirado de médula ósea, resultado negativo, así mismo, se solicitaron serologías virales para CMV IgM 0,6 (Negativo < 0,9) e IgG 2,57 (Positivo: > 1,1), y para VEB: IgM 1,58 (Positivo > 1,1) e IgG 1,4 (Positivo > 1,1); concluyendo como diagnóstico etiológico mononucleosis infecciosa por virus Epstein-Barr; paciente egresó el 27 de enero de 2023 luego de haber permanecido 48 horas afebril y en buenas condiciones con seguimiento por consulta de infectología y nefrología pediátrica.

## DISCUSIÓN

El SIADH es una entidad clínica heterogénea caracterizada por hiponatremia, hipoosmolaridad plasmática, osmolaridad urinaria inadecuadamente elevada y natriuresis alta, por su parte, la infección por virus de Epstein Barr, posee una sintomatología variable, siendo lo más frecuente fiebre, faringitis, astenia y adenomegalias, en raras ocasiones, presenta otro tipo de manifestaciones o complicaciones (1,2); clínica similar a la presentada por el paciente donde hubo fiebre prolongada, adenopatías, faringitis y hepatoesplenomegalia, por otro lado, solo presentó edema desde el punto de vista clínico en relación con el SIADH, a diferencia de la mayoría de los casos reportados en la literatura, donde se ponen de manifiesto alteraciones neurológicas de diversa gravedad, incluyendo encefalitis, pudiendo llegar incluso hasta el coma (4-7).

Se pudo establecer el diagnóstico de SIADH por paraclínicos con hiponatremia, aumento de ácido úrico y sodio en orina, elevación de la osmolaridad urinaria con disminución

de la fracción excretada de sodio en orina; hallazgos que son compatibles con lo descrito en la literatura consultada (4,5,8,9).

Se ha descrito en la literatura la aparición de SIADH de forma infrecuente, secundaria a la infección por virus de la varicela, citomegalovirus, virus de Epstein-Barr, y más recientemente en infección por virus SARS-CoV-2 (4-7); así como otras complicaciones asociadas a este último como síndrome de Guillain-Barré y poliradiculoneuritis (4,8). El mecanismo fisiopatológico de producción de este evento no está del todo claro, sin embargo, se postula que guarda relación con la permanencia del virus en las neuronas asociadas a la vía neurológica implicada en la secreción de hormona anti-diurética (5).

Con respecto al manejo del paciente presentado, fue conservador, puesto que, con la instauración de dieta con aumento en el aporte de sodio, control de líquidos y electrolitos, los síntomas remitieron en pocos días, teniendo el paciente una evolución satisfactoria. En la literatura se describen como medidas terapéuticas tales restricción hídrica e ingesta oral elevada de sodio; dejando el uso de solución hipertónica al 3% y antagonistas de vasopresina para aquellos casos severos (5).

También se han descrito compromiso de otros órganos y sistemas, principalmente el sistema respiratorio, expresado como distrés respiratorio, así como del sistema cardiovascular, cuya principal manifestación fue pericarditis, ambas entidades asociadas a mononucleosis y SIADH (12).

Cabe acotar que es difícil establecer una comparación entre los pacientes presentados en la literatura con el del presente caso, puesto que no se hallaron casos descrito en población pediátrica.

## CONCLUSIONES

El SIADH puede ser causado por múltiples etiologías; siendo las infecciosas unas de las menos frecuentes. En el presente caso se pudo corroborar la relación entre dicho síndrome y la mononucleosis infecciosa por virus de Epstein-Barr; pudiendo considerar el presente reporte como uno de los primeros descritos en relación a ambas entidades clínicas, dando lugar a una nueva posibilidad de estudio y consideración diagnóstica ante estos pacientes, lo cual permite el manejo oportuno y precoz de los mismo, con el fin de evitar la progresión de la enfermedad y sus posibles complicaciones a nivel neurológico y renal.

## REFERENCIAS

1. Martínez Antón A, Collado Caparrós JF. Protocolo de diabetes insípida, síndrome de secreción inadecuada de hormona anti-diurética y síndrome pierde sal cerebral. *Protoc diagn ter pediatr* [Internet]. 2021; 1: 653-670. [citado el 18 de junio de 2023] disponible en: [https://www.aeped.es/sites/default/files/documentos/45\\_diabetes\\_insipida\\_s\\_secrecion\\_inadecuada\\_s\\_pierdesal.pdf](https://www.aeped.es/sites/default/files/documentos/45_diabetes_insipida_s_secrecion_inadecuada_s_pierdesal.pdf).

2. Moritz M. Syndrome of Inappropriate Antidiuresis. *Pediatr Clin N Am*. 2019; 66: 209-226 [citado el 18 de junio de 2023]. disponible en: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0031395518301408?via%3Dihub>.
3. Fugl A, Lykkegaard C. Epstein-Barr virus and its association with disease - a review of relevance to general practice. *Fugl and Andersen BMC Family Practice*. [Internet] 2019; 20: 62 [citado el 18 de junio de 2023]. disponible en: <https://bmcpri-mcare.biomedcentral.com/articles/10.1186/s12875-019-0954-3>.
4. Kawada J, Ito Y, Ohshima K, Yamada M, Kataoka S, Muramatsu H, et al. updated guidelines for chronic active Epstein-Barr virus disease. *International Journal of hematology*. [Internet] 2023;118: 568-576 [citado el 18 de junio de 2024]. Disponible en: [https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC10615970/pdf/12185\\_2023\\_Article\\_3660.pdf](https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC10615970/pdf/12185_2023_Article_3660.pdf).
5. Ahmadzadeh A, Nazarpour S, Jandaghi E. Syndrome of Inappropriate secretion of Antidiuretic hormone and severe thrombocytopenia in an Immunosuppressive systemic lupus erythematosus Patient: A case report. *Rheumatology research*. [Internet] 2021; 6(2) [citado el 18 de junio de 2023]. Disponible en: [https://www.rheumres.org/article\\_140894.html](https://www.rheumres.org/article_140894.html).
6. Wang CC, Shiang JC, Chen JT, Lin SH. Syndrome of inappropriate secretion of antidiuretic hormone associated with localized herpes zoster ophthalmicus. *J Gen Intern Med*. 2011; 26(2): 216-220 [citado el 15 de julio de 2023]. Disponible en: <https://link.springer.com/article/10.1007/s11606-010-1517-4>
7. Grajecki DS, Haas CS, Hubold C, Lehnert H. Successful treatment of eBv-associated sIADh with v2 receptor antagonist. *Experimental and clinical endocrinology & diabetes*. 2013, 3: 7-9.
8. Uddin Chowdhury MR, Shanzida Akter K, Moksedul Moulam M, Anwarul Kabir M, Islam Bhuiyan S, Chandra Das B. COVID-19 presented with syndrome of inappropriate Adh secretion (SIADH): A case report from Bangladesh. *Respir Med Case Rep*. 2020; 31: 101-102. doi: 10.1016/j.rmcr.2020.101290
9. Rademakers RP, Verkijk A, van Hoogenhuijze J, de Graaf P. Polyradiculoneuritis and inappropriate Adh secretion in infectious mononucleosis. *Neth J Med*. [Internet]. 1990; 36(5-6): 252-254 [citado el 15 de julio de 2023]. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/2395492/>
10. McKendall RR, Sadiq SA, Calverley JR. Unusual manifestations of Epstein-Barr virus encephalomyelitis. *Infection*. 1990; 18(1): 33-35 [citado el 16 de julio de 2023]. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1007/bf01644180>
11. Mouallem M, Friedman E, Rubinstein E. Inappropriate antidiuretic hormone secretion with infectious mononucleosis. *N Engl J Med*. [Internet]. 1984; 311(4): 262 [citado el 16 de julio de 2023]. Disponible en: <https://www.nejm.org/doi/full/10.1056/nejm198407263110421>
12. Bruyn GA, Schelfhout IJ. Transient syndrome of inappropriate antidiuretic hormone secretion in a patient with infectious mononucleosis and pure red cell aplasia. *Neth J Med*. 1986; 29(5): 167-196 [citado el 16 de julio de 2023]. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/3086760/>

## DUPLICACIÓN DEL CANAL ANAL. REPORTE DE CASO CLÍNICO

Rivas Isbel (1), Hutton Brenda (2).

Recibido: 30/04/2024  
Aceptado: 15/06/2024

### RESUMEN

La duplicación del canal anal es una anomalía congénita extremadamente rara que se describe como un orificio secundario ubicado en la línea media, posterior a la hora 6 del ano nativo. Presentamos el caso de un escolar femenino de 6 años de edad quien debutó con cuadro clínico infeccioso de absceso perianal. Existen escasos casos reportados en la literatura internacional de duplicación del canal anal siendo más infrecuente cuando se manifiestan como cuadro infeccioso. Por lo general, si el diagnóstico se realiza a temprana edad, los pacientes no suelen tener síntomas.

*Arch Venez Puer Ped 2024; 87 (1): 33 - 35*

**Palabra Clave:** Duplicación anal, absceso perianal, fistula perianal

### ANAL CANAL DUPLICATION

### SUMMARY

Duplication of the anal canal is an extremely rare congenital anomaly described as a secondary orifice located in the midline at the 6th hour of the native anus. We present the case of a 6-year-old girl who presented with an infectious clinical setting of perianal abscess. There are few cases reported in the international literature of duplication of the anal canal being more infrequent when it manifests as an infectious condition. In general, if the diagnosis is made at an early age, patients usually have no symptoms.

*Arch Venez Puer Ped 2024; 87 (1): 33 - 35*

**Keywords:** Anal duplication, perianal abscess, perianal fistula

## INTRODUCCIÓN

La duplicación del canal anal es una anomalía congénita extremadamente rara del tracto intestinal. Se presenta como un orificio secundario ubicado en la línea media, posterior al ano nativo. Suelen ser de configuración tubular con longitud de 1 a 3 cm, donde la comunicación proximal entre el canal anal nativo y la duplicación es infrecuente, aunque pueden compartir una pared en común. Se presenta más frecuentemente en el sexo femenino, en su mayoría se diagnostican en la infancia y sólo unos pocos casos permanecen sin diagnosticar hasta la edad adulta (1,2). En varios de los casos reportados se han descrito la presencia de masas presacras acompañando la duplicación anal (2). La evaluación histológica para el diagnóstico de duplicación del canal anal se compone de tres tipos de tejidos: epitelio escamoso y transicional, así como de células musculares lisas (3).

### Reporte de Caso

Escolar femenino de 6 años de edad, quien presentó salida de secreción verdosa amarillenta a nivel del ano, acompañado

de fiebre de 39°C que no cedía con la administración de anti-piréticos. Consulta a facultativo donde se realizan laboratorios que reportó leucocitos 23.100 mm<sup>3</sup>, segmentados 66%, linfocitos 34%, plaquetas 431 mm<sup>3</sup>, PCR 11.4 mg/L, por lo que se ingresa para antibioticoterapia y resolución del cuadro infeccioso, diagnosticándose posible absceso perianal. Durante su hospitalización presentó evacuación normal, acompañada de secreción espesa blanquecina muy fétida en 3 oportunidades por posible drenaje de absceso perianal.

Pocos días después de su egreso, la madre nota orificio ubicado en línea media posterior al ano, con salida de secreción fétida. Por este motivo acude a consulta de cirugía pediátrica donde al examen físico se evidencian los siguientes hallazgos: ano con anatomía conservada, orificio secundario amplio en línea media a 0.5 cm del borde posterior (hora 6) del ano. Se introduce bújia de Hegar a través del mismo, apreciándose canal de una longitud de 2,5 cm sin aparente comunicación con tracto digestivo nativo, ni salida de secreción por el orificio (Fig. 1 y 2). Se propone impresión diagnóstica de duplicación del canal anal.

La paciente es llevada a quirófano y bajo anestesia general se realiza abordaje sagital posterior mínima con incisión circunferencial del orificio, disección completa de la duplicación anal hasta lograr su exéresis total y reconstrucción del esfínter anal posterior. Los hallazgos quirúrgicos fueron: orificio fistuloso amplio, en hora 6 de región perianal, de configuración tubular, de 3 cm de longitud, sin comunicación con canal anal, revestido por mucosa similar a la rectal, que se dirigía hacia sacro terminando en fondo de saco. No se observó

(1) Cirujano Pediatra Hospital Pediátrico San Juan de Dios, Caracas - Venezuela. ORCID 0009-0003-1107-0661

(2) Cirujano Pediatra Hospital Pediátrico San Juan de Dios, Caracas - Venezuela. ORCID 0000-0002-4817-7740

Autor correspondiente:

Brenda Hutton

Correo electrónico: bhuttonm@gmail.com



Figura 1. Duplicación del canal anal



Figura 2. Orificio de duplicación del canal anal



Figura 3. Dibujo esquemático de hallazgo quirúrgico.

tumoración presacra. Se concluye como diagnóstico postoperatorio duplicación del canal anal. (Fig.3)

El estudio histopatológico reportó fragmento de tejido blanco fibro-adiposo con extensa erosión del epitelio de revestimiento superficial, tapizado por epitelio escamoso mucoso. Estroma fibroso vascularizado. Ausencia de atipias celulares. Se confirma el diagnóstico de duplicación del canal anal..

En el postoperatorio la paciente evolucionó sin complicaciones. No hubo recidiva en 4 años de seguimiento.

## DISCUSIÓN

La duplicación del canal anal es la anomalía más rara del tracto intestinal (2). Fue descrita por primera vez por Dukes et al. en 1956 (3). Afecta más a las mujeres que a los hombres en una proporción de 9:1 y se asocia con otra anomalía en el 44% de los casos, entre las cuales tenemos las masas pre sacras y el síndrome de Currarino (2). En la actualidad, se han reportado aproximadamente 100 casos de duplicación del canal anal en la literatura (1). El 89.3% de las duplicaciones del canal anal son tubulares y ocasionalmente pueden ser quísticas (10.7%) (5).

Se desconoce la etiología, aunque se cree que se origina a partir de una cloaca dorsal duplicada. Una teoría alternativa es que la ruptura de la membrana cloacal y la posterior recanalización da como resultado la formación de un canal anal anómalo (2).

Los pacientes pueden presentar síntomas inespecíficos como estreñimiento, dolor perianal y prurito (1,6,7). Otros pueden presentar complicaciones como sepsis o abscesos cutáneos que se confunden con abscesos perianales como ocurrió en nuestro caso, lo que genero error en el diagnóstico inicialmente. La presencia de infecciones como abscesos perianales es raro. Dandan et al en el 2022 reportaron 9 casos de duplicación anal complicado con absceso perianal (5,8).

La frecuencia de los síntomas parece aumentar en correlación con la edad de presentación, Van Biervliet et al y Koga et al., describen las complicaciones infecciosas relacionado con la edad como ocurrió en el caso presentado (6,7), aunque la mayoría de los pacientes son asintomáticos (1,8).

El diagnóstico se puede hacer mediante una simple inspección perineal que revele un pequeño orificio en línea media posterior del ano (1). Por otra parte, la fistulografía permite evaluar la configuración de la duplicación (quística o tubular), su longitud y la presencia de comunicación con el canal anal (7). En el presente caso los hallazgos clínicos inclinaban a la sospecha de una posible duplicación del canal anal por lo que no se realizaron estudios imagenológicos. En vista de la alta incidencia de anomalías asociadas, la mayoría de los autores sugiere que, ante la sospecha de duplicación anal, se deben realizar estudios de imagen como ultrasonido y fistulografía para evaluar el trayecto, y resonancia magnética para descartar la presencia de masa presacra y defectos vertebrales (1,2,7,8).

El diagnóstico de la duplicación del canal anal se basa en dos factores: la evaluación clínica y la histopatología donde se reporta la presencia de epitelio escamoso en la superficie y epitelio de transición en la base de la duplicación con células musculares lisas en la pared de la lesión (9,10). En algunos casos se obtienen uno o dos de

los tejidos, en especial cuando han presentado cuadros infecciosos a repetición como fue reportado en el caso presentado.

El tratamiento definitivo para la duplicación del canal anal es la cirugía. Se recomienda la extirpación total del conducto duplicado por abordaje sagital posterior, o la mucosectomía en casos de duplicaciones cortas, con la finalidad de evitar complicaciones posteriores como infecciones y cambios malignos (7-9). Sin embargo, el único artículo publicado en el que se analiza el riesgo de malignidad fue en 1956 por Dukes. No se han registrado casos de malignidad por duplicación del canal anal desde esa fecha (4,11,12).

El pronóstico funcional de continencia rectal tras la extirpación es favorable en los casos simples, mientras que en los casos acompañados de masa presacra o defectos vertebrales sacros, podría estar comprometida la continencia (2,7,12).

## CONCLUSIÓN

La duplicación del canal anal es una de las anomalías congénitas más raras del tracto intestinal con predominio en el sexo femenino. La baja prevalencia, la escasa información en la literatura y presentación asintomática en algunos casos conllevan a diagnósticos erróneos, como fístulas y abscesos perianales. El retraso del diagnóstico y tratamiento conducen a complicaciones propias de la duplicación anal, entre ellos, los procesos infecciosos; como sucedió en el caso presentado.

## REFERENCIAS

1. Karamatzanis I, Kosmidou P, Harmanis S, Karamatzanis I, Harmanis G. Early Diagnosis of Anal Canal Duplication: The Importance of a Physical Examination. *Cureus* 2022;14(5):1-7. [Consultado en 13 junio 2024]. doi: 10.7759/cureus.25040.
2. Connor SJ, Brisighelli G, Patel N, Levitt MA. Clinical Quiz-A Rare Case of Anal Canal Duplication in the Context of Currarino Syndrome. *Euro J Pediatr Surg Rep*. 2021;9(1):68-71. [Consultado en 13 junio 2024]. doi: 10.1055/s-0041-1735595.
3. Ailhaud A, Alao O, Sole Cruz E, Faguet R, Verot PL, Piolat C et al. Anal canal duplication in children: a monocentric experience of 12 cases. *Pediatr Surg Int*. 2021;37(8):1007-1012. [Consultado en 13 junio 2024]. doi: 10.1007/s00383-021-04910-5.
4. Dukes CE, Galvin C. Colloid carcinoma arising within fistulae in the anorectal region. *Ann R Coll Surg Engl*. 1956;18(4):246-261.
5. Li D, Liu S, Feng J, Yang J. Anal Canal Duplication Mimicking Recurrent Abscess: A Case Report and Review of the Literature. *Front Surg*. 2022;9:1-6. [Consultado en 16 junio 2024]. doi: 10.3389/fsurg.2022.908390.
6. Van Biervliet S, Maris E, Vande Velde S, Vande Putte D, Meerschaut V, Herregods N et al; Anal canal duplication in an 11-year-old-child. *Gastrointest Med*. 2013;2013:503691 [Consultado en 15 junio 2024]. doi: 10.1155/2013/503691.
7. Koga H, Okazaki T, Kato Y, Lane GJ, Yamataka A. Anal canal duplication: experience at a single institution and literature review. *Pediatr Surg Int*. 2010;26(10):985-988. [Consultado en 16 junio 2024]. doi: 10.1007/s00383-010-2653-y.
8. Trecartin AC, Peña A, Lovell M, Bruny J, Mueller C, Urquidi M et al. Anal duplication: is surgery indicated? A report of three cases and review of the literature. *Pediatr Surg Int*. 2019;35(9):971-978. [Consultado en 15 junio 2024]. doi: 10.1007/s00383-019-04509-x.
9. Shen Y, Lin Y, Fang Y, Huang Y. Anal canal duplication in a 6-month-old boy. *Asian J Surg*. 2024 S1015-9584(24)01984-5. doi: 10.1016/j.asjsur.2024.08.244.
10. Palazon P, Julia V, Saura L, de Haro I, Bejarano M, Rovira C et al. Anal canal duplication and triplication: a rare entity with different presentations. *Pediatr Surg Int*. 2017;33(5):609-617. [Consultado en 15 junio 2024]. doi: 10.1007/s00383-017-4074-7.
11. Narci A, Dilek FH, Cetinkurşun S. Anal canal duplication. *Eur J Pediatr*. 2010;169(5):633-635. [Consultado en 15 junio 2024]. doi: 10.1007/s00431-009-1094-x.
12. Cheng LS, Courtier J, MacKenzie TC. Anal duplication in a one-year-old girl. *J Pediatr Surg*. 2013;1(10):373-374. [Consultado en 16 junio 2024]. doi: 10.1016/j.epsc.2013.10.002.