

ESCROTOQUISIS BILATERAL EN UN NEONATO, MALFORMACION EXTREMADAMENTE INFRECIENTE. PUBLICACION DEL PRIMER CASO EN LATINOAMERICA.

Alida Romero Orta (1), Manuel Martínez (2),
Zoila Parra (3), Nelson Orta Sibú (4)

Recibido: 15-03-2021
Aceptado: 20-05-2021

RESUMEN

La Escrotoquisis es una anomalía congénita extremadamente rara de la pared escrotal, de etiología desconocida; hay solo aproximadamente treinta casos publicadas, ninguno in extenso en Latinoamérica. Consiste en extrusión testicular fuera del saco escrotal, uni o bilateralmente. Se presenta el caso de neonato, obtenido por parto vaginal. Se evidenciaron ambos testículos exteriorizados a cada lado del rafe escrotal, envueltos en túnica vaginal y pendiendo del cordón espermático. Se realiza intervención quirúrgica encontrándose: testículos de coloración normal, envueltos en fibrina. Técnica quirúrgica: reconfección del tabique escrotal, introducción de testículos a bolsas escrotales, pexia y cierre de escroto en un plano. Evolución sin complicaciones postoperatorias y en controles ulteriores, con ecografía doppler testicular normal. Esta patología es congénita con alteración del desarrollo embriológico. El pronóstico es bueno si la resolución médico-quirúrgica es precoz y adecuada. A largo plazo se podría conocer eventual repercusión sobre la capacidad reproductiva.

Palabras clave: escrotoquisis, testículos extróxicos, escroto.

BILATERAL SCROTOSCHISIS IN A NEWBORN: EXTREMELY INFREQUENT MALFORMATION. REPORT OF THE FIRST CASE IN LATIN AMERICA.

SUMMARY

Scrotoschisis is an infrequent idiopathic anomaly of the scrotal wall; only thirty cases have been reported, none in Latin America. The testicle(s) is extruded out of the scrotum, uni or bilateral, through an opening in the scrotum wall. We report a case of bilateral scrotoschisis in a neonate product of a vaginal delivery. Examination showed testicles exteriorized through two holes located on each side of the raphe, both in the individual vaginal tunica, and pendant of its spermatic cord. Surgical intervention, with colocation of testes into de scrotum and pexia and closure of the scrotum in one layer was done. Favorable evolution and normal testicular doppler ultrasound in outpatient clinic. Information about scrotoschisis is limited, and it is inferred that is an alteration of the embryological developmental. Prognosis is excellent and reproductive capacity should be evaluated in the long-term basis.

Keywords: Scrotoschisis, extrophic testis, scrotum.

INTRODUCCIÓN

La escrotoquisis es una anomalía congénita extremadamente rara de la pared escrotal de etiología idiopática y prevalencia desconocida (1, 2). Hasta el presente han sido publicados en la literatura médica menos de 30 casos (3, 4) ninguno in extenso en Latinoamérica, de acuerdo a revisión de-

tallada realizada. Es una patología que se presenta más frecuentemente en recién nacidos a término y consiste en extrusión de uno o los dos testículos fuera del escroto, a través de una abertura en la pared anterior y/o lateral de este (1,3). No hay datos que permitan concluir sobre una etiología específica, pero las teorías planteadas incluyen: isquemia escrotal, mal desarrollo y funcionamiento gubernamental –gubernaculum testis- o anomalía mesodérmica local (1, 5,6).

Objetivo: presentar el caso de un recién nacido a término con escrotoquisis bilateral, atendido en el Hospital de Niños “Jorge Lizarraga” de Valencia, Venezuela, quien tuvo tratamiento médico quirúrgico, precoz y adecuado, y evolución satisfactoria.

DESCRIPCIÓN DEL CASO

Paciente PM. H No:133-3056. Recién nacido masculino, hijo de madre de 24 años de edad, I gesta, embarazo controlado; niega infecciones urinarias ni ginecológicas, con serología VDRL negativa, ecografías perinatales sin alteraciones. Neonato obtenido por parto eutócico simple a las 38 semanas

- (1) Médico Especialista en Pediatría. Ex residente del Hospital de Niños de Valencia. Venezuela. Actualmente Medico Nefróloga Pediatra. CEMESPE. Quito. Ecuador
- (2) Cirujano Pediatra. Ex adjunto del Hospital de Niños de Valencia. Ex Profesor Asistente, Departamento de Ciencias Morfológicas. Universidad de Carabobo. Valencia. Venezuela
- (3) Cirujano Pediatra. Ex Residente de Cirugía Pediátrica. Hospital de Niños de Valencia. Venezuela. Actualmente en Servicio de Pediatría Hospital de Berisso, La Plata y Hospital de San Fernando Petrona Cordero. Buenos Aires. Argentina
- (4) Profesor Titular de Pediatría y Nefrología. Universidad de Carabobo. Valencia, Venezuela. Profesor Visitante. Hospital Universitario Gandía. Valencia. España

Autor de correspondencia: Nelson Orta Sibú.
Correo electrónico: nelson.orta@gmail.com

de gestación. Apgar de 8 y 9 puntos a los 1 y 5 minutos, peso de nacimiento 2700 grs, talla de nacimiento 51 cms. Al examen físico inicial: frecuencia cardiaca: 141 latidos por minuto, frecuencia respiratoria: 36 respiraciones por minuto; piel sonrosada, llenado capilar 2 segundos, tórax simétrico normo expansible, ruidos respiratorios presentes sin agregados, ruidos cardiacos rítmicos sin soplos y sin galope, abdomen globoso, blando, depresible, sin visceromegalias patentes, cordón umbilical con sus 3 elementos vasculares; genitales externos: masculinos, con ambas bolsas escrotales vacías con defecto de la pared escrotal de 1.5×2 cm aproximadamente y el cordón espermático y testículos fuera de dichas bolsas, y recubiertos de tejido fibrinoide; ano permeable. Neurológicamente: reflejos propios presentes.

Análisis de laboratorio: Hematología completa, plaquetas, estudios de coagulación básicos, urea y creatinina, glicemia, electrolitos y examen de orina del paciente, dentro del rango normal, Rx de tórax AP y L normales. Fue evaluado detalladamente a nivel de testículos y escroto desde el punto de vista clínico y protegida la zona con compresas húmedas ligeramente tibias, y, antes de 48 horas de nacimiento fue intervenido quirúrgicamente bajo anestesia general, practicándose desbridamiento quirúrgico y exploración del defecto escrotal, evidenciándose la escrotoquisis de ambos testículos, extracorpóreos, libres y móviles, sin masas calcificadas y sin importantes residuos de meconio alrededor (Figs. 1 y 2). Se realizó orquidopexia y cierre de escroto en un solo plano vertical con sutura de polyglactin 910, sintética absorbible, manufacturada como Vicryl por Ethicon® (Fig. 3). Evolución favorable trans y postoperatoria inmediata y en el seguimiento a 1 y 2 meses. Se realizó ecografía doppler testicular a los 3 meses que mostró los dos testículo con apariencia normal y doppler vascular normal.

DISCUSIÓN

La escrotoquisis es una rara patología congénita de la pared escrotal con extrusión testicular que puede ser uni o bilateral (1-3) La información disponible y publicada en revistas médicas disponibles en las áreas de búsqueda bibliográfica habituales, muestran que esta patología es infrecuente, con menos de 30 casos publicados en la literatura (3-4) y no se encontró ningún caso publicado in extenso en Latinoamérica; solo un caso mencionado y presentado en un congreso regional, el cual citamos, por el hallazgo accidental, pero no se dispone de detalles específicos pertinentes ni las imágenes correspondientes (7). La etiología de la enfermedad es desconocida, sin embargo, se han planteado diversas hipótesis: fracaso de la diferenciación del mesénquima escrotal y la alteración produce ruptura o necrosis avascular de la superposición epitelial, lo cual conduce a defectos de la pared escrotal (2,3 8); otros informes refieren compresión mecánica externa, efecto debido a artrogriposis (9), así como casos en los cuales el meconio causa periorquitis y extrusión (10). En el caso mo-



Figura 1: Escrotoquisis bilateral en neonato. Post parto inmediato.



Figura 2. Escrotoquisis bilateral en neonato. Imagen pre quirurgica

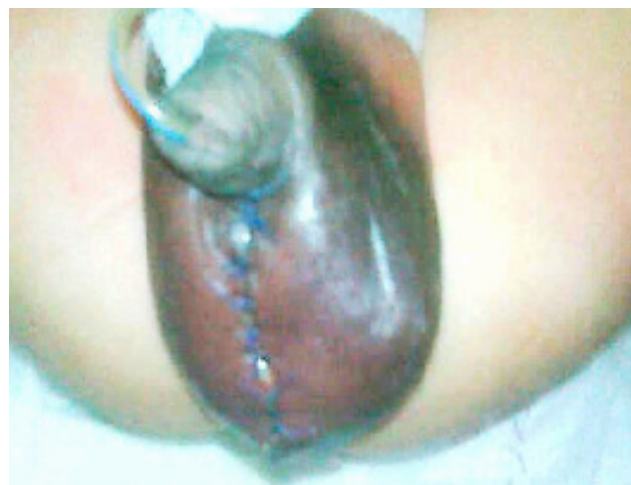


Figura 3: Post operatorio inmediato de Escrotoquisis bilateral en neonato.

tivo de esta presentación, no hay una causa obvia ya que no hubo ninguna evidencia de residuos de meconio significativos ni de otro elemento en el área. Es importante mencionar que durante el examen físico, es fundamental descartar torsión testicular, manejar adecuadamente la manipulación testicular y escrotal y utilizar apósitos estériles húmedos localmente, a temperatura adecuada para tratar de evitar desarrollo de orquitis o peritonitis, en caso de propagación del proceso vía conducto peritoneo vaginal (11, 12) El abordaje quirúrgico depende de la gravedad y, se ha propuesto utilizar un simple apósito, con reposición a la bolsa escrotal de los testículos y curación por segunda intención o el método quirúrgico convencional horizontal o verticalmente después de la orquidopexia (13,14).

En este caso, se hizo cierre vertical a ambos lados del escroto, con pexia testicular previa; el seguimiento no debe suspenderse hasta la verificación de dos testículos simétricos, vitales y normalmente en crecimiento por evaluación ecsonográfica de estructuras y doppler para valorar funcionalismo vascular adecuado. El pronóstico a largo plazo de la función hormonal y reproductiva de cada caso no ha sido reportado y el presente es un caso para eventual valoración a largo plazo

En conclusión, la escrotoquisis es una anomalía genital muy rara, de causa y prevalencia no definida. El defecto puede ser reparado con orquidopexia transescrotal convencional y tiene buen pronóstico. Se recomienda seguimiento para evitar complicaciones post operatorias y, a mediano plazo, evaluar aspectos vasculares y anatómicos y estudiar a largo plazo eventual efecto de escrotoquisis sobre la fertilidad.

Este caso se suma a los treinta casos reportados en la literatura mundial (15,16) y es el primer caso publicado completo en Latinoamérica

BIBLIOGRAFÍA.

1. Togami J, Radhakrishnan J. Testicular extrusion due to scrotoschisis. *Urology* 2002;60(6):1112.
2. Von der Leyer EU. Eine Seltene angeborene Fehl-Lagerung des Hodens. *Chirurg* 1963;34:521-2.
3. McLaughlin N, O'Connor E, Gopal M. Scrotoschisis: an extremely rare congenital anomaly. *Arch Dis Child Fetal Neonatal* 2021; 106: F109.
4. Sidibe S, Coulibaly M, Ghazwani S. Scrotoschisis: a case report. *J Med Case Rep* 2017;11(1):259
5. Mallick AA, Mukhopadhyay NN, Sinha AK. A rare case: testicular exstrophy or scrotoschisis? A report and discussion. *Pediatr Surg Int* 2014;31:209-11.
6. Haidar AM, Gharmool BM. Extracorporeal testicular ectopia through inguinal canal: a case report. *J Neonatal Surg* 2013(1):2-10.
7. Tamburri N, Lombardich L, Vega Perugorria J M, Pascual L. Escrotoquisis : una rara anomalía de fácil resolución. IX Cong Cirugía Ped. Cono Sur de América Nov 2011 Uruguay. Poster 89. (No disponible resumen ni imágenes en las Memorias del Congreso) http://atenea.com.uy/uploads/programas/012019/1547649298_PnJFfpnw.pdf
8. Farinyaro A, Mohammad A, Anyanwu L, Abdullahi L. Scrotoschisis: a rare congenital urologic anomaly. *Pediatr Urol Case Rep* 2015;2(2):17-21.
9. Lais A, Serventi P, Caione P, Ferro F. Arthrogryposis as a possible mechanism of scrotoschisis acquired in utero. *Pediatr Surg Int* 1994;9:605-6.
10. DeRoo SE, Lumpkins KM, El-Metwally DE. Scrotoschisis in a neonate with meconium peritonitis and periorchitis. *J Neonatal Perinatal Med.* 2016;9(1):107-12
11. Chun K, St-Vil D. Scrotoschisis associated with contralateral meconium periorchitis. *J Pediatr Surg* 1997;32:864-6.
12. Kojori F, DeMaria J. Scrotoschisis associated with meconium periorchitis. *J Pediatr Urol* 2007;3:415-6.
13. Gongaware RD, Sussman AM, Kraebber DM, Michigan S. Scrotoschisis as a mechanism for extracorporeal testicular ectopia. *J Pediatr Surg* 1991;26:1430-1
14. Jesus LE, Dekermacher S, Filho JA Rocha LJ. Scrotoschisis: An extremely rare congenital uropathy. *Uropathy* 2012;79:219-21.
15. Sibomana I, Muneza E, Karanwa V, Ntadanda I. Scrotoschisis J *Pediatric Surgery Case Reports* 2021 <https://doi.org/10.1016/j.epsc.2018.12.008> Consultado 1de marzo 2021
16. Waqas AS, Uzair A, Saad K. Bilateral scrotoschisis. *J Pediatric Surgery Case Reports* 2021. <https://doi.org/10.1016/j.epsc.2020.101776> Consultado 3 de marzo 2021