Caso Clínico Case Report

# Cecoureterocele, reporte de un caso

Cecoureterocele, a case report

Lorena Arze<sup>1</sup>, Aldo Viscaíno<sup>1</sup>, Marcela Herrera<sup>2</sup>

#### Resumen

El cecoureterocele es un ureterocele ectópico, malformación congénita del uréter distal en su desembocadura a la vejiga, que da lugar a un saco membranoso ciego que protruye por la uretra hasta el exterior. Presentamos a una niña de cinco meses y 6 kg de peso que acude para evaluación y manejo de una masa de color violáceo que protruye por el introito vaginal. Al examen físico, buen estado general. FC 134 lpm, TA 93/56 mmHg, FR 38 x′, T 360 C, Sat 02 96 %. Ecografía renal: Riñón izquierdo con una imagen líquida parahiliar compatible con doble sistema colector incompleto con dilatación del segmento proximal. Ecografía vesical: imagen con contenido líquido denso relacionada con el sistema urinario y compatible con ureterocele. Gammagrafía renal DMSA: área hipocaptante en polo superior del riñón izquierdo. Renograma isotópico DTPA: Retención del trazador en pelvis renal izquierda. Corrección quirúrgica consistente en nefrectomía parcial con escisión del polo superior del riñon izquierdo, separación y sección distal del uréter dilatado y resección del ureterocele. Evolución postoperatoria satisfactoria con alta a los dos días de la intervención. El cecoureterocele es una rara malformación de la vía urinaria habitualmente asociada a otras malformaciones corregibles quirúrgicamente. Recomendamos considerar esta posibilidad, en el diagnóstico diferencial de toda masa que protruye por la vagina.

Palabras claves: ureter, cecoureterocele, ureterocele ectópico, malformaciones del tracto urinario, infecciones del tracto urinario.

### **Abstract**

A cecoureterocele is an ectopic ureterocele, congenital anomaly of the distal ureter at the uretero-vesical junction, consisting in a closed membranous pouch which protrudes through the urethra into the vagina. We present a five months old, 6 kg girl, admitted for assessment and management of a dark red mass protruding through the vagina. On examination, good general health. BP 93/56, HR 134 bpm, RR 38x´, T 36o, O2 Sat 96 %. Renal ultrasound: parahiliar liquid shadow in the left kidney sugesting a duplicated incomplete collecting system with a dilated proximal segment. Bladder ultrasound: dense liquid shadow related to the urinary tract sugesting a ureterocele. DMSA renal gamma scan: poor captation in the upper pole of the left kidney. DTPA isotopic renogram: Retention of the tracer in the left renal pelvis. Surgical correction consisting in a left upper pole partial nephrectomy, separation and distal section of the dilated ureter and resection of the ureterocele. Good postoperative course, discharged two days later. A cecoureterocele is an uncommon congenital malformation of the urinary tract commonly associated with other surgically correctable malformations. We recomend to consider this posibility in the differential diagnosis of any mass protruding through the vagina.

Keywords: ureter. cecoureterocele. ectopic ureterocele. malformations of the urinary tract. urinary tract infections.

El cecoureterocele es un ureterocele ectópico, malformación congénita poco frecuente del uréter distal en su desembocadura a la vejiga, que da lugar a un saco membranoso ciego que protruye por la uretra hasta el exterior¹. Los ureteroceles se presentan en uno de cada 4.000 nacidos vivos. En autopsias, se han encontrado hasta en 1 de cada 500 casos², ocurren 4 a 6 veces más frecuentemente en mujeres y en la raza blanca³. Los cecoureteroceles son aún más raros. La prevalencia de ureteroceles en Bolivia en general y en Cochabamba en particular no es conocida y menos aún la de cecoureteroceles.

Los ureteroceles pueden ser asintomáticos o manifestarse por infecciones urinarias recurrentes desde la infancia, ocasionalmente severas y causantes de sepsis. Si son obstructivos y causantes de hidronefrosis pueden ocasionalmente palparse. Los ureteroceles ectópicos o cecoureteroceles se presentan como masas de color rojizo o violaceo que protruyen por la vagina<sup>1</sup> El tratamiento

es quirúrgico y consiste en una resección del ureterocele, asociado a una corrección de cualquier otra malformación asociada de la vía urinaria<sup>1</sup>.

La sección de Urología Pediátrica de la Academia Americana de Pediatría, clasifica los ureteroceles de acuerdo a su localización<sup>4</sup> en intravesicales cuando todo el ureterocele está dentro la vejiga y ectópicos cuando una parte del ureterocele sale a través del cuello vesical hacia la uretra. A los que salen por la vagina, se los llama cecoureteroceles. También pueden clasificarse de acuerdo a su asociación con un sistema colector simple en el que hay un solo uréter o duplicado cuando existen dos uréteres. El 80% se asocian a un sistema colector duplicado en el que el uréter afecto se relaciona con el polo superior del riñón y el 60% de estos son ectópicos.

El mecanismo de producción de los ureteroceles en general y del cecoureterocele en particular, es desconocido. Sin embargo, es probable que haya más de un mecanismo de producción<sup>5</sup>.

Ocasionalmente, los ureteroceles se diagnostican incidentalmente en una ecografía obstétrica antes del nacimiento, que muestra un saco membranoso dentro la vejiga<sup>6</sup>. Luego, se manifiestan por infecciones urinarias a repetición. El cecoureterocele, se manifiesta como una masa de color rojizo y consistencia blanda en la vagina, Otros

Correo electrónico: rsarze@hotmail.com

Recibido el 27 de abril de 2016 Aceptado el 4 de mayo de 2016

<sup>&</sup>lt;sup>1</sup>Servicio de Cirugía, Centro de Educación Médica e Investigaciones Clínicas CEMIC. <sup>2</sup>Servicio de Urología Pediátrica, Hospital de Niños Ricardo Gutierrez, Buenos Aires, Rep. Argentina.

<sup>\*</sup>Correspondencia a: Lorena Arze Aimaretti



Figura 1. Paciente con masa que protruye por el introito vaginal

tienen una evolución más insidiosa, con dolor abdominal intermitente, dolor pélvico o dificultad para ganar peso<sup>3</sup>. Algunos pacientes se presentan con una masa abdominal palpable debida a la obstrucción producida por el ureterocele en el uréter distal. La mayoría se descomprimen durante la micción, siendo muy rara la obstrucción en el tracto de salida vesical o la uretra<sup>5</sup>, salvo en las niñas con un cecoureterocele que prolapsa a la vagina.

La ecografía muestra el saco membranoso dentro la vejiga y en el uréter distal, llegando en algunos casos a protruir hasta la uretra. La gammagrafía isotópica con DTPA permite valorar la función del riñón derecho y del riñón izquierdo por separado y la excreción urinaria por el uréter comprometido. Con el DMSA se observa una menor captación en el polo renal afectado.

El manejo del ureterocele depende de la edad a la que se hace el diagnóstico y la forma de presentación, siendo diferente si se trata de un hallazgo incidental en la ecografía obstétrica antes del nacimiento o de un ureterocele sintomático después del nacimiento, si es intravesical o ectópico, de la funcionalidad del parénquima renal asociado y la presencia o no de un reflujo vesicoureteral<sup>5-9</sup>.

Los pacientes con un diagnóstico prenatal deben recibir antibióticos profilácticos hasta que se hace la evaluación radiológica post natal y se corrige cualquier obstrucción asociada de la vía urinaria, debiendo continuar si hay un reflujo vesico ureteral<sup>5,8,9</sup>.

Nuestro objetivo es describir el caso de un cecoureterocele y comentar algunos datos interesantes de la literatura.

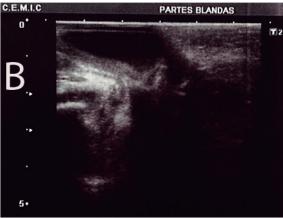
## Presentación del caso

Niña de 5 meses de edad y 6 kg de peso. Admitida para evaluación y manejo de una masa de color violáceo que protruye por el introito vaginal (Figura 1).

Al examen físico, buen estado general. FC 134 lpm, TA 93/56 mmHg, FR 38 x′, T 36°C, Sat 02 96 %. Masa de color violáceo que protruye por el introito vaginal (Figura 1).

Laboratorio: Hb 11,8 g/l; Htc 34,3 %; GB 16,530 mm $^3$ , N 66%, L 24%; plaquetas 401 000 mm $^3$ , KPTT 40". Ecografía renal:





**Figura 2 A.** Ecografía renal: doble sistema colector incompleto con dilatación del segmento proximal

**Figura 2 B.** Ecografía vesical: imagen con contenido líquido denso de 22 x 19 mm, comunicada con estructuras pelvianas y relacionada con el sistema urinario, compatible con ureterocele.

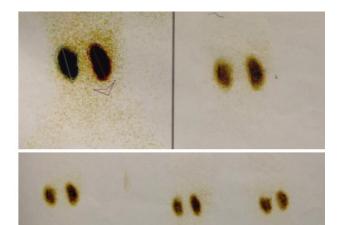
riñón derecho de forma y tamaño normal, sin hidronefrosis. Riñón izquierdo de forma y tamaño normal, con una imagen líquida parahiliar de 14 mm, compatible con doble sistema colector incompleto con dilatación del segmento proximal (Figura 2A). Ecografía vesical: imagen con contenido líquido denso de 22 x 19 mm, comunicada con estructuras pelvianas y relacionada con el sistema urinario, compatible con ureterocele (Figura 2B).

Con el diagnostico de cecoureterocele, se coloca un catéter vesical y se punciona el ureterocele para envió de muestras a cultivo, el mismo que muestra un crecimiento de más de 100 000 colonias de *Klebsiella oxytoca* sensible a cefalexina que se la prescribe, siendo dada de alta sin recurrencia.

Gammagrafía renal DMSA: área hipocaptante en polo superior del riñón izquierdo con función relativa para el riñón derecho de 56,3% y para el izquierdo de 43,7% (Figura 3). Renograma isotópico DTPA: retención del trazador en pelvis renal izquierda.

Ante estos hallazgos se procedió a la corrección quirúrgica consistente en una identificación del polo displásico del riñon izquierdo (Figura 4 A), ligadura de los vasos sanguíneos del polo superior del riñon izquierdo (Figura 4 B), nefrectomía parcial con escisión del polo superior (Figura 4 C), separación

Caso Clínico Case Report



**Figura 3.** Renograma isotópico DTPA: retención del trazador en pelvis renal izquierda.

del uréter dilatado y sección distal (Figura 4D) y resección del ureterocele (Figura 4E). Evolución postoperatoria satisfactoria. Alta en buenas condiciones a los dos días de la intervención.

#### Discusión

El cecoureterocele es un ureteroceles ectópico cuyo tratamiento es quirúrgico en la mayoría de los casos, variando desde una corrección endoscópica a una reconstrucción abierta completa, dependiendo de si se trata de un sistema colector simple o duplicado y de la presencia o ausencia de reflujo vesico ureteral<sup>3,5,8,9</sup>.

Los pacientes con sepsis asociada a obstrucción requieren un drenaje inmediato del riñon<sup>10</sup>, mediante una incisión endoscópica del ureterocele que suele aliviar la obstrucción<sup>11</sup>.

El éxito de una descompresión endoscópica y la necesidad de reoperación dependen de la localización del ureterocele<sup>12</sup>. Si es intravesical, la descompresión endoscópica resuelve el problema en el 80 a 90% de los casos<sup>13</sup>. Pero, si es ectópico como en nuestra paciente, el tratamiento endoscópico es

efectivo en solo un 25 a 30% de los casos<sup>11,14,15</sup>.

A mayor compromiso renal, mayor la probabilidad de que se requiera una cirugía abierta<sup>16</sup>. Estos casos requieren habitualmente de una nefrectomía parcial del polo superior.

En caso de una duplicación del sistema colector, el enfoque depende de la funcion del polo superior y de la localización del ureterocele. Si la función del polo superior es mínima como en nuestra paciente y no hay reflujo vesicoureteral, la neferectomía parcial está indicada para remover el segmento no funcionante, tal como se realizó en este caso. Si el polo superior tiene una función normal y no hay reflujo, el uréter dilatado del polo superior se anastomosa al uréter normal del polo inferior cerca de la vejiga. Los pacientes con un ureterocele asociado a un doble sistema colector, con frecuencia requieren de una segunda intervención 13, 16.

El pronóstico es mejor cuando el ureterocele se diagnostica durante el embarazo y se hace una descompresión endoscópica temprana<sup>17</sup>. La reconstrucción de la vejiga con escisión del ureterocele y reimplante de los uréteres está indicada cuando hay un reflujo vesicoureteral persistente. En una serie de 54 pacientes con ureteroceles ectópicos, tratados con reconstrucción de la vejiga, escisión del ureterocele y reimplante de los uréteres, el seguimiento a largo plazo durante 9,6 años, demostró excelentes resultados, con buena continencia en casi todos los pacientes<sup>18</sup>.

Resumiendo, el tratamiento habitual consiste en una resección abierta o endoscópica del ureterocele seguida de un reimplante del uréter en el mismo acto quirúrgico para evitar el reflujo y acompañado de una corrección de cualquier otra anomalía asociada como la ureterectomía total en caso de existir un uréter dilatado y asociado a una nefrectomía parcial en caso de existir un polo renal no funcionante como en nuestra paciente.

En conclusión, presentamos el caso de una niña de cinco meses con una rara malformación de la vía urinaria y que se presentó con una masa que hacía protrusión por la vagina. La

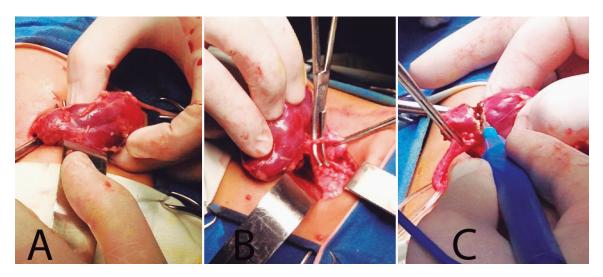
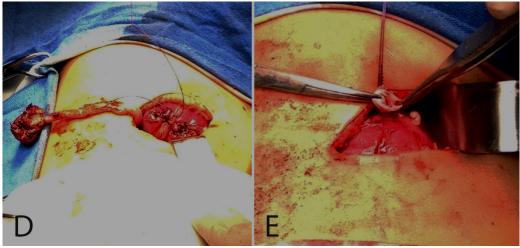


Figura 4A. Ligadura de los vasos sanguíneos del polo superior del riñon izquierdo.

Figura 4B. Nefrectomía parcial con escisión del polo superior.

Figura 4C. Separación del uréter dilatado y sección distal.



**Figura 4D.** Resección del ureterocele **Figura 4E.** Evolución postoperatoria satisfactoria

infección urinaria es una complicación frecuente que puede llevar a una sepsis. En nuestra paciente si bien creció una *Klebsiella oxytoca* en el contenido del ureterocele, no hubo compromiso del estado general. Luego de ser investigada, fue tratada satisfactoriamente mediante una nefrectomía polar superior izquierda resecando el tejido renal no funcionante, ureterectomía del uréter dilatado y resección del ureterocele, tal como se recomienda en la literatura internacional. Considerar la posibilidad de un cecoureterocele o ureterocele ectópico, en el diagnóstico diferencial de toda masa que protruye por la vagina, investigar cuidadosamente a la paciente mediante estudios por imagen y radioisotopicos, luego proceder a la corrección quirúrgica de todas las malformaciones

asociadas y a la resección del tejido renal no funcionante. Consideramos que la presentación de este caso clínico y sus comentarios ayudaran a mejorar la salud infantil de nuestra población desde el punto de vista quirúrgico, recomendamos tratándose de un caso muy raro. considerar la posibilidad de un cecoureterocele o ureterocele ectópico, en el diagnóstico diferencial de toda masa que protruye por la vagina.

Conflicto de intereses: los autores declaramos que no existe conflicto de intereses.

## Referencias bibliográficas

- 1. Keating MA. Ureteral duplication anomalies: ectopic ureters and ureteroceles. En: Docimo SG, Canning DA, Khoury AE, eds. The Kelalis–King–Belgman Textbook of Clinical Pediatric Urology. 5.ª ed. London: Informa Healthcare; 2007, p. 593
- 2. Uuson AC, Lattimer JC, Melicow MM. Ureteroceles in infants and children: a report based on 44 cases. Pediatrics 1961; 27:971.
- Shokeir AA, Nijman RJ. Ureterocele: an ongoing challenge in infancy and childhood. BJU Int 2002; 90:777.
- 4. Glassberg KI, Braren V, Duckett JW. Suggested terminology for duplex systems, ectopic ureters and ureteroceles. J Urol 1984; 132:1153.
- 5. Coplen DE, Duckett JW. The modern approach to ureteroceles. J Urol 1995; 153:166.
- 6. Geringer AM, Berdon WE, Seldin DW, Hensle TW. The diagnostic approach to ectopic ureterocele and the renal duplication complex. J Urol 1983; 129:539.
- 7. Jesus LE, Farhat WA, Amarante AC. Clinical evolution of vesicoureteral reflux following

- endoscopic puncture in children with duplex system ureteroceles. J Urol 2011; 186:1455.
- 8. Shankar KR, Vishwanath N, Rickwood AM. Outcome of patients with prenatally detected duplex system ureterocele; natural history of those managed expectantly. J Urol 2001; 165:1226.
- 9. Rickwood AM, Reiner I, Jones M, Pournaras C. Current management of duplex-system ureteroceles: experience with 41 patients. Br J Urol 1992; 70:196.
- 10. Jayanthi VR, Koff SA. Long-term outcome of transurethral puncture of ectopic ureteroceles: initial success and late problems. J Urol 1999; 162:1077.
- 11. Coplen DE. Neonatal ureterocele incision. J Urol 1998; 159:1010.
- 12. Byun E, Merguerian PA. A meta-analysis of surgical practice patterns in the endoscopic management of ureteroceles. J Urol 2006; 176:1871.
- 13. Cooper CS, Passerini-Glazel G, Hutcheson JC. Long-term follow up of endoscopic incision of ureteroceles: intravesical versus extravesical. J

Urol 2000; 164:1097.

- 14. Husmann DA, Strand WR, Ewalt DH, Kramer SA. Is endoscopic decompression of the neonatal extravesical upper pole ureterocele necessary for prevention of urinary tract infections or bladder neck obstruction? J Urol 2002; 167:1440.
- 15. DeFoor W, Minevich E, Tackett L. Ectopic ureterocele: clinical application of classification based on renal unit jeopardy. J Urol 2003; 169:1092.
- 16. Hagg MJ, Mourachov PV, Snyder HM. The modern endoscopic approach to ureterocele. J Urol 2000: 163:940.
- 17. Upadhyay J, Bolduc S, Braga L. Impact of prenatal diagnosis on the morbidity associated with ureterocele management. J Urol 2002; 167:2560.
- 18. Beganović A, Klijn AJ, Dik P, De Jong TP. Ectopic ureterocele: long-term results of open surgical therapy in 54 patients. J Urol 2007; 178:251.