

Heterotopický pankreas, ileokolická invaginace v kojeneckém věku

MUDr. Michal Huml¹, doc. MUDr. Josef Sýkora, Ph.D.¹, doc. MUDr. Jiří Kobr, Ph.D.¹,

MUDr. Kateřina Pizingerová, Ph.D.¹, MUDr. Jindřich Šebor², MUDr. Václav Skála³, MUDr. Šárka Hadravská⁴

¹Dětská klinika FN Plzeň, LF v Plzni, Univerzita Karlova v Praze

²Chirurgická klinika FN Plzeň, LF v Plzni, Univerzita Karlova v Praze

³Radiodiagnostická klinika FN Plzeň, LF v Plzni, Univerzita Karlova v Praze

⁴Šiklův patologicko-anatomický ústav, LF v Plzni, Univerzita Karlova v Praze

Autoři popisují vzácný případ ileokolické invaginace, kdy vedoucím bodem invaginace byl izolovaný heterotopický pankreas.

Klíčová slova: invaginace, heterotopický pankreas, kojenec.

Heterotopical pancreas, ileocolic intussusception in infancy

The authors describe an extraordinary case of ileocolic intussusception with isolated heterotopic pancreas as a leading point.

Key words: intussusception, heterotopic pancreas, infant.

Pediatr. pro Praxi 2009; 10(3): 191–192

Úvod

Invaginace (intususcepce) je onemocnění, které patří mezi závažné náhlé příhody břišní v kojeneckém a batolecím věku. Jedná se o stav, kdy se část střeva teleskopicky zasune do sousedícího úseku střeva, častěji po směru peristaltiky do aborálního úseku. Příčina invaginace zůstává v 90 % případů neodhalena. Jen u 2–10 % pacientů je nalezen vedoucí bod invaginace (4). Existuje řada patologických lézí vedoucích k invaginaci. Nejčastěji se vyskytuje Meckelův divertikl (48 %). Mezi další příčiny patří střevní polypy, cysty, lipom, lymfom střevní lymfatické tkáně nebo Hensch-Schönleinova purpura. Dle závěrů retrospektivních studií jen zcela výjimečně je příčinou heterotopický pankreas (HP). Na souboru 292 pacientů s invaginací byl vedoucí bod zjištěn jen v 27 případech (9,2 %), ani jedenkrát případ HP (13). Také Ong a Beasley hodnotili skupinu 630 případů invaginace. Vedoucí bod byl nalezen u 8,8 % případů. Ani v jednom případě nebyl zjištěn případ HP jako příčina invaginace (12). Podrobnou analýzou symptomů HP ze skupiny 32 jedinců s histologicky potvrzeným HP Pang et al. prokázali, že pouze 4 případy se projeví invaginací, z nichž 2 × byl nalezen v Meckelově divertiklu, 1 × v cystické duplikatuře a pouze u jednoho byl nalezen izolovaný HP v ileu (14).

Popis případu

V listopadu 2007 byl na ambulanci Dětské kliniky FN Plzeň vyšetřen 5,5měsíční kojenec s anamnézou 2 dní trvajících bolestí břicha, subfebrilií a intermitentního zvracení.

Chlapec se narodil z 1. fyziologické gravidity v 39. týdnu s porodní hmotností 3 600 g, délkou 51 cm a nekomplikovanou poporodní adaptací. Kojen byl pouze první 4 týdny života a následně převeden na hypoalergenní mléčnou formuli. Pacient do té doby vážněji nestonal, byl řádně očkován (BCG, Infanrix Hexa 3 dávky), na váze velmi prospíval a dobře se psychomotoricky vyvíjel. Neužíval žádnou trvalou medikaci.

Pacient byl nejprve vyšetřen praktickým pediatrem. Jeho stav byl hodnocen jako akutní gastritida (subfebrilie, zvracení žaludečního obsahu bez patologické příměsi, bez známek náhlé příhody břišní, stolice normální konzistence). Epidemiologická anamnéza byla nevýznamná. Úvodních 36 hodin postupně docházelo k horšení klinického stavu, bolesti břicha se stávaly intenzivnější a prohloubila se apatie. Při trvání symptomů téměř 48 hodin a stupňujících se kolikovitých bolestí břicha byl pacient vyšetřen chirurgem, který vyslovil podezření na invaginaci.

Při přijetí na Dětskou kliniku FN Plzeň a LF UK byl chlapec subfebrilní, při plném vědomí, adekvátně reagující, růžový, oběhově i ventilačně stabilní a hraničně hydratován. Břicho bylo nápadně vzdušné, jen obtížně prohmatné, bolestivé při palpaci a peristaltické zvuky byly vymizelé. Z konečníku odcházel tmavě hnědý hlen s příměsí krve charakteru „malinového želé“.

Vstupní laboratorní hodnoty: V krevním obraze dominovala leukocytóza (22 tisíc/mm³) s posunem doleva, normální hodnotou hemoglobinu (111 g/l). C-reaktivní protein byl středně zvýšen (45 mg/l) při normálním vnitřním prostředí včetně

osmolarity séra, normálními hodnotami jaterních transamináz, močoviny a kreatininu. V moči byla výrazná ketonurie s normálním nálezem v močovém sedimentu. Mikrobiologické a virologické vyšetření stolice bylo negativní.

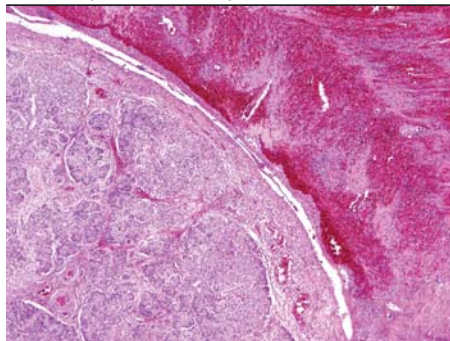
Ultrasonografické vyšetření břicha prokázalo invaginaci v ileocekální oblasti. Nativní rtg obraz břicha potvrdil překážku ileocekálně a rozvinutý ileózní stav tenkých kliček. Hydrostatická desinvaginace v celkové anestezii pod skiaskopickou kontrolou se nezdařila. Ze střední laparotomie byla provedena manuální desinvaginace. Intususcepce byla nalezena 15 cm aborálně od přechodu céka a ilea. Jelikož střevní stěna byla nekrotická a na jednom místě došlo k drobné perforaci, byla postižená část tenkého střeva resekována v délce 15 cm a vytvořena ileoascendentoanastomóza. Makroskopicky resekát (obrázek 1) obsahoval polypózní útvar, který byl velmi pravděpodobně vedoucím bodem v rozvoji invaginace. Polyp následně histopatolog ve-

Obrázek 1. Makroskopický resekát nekrotického úseku střeva se zachyceným polypózním útvarem (viz šipka)



rifikoval jako nodule heterotopické pankreatické tkáně s Langerhansovými ostrůvky situovaný v submukóze a v zevní svalovině (obrázek 2). V pooperačním období byl pacient zajištěn antibiotiky (penicilin, gentamycin, metronidazol). Průběh pooperačního období byl nekomplikovaný a 13. pooperační den mohl být propuštěn do domácí péče. Chlapec je v celkově dobrém stavu již 12 měsíců po výkonu.

Obrázek 2. Histologický preparát zachycuje výrazně prokrvácenou lamina muscularis propria vpravo nahoře obklopenou ektopickou pankreatickou tkání v levé dolní části obrázku (barveno – Hematoxylin and eosin, zvětšeno 40×).



Diskuze

HP je definován jako struktura, která nemá anatomickou a vaskulární spojitost s normálně uloženým pankreatem. HP pravděpodobně vzniká oddělením od ventrálního nebo dorzálního pankreatického pupenu v době jejich embryonální rotace (10). Histologicky jsou rozlišovány 3 typy HP. Může se jednat o tkáň identickou s normálním pankreatem, což byl i případ našeho pacienta, který je označován jako typ I. Nejčastěji vyskytující se je typ II, kdy zůstává zachovalé stroma pankreatu, ale Langerhansovy ostrůvky chybí. U třetího nejvzácnějšího typu HP – typ III jsou přítomny jen pankreatické vývody (9).

HP není zcela neobvyklým nálezem. Při břišních operacích je nacházen jako vedlejší nález s frekvencí 1:500 ponejvíce v horní části trávicího traktu – žaludek, duodenum, jejunum (3). V našem případě byl HP nalezen v ileu, což je dle literatury vzácná lokalizace. HP se vyskytuje až u 15 % všech případů Meckelova divertiklu (18). Nález izolovaného HP jako vedoucího bodu invaginace je velmi vzácný. Dle dostupné literatury je náš případ jedenáctým případem izolované HP spojené s invaginací (1, 5, 7, 8, 14, 16). Věkové rozmezí jednotlivých pacientů bylo od 2 měsíců do 11 let. Invaginace na patologickém podkladě má odlišnou věkovou distribuci v porovnání s věkovým rozmezím pacientů s invaginací bez zjištěné patologie (maximální výskyt 3–12 měsíců). Mužské pohlaví bylo zastoupeno častěji – v 9 případech (81,8%).

Zastoupení pohlaví se neliší od invaginace bez zjištěné příčiny. Invaginace byla v 8 případech ileo-ileická (72 %), což je nejméně často vyskytující se typ invaginace ve skupině invaginací bez zjištěné příčiny. Přestože u 2 z 11 pacientů (18,1 %) se podařila desinvaginace hydrostatickým tlakem, došlo u nich následně k reinvaginaci a všech 11 pacientů nakonec bylo operováno.

HP je většinou asymptomatický. Ve skupině 32 pacientů s histologicky potvrzeným HP zahrnující 3 dětské jedince se nevyskytly žádné symptomy v 18 případech (56 %). Z celého souboru se pouze 1 případ (3,1 %) projevil invaginací při izolovaném HP (14). Z výše uvedených údajů lze usuzovat, že v dětském věku se izolovaný HP klinicky projevuje vzácně vzhledem k svému pomalému růstu. Nicméně nejčastějším symptomem izolovaného HP dětských pacientů je invaginace (2, 15, 17).

Dominujícími symptomy invaginace jsou kolikovitá bolest břicha a zvracení, které mohou být provázeny hlenem a krví ve stolici a někdy hmatnou rezistencí břicha. Krvavé stolice se vyskytují asi v 60 % všech případů invaginace. HP a ani ostatní příčiny vzniku invaginace se navzájem klinickými projevy neliší. Také u našeho pacienta byla přítomna triáda symptomů typická pro invaginaci – zvracení, kolikovitá bolest břicha a stolice vzhledu malinového želé.

Až v 85 % případů se podaří desinvaginace hydrostatickým tlakem. Je-li patologická léze podkladem invaginace, k úspěšné desinvaginaci dochází výjimečně, nebo je pouze dočasná. Pravděpodobnost desinvaginace se mění s věkem. Ve skupině dětí do 12 měsíců věku, kam se řadí i náš pacient, riziko neúspěchu stoupá až na 30 % oproti skupině 1–5 let věku (6). Délka trvání symptomů také ovlivňuje pravděpodobnost hydrostatické desinvaginace. Při trvání symptomů více než 24 hodin klesá úspěšnost desinvaginace až na 36 % (11). I v našem případě patologická léze a symptomy invaginace trvající téměř 48 hodin vedly po neúspěšném pokusu o hydrostatickou desinvaginaci k chirurgické intervenci.

Závěr

Stanovení diagnózy izolovaného HP jako vedoucího bodu invaginace v dětské populaci je vzácné. HP se může manifestovat invaginací, a to i mimo typické věkové rozmezí a méně častým typem invaginace. V současnosti není prevalence v dětské populaci známá, i když je pravděpodobně velmi nízká. Při neobvyklé lokalizaci HP není vyloučena souvislost s rozvojem invaginace. Dle současných znalostí není mož-

né určit vliv lokalizace, velikosti, histologického podtypu HP na klinický průběh a riziko rozvoje invaginace. Bude nutné analyzovat větší počet případů k objasnění tohoto vztahu.

Literatura

1. Abel R, Keen CE, Bingham JB, et al. Heterotopic pancreas as lead point in intussusception: new variant of vitelointestinal tract malformation. *Pediatr Dev Pathol* 1999; 2: 367–370.
2. Al-Zahem A, Arbuckle S, Cohen R. Combined ileal heterotopic pancreatic and gastric tissues causing ileocolic intussusception in an infant. *Pediatr Surg Int* 2006; 22: 297–299.
3. Barbosa JJ, Dockerty MB, Waugh JM. Pancreatic heterotopia: review of the literature and report of 41 authenticated surgical cases of which 25 were clinically significant. *Surg. Gynecol Obstet* 1974; 82: 527–542.
4. Bruce J, Young SH, Cooney DR, et al. Intussusception: evolution of current management. *J Pediatr Gastroenterol Nut* 1987; 6: 663–674.
5. Carleton CL, Ackerbaum R. Intussusception secondary to aberrant pancreas in a Child. *JAMA* 1976; 236: 1047.
6. Eklof OA, Johanson L, Lohr G. Childhood intussusception: Hydrostatic reducibility and incidence of leading points in different age groups. *Pediatr Radiol* 1980; 10: 83–86.
7. Erdener A, Avanoğlu A, Ozok G, et al. Intussusception in an infant caused by aberrant pancreas. *J Pak Med Assoc* 1993; 43: 22.
8. Hamada Y, Yonekura Y, Tanao A, et al. Isolated heterotopic pancreas causing intussusception. *Eur J Pediatr Surg* 2000; 10: 197–200.
9. Heinrich H. Ein Beitrag Zur Histologie des sogen akzessorischen Pankreas. *Virchows. Arch Path Physiol* 1909; 198: 392–401.
10. Horgan EJ. Accessory pancreatic tissue. *Arch Surg* 1921; 2: 521–534.
11. Kaiser AD. Current Access in the treatment of intussusception in children. *Surgery* 2007; 142(4): 469–475.
12. Ong NT, Beasley SW. The lead point in intussusception. *J Pediatr Surg* 1990; 25: 640–643.
13. Puri P, Guiney EJ. Small bowel tumors causing intussusception in childhood. *Br J Surg* 1985; 72: 493–494.
14. Pang LC. Pancreatic heterotopia: a reappraisal and clinicopathological analysis of 32 cases. *South Med J* 1988; 81: 1264–1275.
15. Saeki I, Muramori K, Handda N, et al. Two cases of intussusception led by heterotopic pancreas. *Jpn J Pediatr Surg* 2005; 37: 733–737.
16. Scholz S, Löff S, Wirth H. Double ileo-ileal intussusception caused by a giant polypoid mass of heterotopic pancreas in a child. *Eur J Pediatr* 2000; 159: 861.
17. Sumitomo K, Furoi A, Fukue K, et al. A case of intussusception caused from an aberrant pancreas. *Jpn J Pediatr Surg* 1991; 27: 81–84.
18. Yamaguchi M, Takeuchi S, Awazu S. Meckel's diverticulum: investigation of 600 patients in Japanese literature. *Am J Surg* 1978; 136: 247–249.

MUDr. Michal Huml

Dětská klinika FN a LF Plzeň, UK Praha
Alej Svobody 80, 304 00 Plzeň
humlm@fnplzen.cz

