

UNIVERSIDAD MILITAR NUEVA GRANADA
FACULTAD DE MEDICINA
HOSPITAL MILITAR CENTRAL
TRABAJO DE GRADO
PROGRAMA DE CIRUGIA PEDIATRICA

SOBREVIDA Y RESULTADOS CLINICOS DE LOS PACIENTES NACIDOS EN BOGOTÁ ENTRE ENERO DE
2009 Y DICIEMBRE DE 2013 CON ATRESIA ESOFÁGICA

AUTORES

Lina Marcela López García
Residente IV año Cirugía Pediátrica
Universidad Militar Nueva Granada

Catalina Correa Mazuera
Residente III año Cirugía Pediátrica
Universidad Militar Nueva Granada

Luis Carlos Rincón La Rotta
Cirujano Pediatra
Hospital Militar Central

ASESOR TEMÁTICO

Ignacio Zarante
Médico Cirujano, Magister en Biología con énfasis en Genética
Instituto de Genética Humana
Pontificia Universidad Javeriana

Código del Anteproyecto 2014-023
Diciembre 2014

TABLA DE CONTENIDO

	Página
Lista de tablas y gráficos	3
Resumen estructurado	4
Introducción	6
Identificación y formulación del problema	7
Justificación	11
Objetivos e hipótesis	12
Metodología	13
Plan de análisis	18
Aspectos éticos	19
Resultados	20
Discusión	27
Conclusiones	31
Bibliografía	32
Anexos	34
Anexo 1. Consentimiento informado	34
Anexo 2. Formato de recolección de información CASOS	35
Anexo 2. Formato de recolección de información CONTROLES	38

LISTA DE TABLAS

	Página
Tabla de definición de variables	14
Tabla 1. Distribución de frecuencias de las características demográficas de los pacientes con atresia esofágica y la edad materna, HOMIC, 2009-2013	21
Tabla 2. Distribución de frecuencias de las características patológicas de los pacientes con atresia esofágica, HOMIC, 2009-2013	22
Tabla 3. Distribución de frecuencias del manejo y complicaciones de los pacientes con atresia esofágica, HOMIC, 2009-2013	23
Tabla 4. Estadígrafos y diferencia de medias de atresia esofágica según la edad materna, edad gestacional y el peso al nacer de los pacientes con atresia esofágica, HOMIC, 2009-2013	24
Tabla 5. Estadígrafos y diferencia de medias para la edad gestacional y el peso al nacer según la supervivencia de los pacientes con atresia esofágica, HOMIC, 2009-2013	24
Tabla 6. Distribución de frecuencias de complicaciones quirúrgicas y malformaciones asociadas según la supervivencia de los pacientes con atresia esofágica, HOMIC, 2009-2013	25

RESUMEN ESTRUCTURADO

SOBREVIDA Y RESULTADOS CLINICOS DE LOS PACIENTES NACIDOS EN BOGOTÁ ENTRE ENERO DE 2009 Y DICIEMBRE DE 2013 CON ATRESIA ESOFÁGICA

AUTORES

Lina Marcela López García. linamarcelalop@gmail.com
Catalina Correa Mazuera. catalina.correa11@gmail.com
Luis Carlos Rincón La Rotta. luisrincon@gmail.com

PROGRAMA

Cirugía Pediátrica

ASESOR TEMÁTICO

Ignacio Zarante. izarante@gmail.com

Objetivo: Determinar la sobrevida de los pacientes nacidos con atresia esofágica en Bogotá, además de los resultados clínicos de su tratamiento, comparando algunas variables con sus controles sanos.

Metodología: Se utilizó la base de datos del Programa de Vigilancia de Malformaciones Congénitas de la ciudad de Bogotá (BCMSP) para obtener los datos de pacientes nacidos con atresia esofágica entre enero de 2009 y diciembre de 2013. Se incluyeron en el estudio 22 pacientes. Se indagó sobre el estado de salud actual del caso, determinando si se encontraba vivo o fallecido. Se obtuvo información sobre la historia perinatal, tipo de atresia esofágica, cirugías realizadas, y presencia de síntomas respiratorios, gastrointestinales, y osteomusculares después de la cirugía y al año de vida, así como información de los controles a los que asistió con el cirujano pediatra. Un cuestionario similar, indagando sobre historia perinatal fue realizado a un grupo de 22 controles sanos.

Resultados

Edad promedio de 3,9 meses, con 1,2 niñas por cada niño del estudio. Más de la mitad de los pacientes no contaban con diagnóstico prenatal. Actualmente la mitad de los pacientes han sobrevivido. 59% de los pacientes presentaron algún tipo de fístula. El 50% tuvo la primera cirugía entre el primer o segundo día de vida. Más de la mitad presentaron alguna complicación. En la evaluación de síntomas persistentes 20% presentaron infecciones respiratorias, el reflujo gastroesofágico y la disfagia se presentaron en igual proporción de pacientes, y al año continuaban con estos síntomas. Entre los casos y controles se encontraron diferencias significativas entre la edad gestacional y el peso al nacer siendo menores para los casos.

Conclusión

La mitad de los pacientes con atresia de esófago nacidos en la ciudad de Bogotá entre 2009 y 2013, que fueron incluidos en el estudio, fallecieron. Se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre los casos y los controles en cuanto al peso al nacer y la edad gestacional, siendo menores para los pacientes con atresia esofágica, lo cual podría influir en los resultados del tratamiento y la mortalidad.

Palabras clave: atresia de esófago, resultados, sobrevida

INTRODUCCIÓN

Las malformaciones congénitas (MC) son causa importante de morbimortalidad infantil. Existen numerosos estudios que evalúan la mortalidad asociada a malformaciones congénitas, pero en Colombia pocos autores se han enfocado en la sobrevida y el seguimiento de los pacientes con malformaciones congénitas de manejo por el cirujano pediatra como es la atresia esofágica. Debido a la mejoría en acceso a los servicios de salud y los avances del cuidado neonatal, la supervivencia de los niños nacidos con atresia esofágica ha aumentado de 19% en 1956 a 97% en 2007. Lo anterior condiciona que los encargados de velar por la salud y el bienestar de estos pacientes tengan que enfrentar sus complicaciones inmediatas y su sintomatología crónica, la cual es diversa, pero afecta principalmente el aparato gastrointestinal, respiratorio y osteomuscular.

IDENTIFICACIÓN Y FORMULACIÓN DEL PROBLEMA

Epidemiología

La atresia esofágica es una enfermedad relativamente frecuente que afecta a 1 de cada 2840 recién nacidos (1). Hace 50 años esta patología era una condición fatal. No obstante, en los últimos años ha habido un aumento progresivo en la supervivencia de estos pacientes, debido principalmente al desarrollo tecnológico, avances en el cuidado neonatal, acceso a los servicios de salud y el trabajo de especialistas dedicados a esta patología. Desde el primer reporte de manejo quirúrgico exitoso de una atresia esofágica con fístula traqueoesofágica en 1943 por Haight y Towslet, la perfección en la técnica quirúrgica y el manejo en unidades de cuidado intensivo neonatal condujeron a un aumento en la supervivencia que asciende hasta el 97% en los últimos años (1).

Antecedentes Históricos

En los años 50 los determinantes de la mortalidad en pacientes con atresia esofágica eran la falta de unidades de cuidado intensivo pediátrico y de adecuadas técnicas de ventilación, el fracaso frecuente de la cirugía, las complicaciones postoperatorias incluyendo principalmente infecciones respiratorias, y algunas condiciones propias del paciente como la prematurez y la presencia de anomalías cromosómicas como la trisomía 18 y 21. Una vez superados los problemas relacionados con infección y ventilación mecánica, aunado al desarrollo de unidades de cuidado intensivo neonatal, se depuraron los factores de riesgo y para el año 2007 los reportes mostraron que la prematurez y las anomalías cromosómicas pasaron a ser la principal causa asociada a la mortalidad (2).

Dado que en la actualidad muchos pacientes sobreviven a la atresia de esófago en el periodo neonatal, los servicios de salud se ven enfrentados a realizar el seguimiento y manejo continuo de los síntomas persistentes que afectan principalmente el sistema respiratorio, gastrointestinal y osteomuscular, y generan impacto en morbilidad de estos pacientes a lo largo de la vida (2). Además, existe un importante componente psicosocial que afecta la calidad de vida de estos niños y que debe ser manejado por la familia y los médicos tratantes.

Morbilidad Gastrointestinal

La disfagia es uno de los síntomas más frecuentes del sistema gastrointestinal, alcanzando una incidencia variable del 10 al 60% (3). Se ha reportado que hasta un tercio de los adultos con antecedente de corrección de atresia esofágica tienen este síntoma, el cual puede variar desde disfagia leve, requiriendo la ingesta de líquidos para lograr el paso de alimentos, hasta la necesidad de endoscopia o cirugía por impactación de alimentos en el esófago. Aunque el reflujo gastroesofágico es común en la población general, también se ha asociado con una frecuencia hasta del 75% de los preadolescentes y adultos con antecedente de corrección de atresia esofágica (3). Este síntoma se genera por alteración en la propulsión esofágica, que altera su vaciamiento y genera que el vaciamiento esofágico ocurra únicamente por gravedad, no obstante la relajación adecuada del esfínter esofágico inferior.

La técnica quirúrgica empleada, la realización de múltiples intervenciones quirúrgicas y la presencia de una atresia esofágica de brecha amplia son determinantes importantes de la aparición de estenosis esofágica. Otra patología importante en el sistema gastrointestinal es la fístula traqueoesofágica persistente, la cual ocurre con mayor frecuencia entre los 2 y 18 meses, pero puede manifestarse en la vida adulta como síntomas respiratorios persistentes (3).

Los pacientes con antecedente de corrección de atresia esofágica pueden desarrollar en la edad adulta lesiones pre malignas como el esófago de Barrett. Esta patología se ha reportado con una frecuencia del 7%, y existen a nivel mundial seis casos de cáncer esofágico en pacientes con antecedente de atresia esofágica, tres de ellos adenocarcinoma y tres carcinoma de células escamosas en pacientes entre 20 y 46 años(2).

Morbilidad Respiratoria

Los síntomas respiratorios aparecen en el 33-41% de los pacientes con atresia esofágica y se manifiestan como tos persistente, aspiración, infecciones repetidas, sibilancias, o traqueo-broncomalacia severa dada por inestabilidad de las vías respiratorias y colapso de las mismas. El desarrollo de asma también se ha reportado en el 12 al 29% de los casos(4). Estos síntomas persistentes sin un tratamiento adecuado pueden llevar a largo plazo al desarrollo de bronquiectasias y enfermedad pulmonar crónica.

Morbilidad Osteomuscular

Las deformidades de la pared torácica tales como escoliosis y escápula alada son frecuentes en los pacientes sometidos a toracotomía para la corrección quirúrgica de la atresia esofágica. Se necesitan estudios que ayuden a determinar si las correcciones por toracoscopia disminuyen la frecuencia de estas alteraciones, aunque se ha visto que son más frecuentes en aquellos pacientes que tienen asociadas deformidades vertebrales. (3)

Resultados del tratamiento

El impacto del tratamiento de la atresia esofágica en la calidad de vida de los pacientes se ha intentado medir en diferentes estudios. Las largas hospitalizaciones, las re-operaciones, los síntomas persistentes, las anomalías asociadas y el retardo del desarrollo psicomotor y pondo-estatural parecen afectar la percepción de bienestar. En la experiencia del Hospital de Niños de la Universidad de Helsinki, donde se intentó medir la calidad de vida a partir de cuestionarios y diferentes paraclínicos, interrogando sobre la presencia de síntomas respiratorios y gastrointestinales de pacientes que habían sido sometidos a corrección quirúrgica por atresia esofágica, los pacientes informaron una disminución significativa de la percepción de salud en general y aumento del dolor corporal(2). Los casos incluidos en este estudio tuvieron, además, puntajes inferiores comparados con los controles en cuanto a la calidad de vida gastrointestinal y respiratoria. La edad y las anomalías asociadas fueron predictores de pobre calidad de vida gastrointestinal mientras que la traqueomalacia fue un predictor de pobre calidad de vida desde el punto de vista respiratorio.

Entre otros resultados importantes del estudio realizado en Helsinki, el reflujo gastroesofágico sintomático se produjo en el 34% y la disfagia en el 85% de los casos, y sólo en el 8% y 2% de los controles, respectivamente. La endoscopia y biopsia reveló hernia hiatal en 28% de los pacientes, esófago de Barrett en 11%, esofagitis en 8%, y estenosis de la anastomosis en 8% (2). Hubo tres casos en quienes se documentó un divertículo esofágico en el sitio de la anastomosis y fistula traqueo-esofágica recurrente. En ninguno de los pacientes se encontró displasia ni cáncer esofágico y lo encontrado en la endoscopia no se relacionó con los síntomas de disfagia o reflujo gastroesofágico relatados por los pacientes (2).

En cuanto a la parte respiratoria también hubo resultados interesantes ya que al ser comparados con los controles, los pacientes afectados tenían significativamente más síntomas al momento de la entrevista, infecciones respiratorias recurrentes, y asma; y su calidad de vida se encontraba afectada en relación con la morbilidad respiratoria (2). En las pruebas de función pulmonar el 78% de los casos presentaba alteraciones. La morbilidad del sistema osteomuscular mostró que estos pacientes tienen un riesgo 13 veces más alto de presentar escoliosis, la cual se relaciona con fusión costal inducida por la toracotomía y la presencia de otras malformaciones asociadas (2).

En otros estudios de seguimiento también se ha medido la persistencia de síntomas en estos pacientes a través del tiempo mediante evaluaciones a los 5 años, entre 5 y 10 años y más de 10 años. Dichos estudios han demostrado que hay mayor incidencia de los síntomas en los primeros 5 años de vida, y después de los 5 años los síntomas tienden a desaparecer o mejorar (5). El peso y la talla durante los primeros 5 años de vida se encuentra igualmente afectada, pues alrededor de la mitad de los casos se encuentran por debajo del percentil 25 de peso y talla para la edad, parámetro que tienden a cambiar con los años (5).

En un centro pediátrico de tercer nivel se hizo seguimiento de niños con atresia esofágica sin fístula traqueo-esofágica durante veinticuatro años, demostrando que la complicación tardía más frecuente es la estenosis de la anastomosis, y la complicación temprana más frecuente es la neumonía(6).Lo anterior es similar a lo reportado en la literatura mundial.Además, los resultados evidenciaron un diagnóstico prenatal en el 77% de los casos, y el acceso a la primera cirugía a una edad media de un día (6).

Se han realizado estudios en los que se han detectado factores de riesgo para una evolución complicada durante el primer año de vida y luego de éste. Para el primer año de vida los predictores de malos resultados son el embarazo gemelar, bajo peso al nacer, presencia de malformaciones asociadas, atresia esofágica de brecha amplia, fuga de la anastomosis, intubación preoperatoria o intubación por más de 5 días.Después del año de vida los predictores de una

evolución complicada fueron la imposibilidad de alimentarse por vía oral al final del primer mes y una estancia hospitalaria mayor de 30 días (7).

Existen múltiples escalas para medir la calidad de vida de pacientes tanto pediátricos como adultos, enfermos o sanos. Para el caso de la atresia esofágica escalas para medir la calidad de vida gastrointestinal y respiratoria también se han desarrollado, y estas han sido traducidas, resumidas y aplicadas globalmente (8,9). Cuestionarios dirigidos a pacientes pediátricos de diferentes edades y cuestionarios para los padres también han sido desarrollados con preguntas encaminadas a evaluar el funcionamiento físico, emocional, escolar y social de los pacientes. Un ejemplo de estos cuestionarios se encuentra en el trabajo de Varniet *al*, desarrollado en 1998 y aplicado en diferentes estudios de niños con enfermedades crónicas (10).

Se hace necesario entonces realizar un estudio de seguimiento para determinar la supervivencia, complicaciones como resultado de la enfermedad o su tratamiento, y el estado actual de los pacientes nacidos en Bogotá con atresia esofágica. Esto para contribuir a la generación de nuevo conocimiento y determinar si los desenlaces de nuestros pacientes son similares a los reportados en la literatura.

Pregunta de investigación:

Cuál es la sobrevida, los resultados de la cirugía y los síntomas persistentes que presentan los pacientes nacidos con atresia esofágica en Bogotá entre los años 2009 a 2013, registrados en la base de datos del Programa de Vigilancia de Malformaciones Congénitas de Bogotá (BCMSP)?

JUSTIFICACIÓN

Importancia de realizar el estudio

La investigación es importante porque, según la revisión bibliográfica realizada, no se cuenta en la ciudad con estudios que analicen la supervivencia, características demográficas, el acceso a la cirugía, las complicaciones derivadas tanto de la enfermedad como de su tratamiento y el estado actual de los pacientes con atresia esofágica.

Contribución de la investigación

Existe un vacío de conocimiento en Bogotá, en cuanto a los posibles desenlaces clínicos y sobrevida de los recién nacidos con atresia esofágica manejados en distintas entidades de la ciudad. Esta investigación contribuirá a llenar ese vacío de conocimiento.

Factibilidad de realizar el estudio

El estudio es factible y puede ser realizado dado que los investigadores tienen acceso a la base de datos del BCMSP, programa de la Secretaría de Salud de Bogotá y del Instituto de Genética Humana de la Universidad Javeriana. En dicha base de datos se encuentra registrada la información de casos y controles de recién nacidos con malformaciones congénitas, incluyendo datos de contacto de la madre, así como algunos datos relacionados con el embarazo y el recién nacido.

La información requerida para completar el estudio se obtendrá de la base de datos del BCMSP y mediante una encuesta telefónica desarrollada por los investigadores.

Beneficios específicos de la investigación

Los resultados de la investigación serán consignados en una publicación científica con fines académicos, y presentados en eventos académicos de nuestra especialidad, con el fin de compartir y difundir los resultados obtenidos.

Beneficiarios de los resultados

Los recién nacidos con atresia esofágica de la ciudad de Bogotá serán beneficiarios de los resultados, puesto que estos permitirán revisar y mejorar los protocolos de manejo de esta patología en diferentes instituciones de salud.

La comunidad médica internacional y los cirujanos pediatras de otras latitudes también serán beneficiarios del estudio una vez sea publicado, pues los resultados podrán ser comparados por nosotros y otros autores con lo reportado en la literatura mundial.

OBJETIVOS E HIPÓTESIS

a. Objetivo General

Determinar la sobrevivencia y resultados clínicos de los pacientes nacidos en Bogotá entre enero de 2009 y abril 2013 con atresia esofágica

b. Objetivos Específicos

- Determinar las características sociodemográficas de los pacientes nacidos en Bogotá entre enero de 2009 y diciembre de 2013 con atresia esofágica y compararlas con los controles sanos.
- Determinar las características perinatales de los casos y los controles.
- Comparar los antecedentes prenatales y estado pondero-estatural actual de los pacientes nacidos con atresia esofágica respecto a un control sano.
- Describir el porcentaje de pacientes que tuvieron acceso a cirugía en la etapa neonatal y la edad de la primera cirugía
- Determinar variedad anatómica de la atresia esofágica, y tipo de malformaciones asociadas que presentan los pacientes con atresia esofágica nacidos en Bogotá durante el periodo señalado.
- Determinar el promedio de cirugías requeridas para la corrección de la atresia esofágica.
- Describir si los pacientes tuvieron diagnóstico prenatal.
- Describir las principales complicaciones derivadas de las cirugías.
- Analizar la presencia y persistencia de síntomas gastrointestinales, respiratorios y del aparato osteomuscular.

c. Hipótesis

La supervivencia de los pacientes con atresia esofágica en Bogotá es superior al 90%, una tasa similar a la descrita en la literatura mundial. La mayoría de los pacientes presentan problemas funcionales especialmente en su tracto gastrointestinal, respiratorio o sistema osteomuscular.

METODOLOGÍA

a. Tipo y diseño general del estudio

El diseño del estudio es de casos y controles. Los casos serán los pacientes nacidos en Bogotá entre enero de 2009 y diciembre 2013 con atresia esofágica, registrados en la base de datos del Programa de Vigilancia de Malformaciones Congénitas de la ciudad de Bogotá (BCMSP). Los controles corresponden al siguiente recién nacido sano registrado en la misma base de datos.

b. Lugar donde se realizará la investigación

Hospital Militar Central e Instituto de Genética Humana de la Universidad Javeriana
Bogotá, Colombia

c. Población

La población blanco serán los recién nacidos vivos con atresia esofágica en Bogotá durante los años 2009 a 2013 y un control sano, incluidos en la base de datos del BCMSP.

La población accesible es aquella que cuente con datos de contacto que sean correctos.

La población elegible serán quienes respondan al llamado telefónico y acepten participar de la encuesta desarrollada por los autores.

d. Selección y tamaño de la muestra

La muestra corresponde a los niños nacidos con atresia esofágica en la ciudad de Bogotá y un control sano, registrados en la base de datos del BCMSP durante los años descritos. Serán seleccionados aquellos pacientes cuyos padres o cuidador acceda a contestar la encuesta de los investigadores.

e. Criterios de inclusión

Recién nacidos vivos con atresia esofágica en Bogotá durante los años 2009 a 2013, registrados en la base de datos del BCMSP.

Recién nacidos sanos registrados como controles en la base de datos del BCMSP

f. Criterios de exclusión

Pacientes que no puedan ser ubicados telefónicamente

Pacientes cuyos padres no accedan a responder la encuesta.

g. Definición de Variables

Variable	Definición Conceptual	Definición Operativa	Operatividad	Tipo de variable
Edad actual	Tiempo de vida desde el nacimiento medido en meses	Edad actual en meses cumplidos	Edad en meses	Discreta
Edad de Fallecimiento (meses)	Tiempo desde el nacimiento hasta la muerte medido en meses	Edad de la muerte medida en meses	Edad en meses	Discreta
Sexo	Propiedad por la que pueden clasificarse los organismos de acuerdo a sus funciones reproductivas	Sexo del paciente	Femenino, masculino, indeterminado	Nominal
Peso al nacer	Fuerza que ejerce el cuerpo de una persona sobre su punto de apoyo al nacer medido en kilogramos	Peso en kilogramos al nacer	Peso en kilogramos	Continua de razón
Edad gestacional	Tiempo en semanas de un recién nacido desde la fecha de última menstruación de su madre	Edad en semanas del recién nacido desde la fecha de última menstruación de su madre	Edad en semanas	Discreta
Peso actual	Fuerza que ejerce el cuerpo de una persona sobre su punto de apoyo medido en kilogramos	Peso en kilogramos del paciente	Peso en kilogramos	Continua de razón
Talla actual	Altura desde los pies hasta la cabeza de una persona medida en centímetros	Altura en centímetros del paciente	Altura en centímetros	Continua de razón
Variedad anatómica de la atresia esofágica	Tipo anatómico de atresia esofágica	Tipo anatómico de atresia esofágica presentada por el	1. Atresia del esófago sin fístula 2. Atresia con fístula	Nominal

	definida en la clasificación de Ladd modificada	paciente	proximal 3. Atresia con fístula distal 4. Atresia con fístula proximal y distal 5. Fístula sin atresia	
Malformaciones asociadas	Defecto estructural de la morfogénesis presente al nacimiento diferente de la atresia esofágica	Defecto estructural de la morfogénesis presente al nacimiento del paciente diferente de la atresia esofágica	1. Vertebrales 2. Cardiacas 3. Ano rectales 4. Extremidades 5. Renales 6. otras	Nominal
Edad de la primera cirugía para la corrección de atresia esofágica	Tiempo de vida desde el nacimiento medido en días hasta el momento de la primera cirugía	Tiempo de vida desde el nacimiento medido en días hasta el momento de la primera cirugía del paciente	Edad en días	Discreta
Numero de cirugías	Numero de cirugías requeridas para la corrección de la atresia esofágica	Numero de cirugías requeridas por el paciente para la corrección de la atresia esofágica	Número de cirugías	Discreta
Complicaciones derivadas de las cirugías	Desenlace desfavorable que agrava y alarga la evolución del postoperatorio	Desenlace desfavorable del paciente que agrava y alarga su evolución del postoperatorio	1. fuga de anastomosis 2. fístula traqueo-esofágica recurrente 3. estenosis de la anastomosis 4. infección del sitio operatorio 5. neumonía 6. traqueomalacia 7. muerte 8. otras	Nominal
Síntomas gastrointestinales antes del año de vida	Síntomas que afectan el sistema gastrointestinal que persisten durante el primer año de vida	Síntomas que afectan el sistema gastrointestinal del paciente y que persisten durante el primer año de vida	1. disfagia 2. impactación alimentaria 3. reflujo gastroesofágico 4. estenosis que requiere dilataciones 5. fístula traqueo esofágica persistente 6. necesidad de gastrostomía 7. otros	Nominal

Síntomas respiratorios antes del año de vida	Síntomas que afectan el sistema respiratorio que persisten durante el primer año de vida	Síntomas que afectan el sistema respiratorio del paciente y que persisten durante el primer año de vida	1.tos persistente 2. infecciones 3. respiratorias repetidas 4. sibilancias 5. otros	Nominal
Síntomas osteomusculares antes del año de vida	Síntomas que afectan el sistema osteomuscular que persisten durante el primer año de vida	Síntomas que afectan el sistema osteomuscular del paciente y que persisten durante el primer año de vida	1. deformidades de la pared torácica 2. escoliosis 3. otros	Nominal
Síntomas gastrointestinales después del año de vida	Síntomas que afectan el sistema gastrointestinal que persisten después del primer año de vida	Síntomas que afectan el sistema gastrointestinal del paciente que persisten después del primer año de vida	1. disfagia 2. impactación alimentaria 3. reflujo gastroesofágico 4. estenosis que requiere dilataciones 5. fístula traqueo esofágica persistente 6. necesidad de gastrostomía 7. otros	Nominal
Síntomas osteomusculares después del año de vida	Síntomas que afectan el sistema respiratorio que persisten después del primer año de vida	Síntomas que afectan el sistema respiratorio del paciente que persisten después del primer año de vida	1. deformidades de la pared torácica 2. escoliosis 3. otros	Nominal
Síntomas respiratorios después del año de vida	Síntomas que afectan el sistema osteomuscular que persisten durante el primer año de vida	Síntomas que afectan el sistema osteomuscular del paciente que persisten después del primer año de vida	1.tos persistente 2. infecciones 3. respiratorias repetidas 4. sibilancias 5. otros	Nominal
Edad materna	Tiempo de vida en años al momento del embarazo	Edad en años al momento en que la madre presenta el embarazo	Edad en años	Discreta
Diagnóstico prenatal	Conjunto de técnicas que logran	Las técnicas usadas a la madre que permiten	1.Si 2.No	Nominal

	determinar si el feto tiene atresia esofágica antes del nacimiento	determinar si el feto tiene atresia esofágica antes del nacimiento		
Patologías durante el embarazo	Enfermedades o condiciones que se presentan y afectan el curso del embarazo	Presencia de enfermedades o condiciones en la madre que afectan el curso del embarazo	1.Embarazo gemelar 2.Consumo de sustancias psicoactivas 3.Preeclampsia 4.Diabetes gestacional 5.Otras	Nominal

h. Mediciones e instrumentos a utilizar

La medición se hará través de una encuesta diseñada por los investigadores, que contiene las variables anotadas en la tabla de variables. El instrumento a utilizar es el formulario de recolección de datos que se encuentra como Anexo 2.

i. No es un estudio de intervención

j. Método de recolección de la información. Flujograma o Procesos.

1. La información de los nacimientos entre 2009 y 2013 será tomada de la base de datos del BCMSP.
2. Se depurará la información para obtener únicamente los recién nacidos con atresia esofágica y su control sano
3. Se organizará la información en una base de datos de Excel que contenga únicamente las variables de interés para el estudio actual.
4. Se tomarán los datos de contacto (nombre de la madre, teléfono) registrados en la base de datos del BCMSP para los casos y controles.
5. Se realizará llamada telefónica a todos los casos y controles.
6. Se solicitará consentimiento informado por parte de la persona quien contesta la llamada
7. Se aplicará la encuesta desarrollada por los investigadores.
8. Se tabularán los datos en la base de datos generada en Excel
9. Se realizará el análisis estadístico de los datos obtenidos

k. Estrategias para suprimir las amenazas a la validez de los resultados. Variables de confusión.

Los datos del nacimiento y de las patologías del embarazo, así como la edad materna serán tomados de la base de datos del BCMSP para sesgos de memoria. La encuesta será aplicada al cuidador que mayor tiempo pase con el paciente, definida como un tiempo mayor a 8 horas diarias, para lograr la información más exacta posible en cuanto a los síntomas actuales del paciente. Las personas encargadas de realizar la encuesta recibirán asesoría por parte de los investigadores para garantizar que la encuesta se aplique correctamente. Se desarrollará un protocolo de entrevista al cual se deberán ceñir estrictamente. El análisis de los datos será por un estadístico experto en el tema.

9. PLAN DE ANÁLISIS

Procesamiento de datos

Los datos se almacenaron en medios magnéticos, se tabularon y procesaron en Excel. Se utilizó el programa SPSS para el análisis estadístico de las diferentes variables.

Medidas de resumen y pruebas estadísticas

Se realizó primero un análisis univariado. Las variables de tipo cualitativo se presentaron a través de sus distribuciones absolutas y relativas. Las variables cuantitativas se analizaron según medidas de tendencia central como la media, y medidas de dispersión como la desviación estándar y el rango intercuartil.

Posterior a esto, se sometieron las variables a un análisis bivariado. Se analizó la distribución de las variables cuantitativas a través de la prueba *shapiro-wilk*, y según su distribución se establecieron diferencias entre estas de acuerdo a cada grupo de interés. Se utilizó *la Prueba T para diferencia de medias en muestras independientes* en los casos que se requería análisis con una prueba paramétrica; y la prueba *U Mann Withney* si el análisis era con una prueba no paramétrica.

Finalmente, se realizó otro análisis bivariado que incluía variables cualitativas las cuales se contrastaron según el estadístico de Fisher de acuerdo a la distribución absoluta por categoría.

ASPECTOS ÉTICOS

Los investigadores conocen las normas para investigación en seres humanos, se encuentran familiarizados con normas internacionales como el Reporte Belmont, el Código de Núremberg, y la Declaración de Helsinki.

Los investigadores conocen la Resolución 8430 para investigación en seres humanos en Colombia.

Clasificación de riesgo

De acuerdo a la resolución 8430, esta investigación se considera sin riesgo para los pacientes ya que no se realizará intervención. No obstante, se respetará la privacidad en la información de los pacientes.

Declaración de impacto ambiental

Este estudio no conlleva ningún impacto sobre el medio ambiente.

Declaración de pertinencia social

El estudio es pertinente a nivel social ya que la atresia esofágica es una malformación frecuente en recién nacidos, con alto índice de morbilidad a largo plazo.

Declaración sobre aporte a la educación

Este estudio aporta al conocimiento médico en general y del Servicio de Cirugía Pediátrica, y puede ser consultado en la institución. Además contribuye a la formación de futuros especialistas en Cirugía Pediátrica ya que están participando residentes en su elaboración.

Declaración de pertinencia institucional

El estudio es pertinente en la institución puesto que algunos pacientes pediátricos con antecedente de atresia esofágica son usuarios del Hospital Militar Central. Los resultados de este estudio permitirán conocer mejor las características demográficas así como aspectos clínicos y quirúrgicos de los pacientes con atresia esofágica.

El estudio requiere de consentimiento informado, que será obtenido de manera verbal previo a la aplicación de una encuesta telefónica (Anexo 1).

RESULTADOS

En la tabla 1 se describen las características demográficas de los pacientes con atresia de esófago, con una edad promedio de 3,9 meses estando entre 0 a 11 meses el 68% de la población y el 50% de la población se encuentra entre 1 a 4 meses. La proporción de sexos es similar y cercana al 50% con una razón de 1,2 niñas por cada niño del estudio.

El peso promedio al nacer fue de 2.183 gramos, donde el 50% de los niños del estudio estaban entre 1.583 a 2572 gramos ampliándose el límite superior a 2865 gramos y el inferior a 1500 gramos cuando se incluye el 68% de la población.

Más de la mitad de los pacientes no contaban con diagnóstico prenatal y solo a 7 de los 22 niños se les realizó este de manera antenatal.

La edad gestacional al nacimiento promedio de los pacientes fue de +/- 35 semanas, estando la mitad (50%) de los paciente entre 34 a 38 semanas, con límites que se amplían a 32 y 39 semanas cuando se incluye el 68% de la población (1 desviación estándar).

Actualmente la mitad de los pacientes han sobrevivido. El peso actual de los pacientes varía en un promedio de ≈11 kilogramos, estando el 50% de los pacientes entre 8 a 12 kilogramos y la talla varia de un promedio de ≈73cms a un límite inferior de ≈61 cms y uno superior de 85cms cuando se incluye el 68% de los niños.

La edad promedio de las madres fue de 25 años con un límites de 20 a 30 años cuando se incluye el 50% de las madres, los cuales se amplían de 18 a 32 años cuando se incluye 1 desviación estándar o el 68% de las madres del estudio. Dos madres tenían antecedente de exposición a alcohol y cigarrillo. Sin casos de exposición a otras sustancias psicoactivas. Entre los antecedentes familiares de malformaciones congénitas se identificaron dos pacientes uno con hermana con atresia de esófago y comunicación interventricular y otro con hermano que presentaba atresia de esófago exclusivamente.

Tabla 1. Distribución de frecuencias de las características demográficas de los pacientes con atresia esofágica y la edad materna, Bogotá D.C., 2009-2013

Variables	Categorías			
Edad niño	meses/RIC		3,86 +/- 7,26 (1-4)	
Sexo	Masculino	n,%	10	45,5
	Femenino	n,%	12	54,5
Peso al nacer	g/RIC		2183 +/- 681,25 (1583-2572)	
Diagnóstico prenatal	Si	n,%	31,8	7
	No	n,%	68,2	15
Edad gestacional	Semanas/RIC		35,36 +/-3,51 (34,25-38)	
Estado actual del niño	Muerto	n,%	11	50
	Vivo	n,%	11	50
Peso actual	kg/RIC		10,85+/- 3,74 (8-12)	
Talla actual	cm/RIC		73,11 +/-12,15 (63,5-85)	
Edad de la madre	años/RIC		25,41 +/-7,43 (20-29,5)	

La tabla 2 permite establecer que la presentación más común de atresia esofágica es con la fistula de tipo proximal donde $\approx 32\%$ de los pacientes la presentan, seguido por la asociación con fistula distal que tiene una proporción similar a los pacientes sin fistula. A un paciente no se le clasifico la fistula que tenía y 5 pacientes desconocían este dato, siendo clasificados de manera correcta $\approx 73\%$ de los pacientes. Del total de pacientes el 18,2% no curso con ningún tipo de fistula y el 59% de los pacientes presentaron algún tipo de fistula con una relación de 3,3 pacientes con fistula por cada paciente que no la presentó.

Respecto a la proporción de malformaciones asociadas se evidencia que la mitad de los pacientes presentaron alguna, y que de estas la más común fueron las cardiacas con una proporción de 36,4% del total de pacientes con malformación, seguido por ano-rectales con una proporción el 9%. Al 27,2% de los pacientes con malformación asociada no se le especifico el tipo de malformación y de igual proporción es el número de pacientes con malformación asociada sin dato acerca de esta.

Tabla 2. Distribución de frecuencias de las características patológicas de los pacientes con atresia esofágica, Bogotá D.C., 2009-2013

Variable	Categoría	n	%
Variedad anatómica de la atresia esofágica	Atresia con fístula distal	5	22,7
	Atresia con fístula proximal	7	31,8
	Atresia con fistula no especificada	1	4,5
	Sin fístula	4	18,2
	No dato	5	22,7
Malformaciones asociadas	Sí	11	50,0
	No	11	50,0
Tipo de malformación asociada	Cardiacas	4	18,2
	Anorectales	1	4,5
	Otras	3	13,6
	No aplica	14	63,6
Total		22	100,0

En la tabla 3 se evidencia que la edad en días para la realización de la primera cirugía no sigue una distribución normal debido a que al 50% de los pacientes la primera cirugía se le realiza entre el primer o segundo día de vida, pero el promedio de realización de la primera cirugía es a los 6 días, oscilando entre 1 a 19 días. El número promedio de cirugías fue de 1 para la gran mayoría (94,4%) y el total (100%) de los pacientes sometidos a corrección quirúrgica necesitaron de 1 a 2 cirugías.

Cinco pacientes del total no fueron sometidos a corrección quirúrgica completa por lo que el análisis de complicaciones se realizó en 17 pacientes, encontrando que más de la mitad presentaron alguna complicación. De los pacientes que presentaron complicaciones (10/17) la más común fue la neumonía presente en el 29,9% de los pacientes con alguna complicación, seguido por la estenosis de la anastomosis para el 23,5% de los pacientes. Del total de pacientes con complicaciones el 5,8% (1 paciente) falleció durante el posoperatorio siendo la proporción es del 4,5% para el total de pacientes del estudio, al 41,2% no se les estableció la complicación.

La mayoría de los pacientes no presentaron ningún síntoma respiratorio, solo una proporción menor al 20% presentaron infecciones respiratorias, los cuales persistieron hasta el año de edad. Respecto a los síntomas gastrointestinales más de la mitad de los pacientes no presentaron síntoma alguno. El reflujo gastroesofágico y la disfagia se presentaron en igual proporción de pacientes, y solo un paciente tuvo persistencia de estos síntomas al año de edad. El 35,3% de los pacientes no registraron datos en cuanto a los síntomas respiratorios y gastrointestinales al año de edad debido a que se encontraban fallecidos. Ninguno presentó síntomas osteomusculares.

Tabla 3. Distribución de frecuencias del manejo y complicaciones de los pacientes con atresia esofágica, Bogotá D.C., 2009-2013

Variables	Categorías			
Edad de realización de primera cirugía	días (RIC)		6,32+/-13,46 (1-2)	
Numero de cirugías	n (RIC)		1,06+/-0,23 (1-2)	
Complicaciones	Si	n/%	10	58,8
	No	n/%	7	41,2
Tipo de complicación	Estenosis de la anastomosis	n/%	4	23,5
	Neumonía	n/%	5	29,4
	Muerte	n/%	1	5,8
	No sabe	n/%	7	41,2
Síntomas Respiratorios	Infección	n/%	3	17,6
	Ninguno	n/%	14	82,4
Síntomas Respiratorios > 1 año	Si	n/%	3	17,6
	No	n/%	8	47,1
	Falleció	n/%	6	35,3
Síntomas Gastrointestinales	RGE	n/%	2	11,8
	Disfagia	n/%	1	5,9
	Estenosis que requiere dilatación	n/%	2	11,8
	Gastrostomía	n/%	1	5,9
	Ninguno	n/%	11	64,7
Síntomas Gastrointestinales > 1 año	Si	n/%	5	29,4
	No	n/%	6	35,3
	Falleció	n/%	6	35,3
Síntomas Osteomusculares	Ninguno	n/%	12	70,6
	Falleció	n/%	5	29,4
Total		n/%	22	100

Análisis bivariado (para establecer los factores de riesgo)

En el análisis bivariado, se encontraron diferencias estadísticamente significativas en la edad gestacional, siendo ésta menor en el grupo de atresia esofágica (3,59 IC95% 2,15-5,15 semanas). El peso al nacer fue menor en el grupo de atresia esofágica (748,63 IC95% 444,19 a 1053,08 gramos).

Tabla 4. Estadígrafos y diferencia de medias de atresia esofágica según la edad materna, edad gestacional y el peso al nacer de los pacientes con atresia esofágica, Bogotá D.C., 2009-2013

Atresia esofágica		X	S	Dif de medias	IC 95%		p
					Liminf	Limsup	
Edad materna (años)	Sí	25,41	7,436	2,045	-1,713	5,804	,278 +
	No	23,36	4,583				
Edad gestacional (semanas)	Sí	35,36	3,513	-3,591	-5,162	-2,020	,000 *
	No	38,95	,999				
Peso al nacer (g)	Sí	2183,18	681,253	-748,636	-1053,083	-444,190	,000 +
	No	2931,82	191,265				

*Mann Withney

+Prueba T para diferencia de medias en muestras independientes

En la tabla 5 se evidencia que para los pacientes sometidos a cirugía no se presentaron diferencias estadísticamente significativas entre los que sobrevivieron y los pacientes que fallecieron, se emplearon pruebas de acuerdo a si la distribución era asimétrica o no.

Tabla 5. Estadígrafos y diferencia de medias para la edad gestacional y el peso al nacer según la supervivencia de los pacientes con atresia esofágica, Bogotá D.C., 2009-2013

Variable	Supervivencia	x	s	Diferencia de medias	IC 95%		p
					Lim. Inf	Limsup	
Peso	Si	2182	626	-1,818	-	619,091	0,995*
	No	2184	764				
Edad	Si	35	3	-,364	-3,561	2,833	0,571**
	No	36	4				

* t de student

** U de Mann-Whitney

No hay diferencias estadísticamente significativas entre la presencia o no de malformaciones asociadas y la proporción de complicaciones en el posoperatorio de acuerdo a la supervivencia de los pacientes, se evidencia una mayor proporción de malformaciones asociadas en los pacientes que no sobreviven sin ser esta significativa.

Tabla 6. Distribución de frecuencias de complicaciones quirúrgicas y malformaciones asociadas según la supervivencia de los pacientes con atresia esofágica, Bogotá D.C., 2009-2013

Variable	Categoría	Supervivencia				p
		Si		No		
		n	%	n	%	
Malformación Asociada	Si	3	27,3%	8	72,7%	0,086*
	No	8	72,7%	3	27,3%	
Complicación POP	Si	6	54,5%	0	0,0%	0,1*
	No	5	45,5%	4	100,0%	

* Estadístico de Fisher

DISCUSION

La atresia de esófago es una malformación relativamente frecuente con una relación hombre mujer variable, en Europa hay reportes que muestran solo un ligero predominio en hombres, sin embargo en América del Norte esto puede variar según el tipo de atresia esofágica (15), para nuestro estudio la relación fue 1:1.2. En cuanto a los antecedentes maternos se ha encontrado un riesgo hasta tres veces mayor para tener un hijo con atresia de esófago en mujeres mayores de 40 años, un incremento del riesgo también se ha asociado al ser primigestante (11). En nuestra población la edad promedio fue 25 años siendo el 68% menores de 32 años, por lo que podemos decir que son madres jóvenes y en promedio han tenido 1.7 hijos. Hay algunas características maternas que se han descrito como probable causa de la malformación o factores pronóstico, en un estudio publicado en 2010 se encontró que el embarazo gemelar predice una evolución desfavorable durante el primer año de vida de los pacientes con esta enfermedad (7), lo cual no pudo analizarse en nuestro estudio ya que ningún embarazo fue gemelar. Entre otros antecedentes maternos analizados están el consumo de alcohol, cigarrillo y otras sustancias psicoactivas. De las pacientes estudiadas dos informaron consumir cigarrillo y alcohol, estos resultados pudieran no ser consistentes con la realidad ya que son las mismas madres quienes dan la información y podría existir un sesgo de memoria, aunque también se encuentra literatura que rechaza esta relación, como es el estudio de Oddsberga y cols donde no se encontró relación entre el consumo de cigarrillo y atresia de esófago (12). Otras características maternas analizadas en ese trabajo fueron la obesidad y el estado socioeconómico medido como madres que han tenido más de 12 o menos de 12 años de educación, sin identificar tampoco asociación con la presencia de atresia de esófago(12).

El diagnóstico prenatal de atresia esofágica tiene marcada importancia en cuanto a la posibilidad de remitir a estos pacientes para que nazcan en sitios donde existen los recursos y el equipo multidisciplinario necesarios para su manejo. En la literatura pueden encontrarse distintos datos en cuanto a la sensibilidad de la ecografía como diagnóstico prenatal, y se ha determinado que el valor predictivo positivo puede variar del 25-100% cuando se usan signos como ausencia de cámara gástrica y polihidramnios para determinar el diagnóstico de atresia esofágica. Un estudio reciente mostró un valor predictivo positivo para estos hallazgos ecográficos de un 67% y aquellos a quienes se les logró hacer el diagnóstico prenatal se relacionaron con atresia esofágica de brecha amplia y una mayor estancia hospitalaria(13). En nuestro estudio más de la mitad de los pacientes no contaban con diagnóstico prenatal. Existen dificultades para el diagnóstico ecográfico que podrían explicarse ya que la cámara gástrica produce moco y da la apariencia de una burbuja, o el líquido puede simplemente pasar al estómago a través de la fístula; la cantidad de líquido amniótico también puede ser normal o incrementarse sólo hasta el tercer trimestre. En un intento por mejorar la seguridad diagnóstica se ha propuesto la búsqueda de otros signos como la presencia de una bolsa esofágica superior, la cual también es más fácil de valorar en el tercer trimestre, sin embargo requiere experiencia y pericia del observador; y la adecuada continuidad esofágica en estudios con resonancia magnética, los cuales no han logrado tampoco buenos resultados(14).

Se han descrito casos en hermanos y padres afectados por la enfermedad, sin definir un patrón hereditario (15), nosotros encontramos dos pacientes (9%) con hermanos que también tenían atresia de esófago.

Según la clasificación de Gross el tipo de atresia de esófago más frecuente es el tipo C (fístula distal) con porcentajes mayores del 80%, siendo la atresia de esófago tipo B (fístula proximal) mucho menos frecuente (7). Nuestros datos indican que un 32% de los pacientes presentaron fístula proximal. No obstante, consideramos que este dato puede ser impreciso dado que la información respecto a la variedad de la atresia fue informada en la encuesta telefónica, y en muchos casos no se pudo determinar la clasificación precisa según los tipos descritos por Gross. Así, el 27% de los pacientes no pudo clasificarse en una de las variedades de Gross por desconocimiento del dato, pero con la información obtenida puede decirse que la mayoría de los pacientes tuvieron atresia con algún tipo de fístula, encontrando una relación 3,3 pacientes con fístula por cada paciente que no la tenía.

En cuanto al momento de la primera cirugía en nuestro análisis encontramos que no hay una distribución normal. Aunque la mayoría fueron operados al primero o segundo día de vida, hubo pacientes que sólo pudieron ser llevados a cirugía a los 19 días de vida, algunos nunca lograron ser operados, y otros de los operados inicialmente con gastrostomía y esofagostomía no lograron ser llevados a la corrección quirúrgica definitiva de la atresia de esófago puesto que fallecieron antes de ser operados. Un estudio retrospectivo estadounidense que midió los resultados clínicos de los recién nacidos con atresia de esófago y fístula traqueoesofágica mostró como los pacientes operados en las primeras 24 horas del nacimiento tenían mayor mortalidad intrahospitalaria que aquellos operados luego de las 24 horas (16). Los autores concluyen que la falta de estabilización del paciente y el adecuado estudio de la presencia de malformaciones asociadas puede ser la causa de estos resultados adversos, por lo que indican que la corrección de la atresia esofágica no debe considerarse una cirugía de urgencia (16).

Las complicaciones postoperatorias no solo se han asociado al tiempo de la cirugía, su causa puede ser de origen multifactorial incluyendo la técnica quirúrgica usada, el tipo de atresia esofágica, la experiencia del personal a cargo, la presencia de otras malformaciones, y el estado clínico previo del paciente. En nuestro estudio hubo 17 pacientes con corrección quirúrgica definitiva de la atresia de esófago. De estos 17, el 50 % presentaron alguna complicación, siendo las más frecuentes neumonía y estenosis de la anastomosis. Estas complicaciones se han descrito con frecuencia en la literatura científica. Un paciente de los 17 operados falleció en el postoperatorio inmediato, lo que corresponde a una mortalidad postoperatoria de 5.8%. Desafortunadamente, no contamos con información acerca de la causa de mortalidad de este paciente; pero es posible que estuviera relacionada con otras malformaciones asociadas.

Hay síntomas persistentes en el aparato gastrointestinal, respiratorio y osteomuscular que pueden afectar la calidad de vida de los pacientes sometidos a corrección quirúrgica de atresia de esófago, y estos suelen mejorar con el tiempo. En nuestro estudio encontramos la presencia de síntomas

respiratorios como infecciones en el 17.6% de los pacientes, y estos síntomas fueron persistentes luego del año de vida. En cuanto a los síntomas gastrointestinales el 35.3% presentaron síntomas el primer año de vida tales como disfagia, estenosis esofágica que requiere dilataciones, reflujo gastroesofágico, necesidad de gastrostomía y el 29% continuaba con estos síntomas luego de un año de vida. Para los síntomas osteomusculares ninguno de nuestros pacientes fue afectado, sin embargo se ha reportado la presencia de fusión costal y escoliosis como consecuencia de la toracotomía (2).

Otros estudios han intentado estimar cuales factores predicen peores resultados antes de un año y luego de un año de la cirugía, encontrando que para el primer año de vida los predictores de malos resultados son el embarazo gemelar, bajo peso al nacer, presencia de malformaciones asociadas, atresia esofágica de brecha amplia, fuga de la anastomosis, y la intubación preoperatoria o por más de 5 días. Después del año de vida la imposibilidad de alimentarse por vía oral al final del primer mes y una estancia hospitalaria mayor de 30 días fueron los predictores de una evolución complicada (7).

Se compararon además los datos de peso y talla actual con las tablas de crecimiento y desarrollo de la OMS encontrándose el 36% de pacientes con talla inferior al percentil 3 y 27% con peso inferiores al percentil 3 (17).

Al analizar la mortalidad encontramos que el 50% de los pacientes estudiados habían muerto, lo cual es muy distante de lo reportado en la literatura mundial, en la que se ha informado durante los últimos años un aumento de la supervivencia por encima del 90% a medida que se han mejorado el acceso a los servicios de salud, los recursos disponibles para la cirugía, así como el perfeccionamiento de las técnicas quirúrgicas. Hace algunas décadas se consideraba que la mortalidad se debía a la falta de unidades de cuidado intensivo pediátrico y de adecuadas técnicas de ventilación, al fracaso frecuente de la cirugía, infecciones respiratorias, prematuridad y la presencia de anomalías cromosómicas como la trisomía 18 y 21. Recientemente se ha logrado perfeccionar la atención de estos pacientes quedando la prematuridad, el bajo peso al nacer y las anomalías cromosómicas como los principales determinantes de la mortalidad (2). Al comparar nuestros casos con los controles en cuanto a variables como el peso al nacer, la edad gestacional y la edad materna encontramos que el peso al nacer y la edad gestacional tuvieron diferencias significativas en ambos grupos siendo menores para los pacientes con atresia esofágica. El promedio de edad gestacional en los casos de atresia esofágica fue de 35 semanas, y estos pacientes fueron en promedio 3 semanas menores que los pacientes sanos, con un intervalo de confianza entre 2-5 semanas, siendo esta diferencia estadísticamente significativa. La diferencia en peso y edad gestacional, que ubica a los pacientes con atresia de esófago en el rango de prematuridad y bajo peso al nacer, pudo influir negativamente en la supervivencia de estos pacientes y estar relacionada con la alta cifra de mortalidad que encontramos. La edad materna, por otro lado, no tuvo diferencias significativas en los grupos estudiados.

La presencia de las características antes descritas han sido analizadas en otros trabajos como factor pronóstico de pobres resultados del manejo de niños con atresia de esófago, incluso

algunas han sido incluidas en clasificaciones pronósticas como Waterston y Spitz (18-19), donde se tiene en cuenta además la presencia de anomalías congénitas asociadas. En nuestro estudio se compararon estos factores pronósticos entre los pacientes operados que sobrevivieron y los que murieron, sin identificar diferencias estadísticamente significativas entre el peso al nacer, la edad gestacional, la presencia de complicaciones postoperatorias y las anomalías asociadas para los pacientes vivos y fallecidos que se operaron de atresia esofágica. Aunque los pacientes fallecidos tuvieron una mayor frecuencia de malformaciones asociadas, la diferencia entre los grupos tampoco fue estadísticamente significativa.

Debemos reconocer que nuestro estudio tiene limitaciones puesto que se trata de un estudio retrospectivo, con una muestra pequeña de pacientes, y algunos datos fueron obtenidos a partir de encuestas telefónicas. Sin embargo, los datos de edad gestacional, peso al nacer, y anomalías asociadas fueron confrontados con aquellos obtenidos de la base de datos del BCMSP, que los hace más confiables puesto que estos han sido recolectados al momento del nacimiento por personal entrenado en el programa de vigilancia de malformaciones congénitas en Bogotá.

No obstante las limitaciones descritas, los resultados de este estudio son preocupantes. La mortalidad del 50% de los pacientes nacidos en Bogotá con atresia de esófago entre 2009 y 2013 es casi veinte veces mayor a lo reportado en la literatura científica, donde fallecen alrededor del 3% de los pacientes. La prematurez y el bajo peso pueden estar relacionadas con una mayor mortalidad, pero no encontramos diferencias estadísticamente significativas en la presencia de malformaciones asociadas, que se han descrito previamente como factores que influyen en este desenlace. La mortalidad hallada en este estudio podría estar en relación con el acceso a los servicios de salud o ser consecuencia de la atención inadecuada de esta patología. Estos resultados encienden una alarma y evidencian la necesidad de diseñar nuevos estudios prospectivos orientados a identificar factores determinantes de mortalidad en nuestra ciudad. Como cirujanos pediatras y miembros de la comunidad científica, nos vemos llamados a prestar atención a los resultados obtenidos y a identificar las causas de alta mortalidad como consecuencia de la atresia de esófago en nuestro medio.

CONCLUSIONES

El diagnóstico prenatal para pacientes con atresia de esófago requiere la búsqueda de signos más sensibles y específicos ya que más de la mitad de los pacientes no fueron diagnosticados.

La mayoría de los pacientes evaluados con atresia esofágica fueron operados entre el primer y segundo día de vida; requiriendo entre uno y dos procedimientos quirúrgicos para la corrección completa de su malformación.

Los pacientes que presentaban síntomas gastrointestinales o respiratorios después de la cirugía continuaban presentándolos luego del año de vida.

Hasta un tercio de los niños evaluados con atresia esofágica se encuentran actualmente por debajo del percentil 3 en los patrones de peso y talla para la edad desarrollados por la OMS.

La mitad de los pacientes con atresia de esófago nacidos en la ciudad de Bogotá entre 2009 y 2013, que fueron incluidos en el estudio, fallecieron. Se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre los casos y los controles en cuanto al peso al nacer y la edad gestacional, siendo menores para los pacientes con atresia esofágica, lo cual podría influir en los resultados del tratamiento y la mortalidad.

No se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre los pacientes operados que sobrevivieron y los que murieron en cuanto al peso al nacer, edad gestacional, presencia de complicaciones postoperatorias y anomalías congénitas asociadas.

Se necesitan estudios prospectivos y de seguimiento con el fin de identificar factores determinantes de mortalidad en nuestra ciudad, para poder diseñar estrategias de diagnóstico y tratamiento encaminadas a mejorar el desenlace actual de estos pacientes.

BIBLIOGRAFÍA

- 1 Goyal A, Jones MO, Couriel JM et al (2006) Oesophageal atresia and tracheoesophageal fistula Review Arch Dis Child Fetal Neonatal 91(5):F381-4
- 2 Sistonen SJ, Pakarinen MP, Rintala RJ (2011) Long-term results of esophageal atresia: Helsinki experience and review of literature. Pediatr Surg Int 27(11):1141-9
- 3 Rintala RJ, Sistonen S, Pakarinen MP (2011) Outcome of esophageal atresia beyond childhood J Pediatr Gastroenterol Nutr 1:35-6
- 4 Malmström K, Lohi J, Lindahl H, Pelkonen A, Kajosaari M, Sarna S, et al (2008) Longitudinal follow-up of bronchial inflammation, respiratory symptoms, and pulmonary function in adolescents after repair of esophageal atresia with tracheoesophageal fistula. J Pediatr 153(3):396-401
- 5 Little DC, Rescorla FJ, Grosfeld JL, West KW, Scherer LR, Engum SA (2003) Long term analysis of children with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. J Pediatr Surg 38(6):852-6
- 6 Holland AJ, Ron O, Pierro A, Drake D, Curry JI, Kiely EM, Spitz L.(2009) Surgical outcomes of esophageal atresia without fistula for 24 years at a single institution. J Pediatr Surg 44(10):1928-32
- 7 Castilloux J, Noble A, Faure CH (2010) Risk factors for short- and long- term morbidity in children with esophageal atresia. J Pediatr 156(5):755-60
- 8 Quintana JM, Cabriada J, López de Tejada I, Varona M, Oribe V, Barrios B, et al (2001) Translation and validation of the Gastrointestinal Quality of Life Index (GIQLI). Rev Esp Enferm Dig 93(11):693-706
- 9 Juniper EF, Guyatt GH, Cox FM, Ferrie PJ, King DR (1999) Development and validation of the Mini Asthma Quality of Life Questionnaire. Eur Respir J 14(1):32-8.
- 10 Varni JW, Limbers CA, Neighbors K, Schulz K, Lieu JE, Heffer RW (2011) The PedsQL™ Infant Scales: feasibility, internal consistency reliability, and validity in healthy and ill infants. Qual Life Res 20(1):45-55
- 11 Coran A. Pediatric Surgery. 7th Edition. Elsevier (2012). Chapter 69. Congenital anomalies of the esophagus.
- 12 Oddsberg J, Jiaa C, Nilsson E, Yed W, Lagergren J. (2008) Maternal tobacco smoking, obesity, and low socioeconomic status during early pregnancy in the etiology of esophageal atresia. J Pediatr Surg 43, 1791-1795

13 Kunisaki SM, Bruch SW, Hirschl RB, Mychaliska GB, Treadwell MC, Coran AG. The diagnosis of fetal esophageal atresia and its implications on perinatal outcome. (2014) *Pediatr Surg Int* 30(10):971–977

14 Houfflin-Debauge V, Bigot J (2011) Ultrasound and MRI prenatal diagnosis of esophageal atresia: effect on management. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 52(Suppl 1):S9–S11

15 Depaeppe A, Dolk H, Lechat MF (1993) The epidemiology of tracheo-oesophageal fistula and oesophageal atresia in Europe. *Arch Dis Child* 68(6):743-748.

16 Wang B, Tashiro J, Allan BJ, Sola JE, Parikh PP, Hogan AR, et al. (2014) A nationwide analysis of clinical outcomes among newborns with esophageal atresia and tracheoesophageal fistulas in the United States. *J Surg Res*. 190(2):604-12.

17 Patrones de crecimiento infantil. Organización mundial de la salud. (2014) disponible en página web <http://www.who.int/childgrowth/standards/es/>

18 Waterston DJ, Carter RE, Aberdeen E. (1962) Oesophageal atresia: tracheo-oesophageal fistula. A study of survival in 218 infants. *Lancet* 1(7234):819-22.

19 Spitz L, Kiely EM, Morecroft JA, Drake DP. (1994) Oesophageal atresia: at-risk groups for the 1990s. *J Pediatr Surg* 29 (6):723-5.

ANEXO 1. CONSENTIMIENTO INFORMADO

El consentimiento informado se solicita al inicio de la encuesta telefónica realizada a la madre o al cuidador del niño con atresia esofágica. La persona debe manifestar claramente si otorga su consentimiento para continuar con las preguntas de la encuesta.

Usted está siendo invitada a participar de esa investigación que tiene por objetivo determinar la sobrevida de los pacientes nacidos con atresia esofágica en Bogotá y conocer los resultados clínicos de su tratamiento.

Para tal fin, es necesario tomar algunos datos de usted, del niño, de los procedimientos quirúrgicos que se le han realizado, y otra información acerca del estado de salud actual del niño.

Esta investigación podrá beneficiar a muchas personas porque permitirá conocerla sobrevida y los resultados de la cirugía que se realiza en niños con atresia de esófago, la frecuencia con que estos niños tienen síntomas que afectan su calidad de vida, y permitirá generar conocimiento para tomar medidas que conduzcan a mejorar la atención de estos pacientes.

Así, si usted quiere colaborar con este estudio, por favor indique si desea participar diciendo SI o NO.

	Otro	5	
	Ninguno	6	
	Sin información	99	
<i>Si respondió otro especificar:</i>			
3. El niño se encuentra vivo actualmente? <i>En caso de responder Si pasar a la pregunta 5</i>	Si No Sin información	1 2 99	
4. Fecha de fallecimiento del niño (a) (dd/mm/aaaa): <i>Pasar a la sección B , pregunta 9</i>			
5. Usted es cuidador (a) del niño?	Si No Sin información	1 2 99	
6. ¿Usted cuántas horas al día pasa con él?	(hh/mm) _____ : _____		
B. DATOS GENERALES DEL PACIENTE			
A continuación voy a realizarle algunas preguntas acerca del estado de salud del niño actualmente y de los procedimientos que se le realizaron.	7.Cuál es la talla actual (Centímetros) _____	8.Cuál es el Peso actual (Kilogramos) _____	
	No sabe ____	No sabe ____	
9. Conoce usted la Variedad de la atresia esofágica que tiene el niño? Puede ser una de las siguientes:	Atresia del esófago sin fístula Atresia con fístula proximal Atresia con fístula distal Atresia con fístula proximal y distal Fístula sin atresia No sabe	1 2 3 4 5 9	<i>Si lo considera necesario por favor especifique</i>
<i>Especifique:</i>			
10. Además de la atresia de esófago, el niño tiene alguna otra malformación asociada?	Si No	12	<i>Si respondió si favor especifique</i>
<i>Especifique:</i>			
11. A qué edad fue la primera cirugía para la corrección de la atresia esofágica?	<i>Escriba la edad en días</i>	No sabe	
12. En total, cuántas cirugías se necesitaron para la corrección definitiva de la atresia de esófago?		No sabe	
13. Cuántos días estuvo hospitalizado el niño hasta que lo operaron de la atresia de esófago?		No sabe	
14. El niño(a) presentó neumonía antes de la primera cirugía	Si No	1 2	No sabe

15. El niño presentó alguna complicación después de la cirugía? <i>Si responde NO, pase a la pregunta 17</i>	Si No	1 2	No sabe
16. Qué complicaciones derivadas de las cirugías tuvo el niño(a)?:	Fuga de la anastomosis Fístula traqueo esofágica recurrente Estenosis de la anastomosis Infección del sitio operatorio Neumonía Traqueo malacia Muerte Otras	1 2 3 4 5 6 7 8	<i>Puede marcar más de una opción. Si marco otra o si lo considera necesario por favor especifique</i>
<i>Especifique:</i>			
17. El niño presentó alguno de estos SÍNTOMAS RESPIRATORIOS después de la cirugía?	Tos persistente Infecciones respiratorias repetidas Le silba el pecho Otros	1 2 3 4	<i>Si marcó otro favor especifique</i>
<i>Especifique:</i>			
18. Los síntomas respiratorios persistieron por más del año de vida ?	Si No Es menor de 1 año, no aplica	1 2 99	
19. El niño presentó alguno de estos SÍNTOMAS GASTROINTESTINALES después de la cirugía?	Dificultad para comer (disfagia) Impactación de alimentos en esófago Reflujo gastroesofágico Estenosis que requirió dilataciones Fístula traqueo esofágica persistente Necesitó de gastrostomía Otros	1 2 3 4 5 6 7	<i>Si marcó otros favor especifique</i>
20. Los síntomas gastrointestinales persistieron por más del año de vida?	Si No Es menor de 1 año, no aplica	1 2 99	
21. El niño presentó alguno de estos SÍNTOMAS OSTEOMUSCULARES después de la cirugía?	Deformidades de la pared torácica escoliosis otros	1 2	
22. Los síntomas osteomusculares persistieron por más del año de vida?	Si No Es menor de 1 año, no aplica	1 2 99	
Hemos finalizado la encuesta, agradezco su amable colaboración. Que tenga un buen día.			
PROFESIONAL QUE REALIZA LA ENCUESTA TELEFÓNICO			
Nombre: _____			
Firma: _____			
CC. _____			

	Ninguno Sin información	6 99
Si respondió otro especificar:		
3. El niño se encuentra vivo actualmente? <i>En caso de responder Si pasar a la pregunta 5</i>	Si No Sin información	1 2 99
4. Fecha de fallecimiento del niño (a) (dd/mm/aaaa): <i>Pasar a la sección C , pregunta 9</i>		
5. Usted es cuidador (a) del niño?	Si No Sin información	1 2 99
6. ¿Usted cuántas horas al día pasa con él?	(hh/mm) _____ : _____	
B. DATOS GENERALES DEL PACIENTE		
A continuación voy a realizarle algunas preguntas acerca del estado de salud del niño	7.Cuál es la talla actual (Centímetros) _____ No sabe ____	8.Cuál es el Peso actual (Kilogramos) _____ No sabe ____
Hemos finalizado la encuesta, agradezco su amable colaboración. Que tenga un buen día.		
PROFESIONAL QUE REALIZA LA ENCUESTA TELEFÓNICO		
Nombre: _____		
Firma: _____		
CC. _____		