

CAZURI CLINICE

DUPLICAȚIA CHISTICĂ GASTRICĂ: O ENTITATE RARĂ ÎN CHIRURGIA COPILULUI

GASTRIC CHISTIC DUPLICATION: A RISK ENTITY IN THE CHILD SURGERY

Gudumac Eva¹, Babuci S.^{1,2}, Petrovici V.², Negru I.², Berbeca A.², Eremia V.¹, Haidarli D.²

¹ Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”

² IMSP Institutul Mamei și Copilului

Rezumat

Duplicațiile gastrice sunt malformații congenitale extrem de rare, manifestările clinice la copii variind în funcție de vârstă.

Prezentare de caz clinic. Autorii raportează un copil cu vârsta de 4 ani, care a fost adus la Departamentul de Medicină de Urgență al Institutului Mamei și Copilului cu diagnosticul de abdomen acut. Ecografia abdominală a permis vizualizarea unei formațiuni chistice situate în segmentul V al ficatului, presupunând un chist hidatic. La rezonanța magnetică nucleară – o formă chistică abdominală de 41 x 42 x 64 mm, localizată în regiunea pancreato-duodenală, cu un contur curat, cu un conținut fluid relativ omogen, formațiunea care intră în contact cu peretele vezicii urinare și capul pancreasului, fără semne clare de comunicare, sugerând un chist mezenteric. Intraoperator a fost descoperită o formațiune de volum intim aderată la peretele stomacului și bine vascularizată, la care adera țesutul pancreatic. S-a recurs la excizia radicală a formațiunii cu restabilirea integrității peretelui stomacului, cu suturi întrerupte. Perioada postoperatorie a evoluat fără complicații, cu pareză gastrică temporară, iar de la a 2-a până la a 5-a zi s-au menținut crescute nivelurile amilazei serice, care au revenit treptat la normal. Rezultatele examenului histologic au constatat că peretele formațiunii prezenta elemente musculare, pe suprafața internă fiind atestată prezența mucoasei glandulare fără semne de atipie, ce treptat devenea mult mai săracă în structuri glandulare foveolare gastrice, evoluând într-un epiteliu gastric. În materialul de țesut adipos au fost atestate structuri pancreatice cu modificări hipoplazice acinar-ductale în mase de țesut fibros-sclerogenizat.

Concluzie: Duplicația chistică gastrică la copii impune dificultăți de diagnostic preoperator, rezultatele examenului imagistic având capacitatea de a imita alte formațiuni chistice abdominale. Ținând cont de riscul de malignizare, tratamentul de elecție în această entitate este excizia chirurgicală radicală a formațiunii cu examenul morfopatologic al piesei de rezecție.

Abstract

Gastric duplications are extremely rare congenital malformations, clinical manifestations in children varying in age.

Clinical case presentation. The authors report a 4-year-old child who was brought to the Department of Emergency Medicine of the Mother and Child Institute with the diagnosis of acute abdomen. Abdominal ultrasound allowed the visualization of a cystic formation located in the V-segment of the liver, assuming a hydatid cyst. At nuclear magnetic resonance – a 41 x 42 x 64 mm abdominal cystic form, located in the pancreatic duodenal region, with a clean contour with a relatively homogeneous fluid content, the formation that comes into contact with the bladder wall and the pancreas head with no clear signs of communication, suggesting a mesenteric cyst. Intraoperative has been discovered an intimate volume formation adhering to the stomach wall and well vascularized, to which was adhered the pancreatic tissue. The radical excision of the formation was resorted, restoring the integrity of the stomach wall with interrupted sutures. The postoperative period has evolved uncomplicated with temporary gastric paresis, and 2 to 5 days the levels of serum amylase had increased, which have gradually returned to normal. The results of the histological examination found that the wall of the formation was with muscular elements, on the internal surface being present a glandular mucosa without signs of atypia, which gradually became much poorer in gastric foveolar glandular structures, evolving into a gastric epithelium. In the adipose tissue, pancreatic structures with acinar-ductal hypoplastic changes were identified in fibrous sclerogenic tissue masses.

Conclusion: Gastric cystic duplication in children imposes preoperative diagnostic difficulties, the results of the imaging exam having the ability to mimic other abdominal cystic formations. Taking into account the risk of malignancy, the elective treatment in this entity is the radical surgical excision of the formation with the morphopathological examination of the resection piece.

Introducere

Duplicațiile gastrice sunt malformații congenitale extrem de rare la copii [2, 20], reprezentând doar 2-7% din totalitatea duplicațiilor gastro-intestinale [1, 15]. Cu toate că aproximativ 67% din cazuri sunt identificate în primul an de viață, duplicațiile gastrice chistice pot evolua asimptomatic perioade îndelungate de timp, la adulți, de cele mai multe ori fiind constatări incidentale [18, 21, 23].

De obicei, formele simptomatice ale acestei malformații pot

fi constatate la o vârstă fragedă, fiind dominate de greață, vome, hematemeză, dureri și distensie abdominală, precum și prezența unei formațiuni abdominale palpabile [2, 15]. Metodele imagistice contemporane dispun de o sensibilitate slabă și variabilă, având contribuții nesemnificative în stabilirea cu certitudine a diagnosticului preoperator al acestor malformații chistice [17]. Prezentăm descrierea unui caz de duplicare chistică gastrică cu debut de abdomen acut și cu anumite dificultăți de diagnostic preoperator.

Caz clinic

Pacienta P, în vârstă de 4 ani, a fost adusă la departamentul de medicină urgentă a Institutului Mamei și Copilului cu febră 39,3°C, dureri abdominale, fatigabilitate, simptomatologia menționată debutând de 12 ore.

Obiectiv – starea generală de gravitate medie, copilul fiind apatic, somnolent, tegumentele palide. S-a determinat tensiunea arterială de 118/72 mmHg, o frecvență a pulsului de 92 bătăi/min și frecvența respirației de 30 respirații/min. La palpare: abdomenul moale, dureros în regiunea epigastrică, în hipocondrul drept apreciindu-se o formațiune tumorală dur-elastică, dureroasă. Scaunul și diureza fără oarecare dereglări. Examenul cardiac nu a relevat oarecare modificări patologice semnificative.

Examenul de laborator a relevat leucocitoză ($13,7 \times 10^9/l$), numărul scăzut de eritrocite ($3,1 \times 10^{12}/l$) și valori scăzute ale nivelului de hemoglobină (101,0 g/l) și hematocritului (0,29). Au fost constatate niveluri scăzute ale indicilor de bază ai echilibrului acido-bazic: pH (7,3 unit.), pCO₂ (33,6 mmHg), pO₂ (79,1 mmHg), HCO₃ (17,3 mmol/l), BE (-8,9 mmol/l). Valorile electroliților au fost în limite normale, cu excepția nivelului redus de Ca²⁺ (0,49 mmol/l). Nivelul amilazei serice a fost în limite normale, iar valorile glucozei depășeau semnificativ valorile normale (10,6 mmol/l). Testele biochimice de evaluare a funcției hepatice nu au prezentat oarecare devieri.

Ultrasonografia abdominală a permis a vizualiza o formațiune chistică localizată în segmentul V al ficatului, presupunându-se un chist hidatic. La rezonanță magnetică nucleară s-a constatat o formațiune chistică abdominală cu dimensiunile de 41 x 42 x 64 mm, localizată în regiunea pancreato-duodenală, cu contur clar, având conținut lichid relativ omogen, cu semnal intern diferit de componentul vezicii biliare (fig. 1 A), formațiunea contactând cu peretele vezicii biliare și capul pancreasului fără semne certe de comunicare, sugerând un chist mezenteric (fig. 1 B). În secvențele prin IRM colangiografie s-a observat vezica biliară de dimensiuni obișnuite, cu inflexiune la nivelul istmului, căile biliare intra- și extrahepatice nefiind dilatate (fig. 1 C). Alte patologii din partea organelor interne nu au fost constatate.

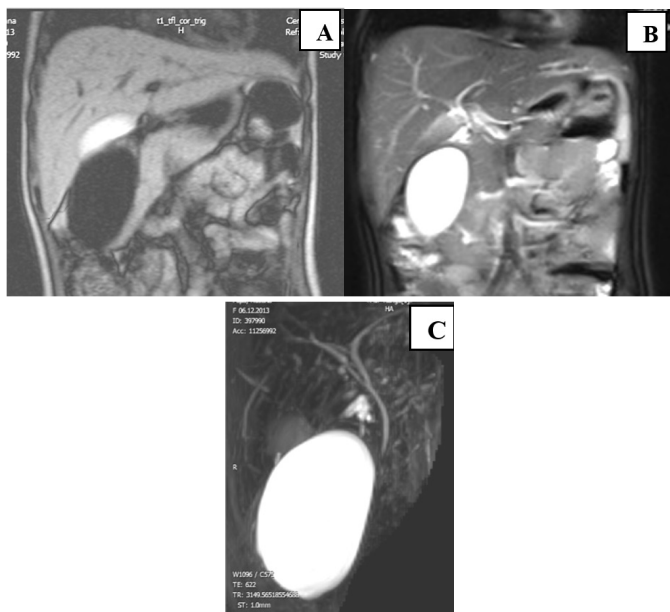


Fig. 1. Pacienta P, 4 ani. RMN-1,5 T regim, colangiografie (MRCP) fără contrast. Explicații în text.

După o pregătire preoperatorie, pacienta a fost supusă intervenției chirurgicale, recurgându-se la o laparotomie transrectală superioară pe dreapta. La revizie, după secționarea ligamentului gastrocolic, a fost observată o formațiune chistică localizată între regiunea antrală și curbura mare a stomacului, bine vascularizată, la care adera intim o porțiune de țesut pancreatic (fig. 2).

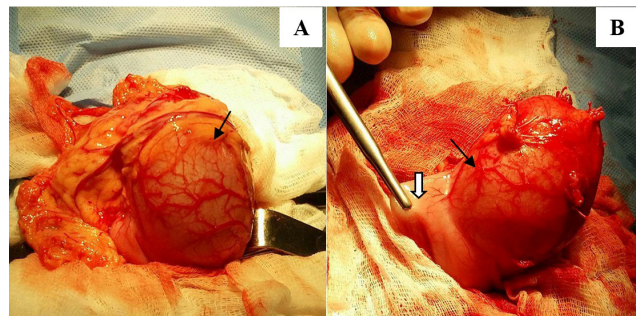


Fig. 2. Aspectul intraoperator al duplicaturii chistice a stomacului: A – după secționarea ligamentului gastrocolic, cu săgeată este indicat țesutul pancreatic aderat la formațiune, B – după mobilizarea completă a duplicaturii chistice (săgeată neagră), cu origine din peretele stomacului (săgeată albă)

După o mobilizare atentă, cu detașarea țesutului pancreatic accesoriu aderat, formațiunea chistică a fost excizată, fără a fi deschisă, cu restabilirea ulterioară a integrității peretelui stomacului cu suturi întrerupte. Perioada postoperatorie a evoluat fără complicații, cu semne de pareză gastrică temporară, la a 2-a – 5-a zi fiind constatate niveluri sporite ale amilazei serice (106 - 136,9 U/L), care, ulterior, treptat au revenit la valori normale. În stare satisfăcătoare pacienta a fost externată.

Morfopatologic, piesa de rezecție prezenta o formațiune chistică ovoidă, elastică, turgescență, cu dimensiuni de 8,0 x 5,0 x 4,7 cm, seroasă, cu o rețea vasculară radiară și arborescentă (fig. 3 A), în secțiune prezentând o cavitate cu conținut lichid de culoare gălbuie cu fulgi fragili și sediment nisipos (fig. 3 B). Pereții formațiunii aveau o grosime de 2 – 3 mm, fiind formați din trei straturi: seros, muscular și tunica mucoasă, ultima sînd netedă, zonal cu aspect de microfaguri, cu focare mici de hemoragii peteșiale.

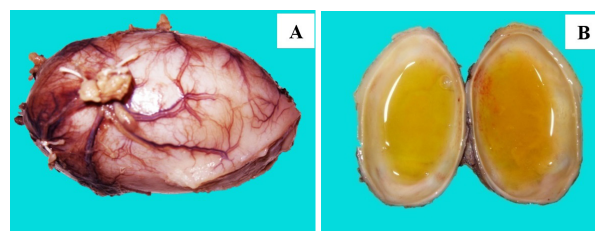


Fig. 3. Aspectul macroscopic al piesei de rezecție bine vascularizată (A) și în secțiune (B)

Explorările histologice au atestat o structură a peretelui formațiunii înlăturată analogică cu structura peretelui gastric, corespunzător morfologic regiunii antrale (fig. 4 A, B). În zona de rezecție mucoasa avea caracteristici morfologice similare regiunii antrale, cu prezența bontului musculaturii gastrice, subseroasa ce alterna cu musculatura peretelui duplicaturii gastrice. Pe suprafața internă a duplicaturii chistice, în regiunea adiacentă stomacului, parțial se atesta prezența mucoasei glandulare fără semne de atipie ce treptat devenea mult mai săracă în structuri glandulare foveolare gastrice, evoluând într-un epiteliu gastric, dispărând de pe majoritatea suprafeței.

Majoritatea suprafeței chistului este prezentată prin componenta laxă conjunctivă a mucoasei, lipsite de structuri glandulare. În probele prelevate din zona cu aspect în pseudomicrofaguri au fost atestate prezența de structuri foliculare limfoide cu centre germinative (fig. 4 C). Rețeaua nervoasă la nivelul peretelui joncțiunii gastro-chistice avea un aspect microanatomic la limita normei (fig. 4 D), cu diminuarea și reducerea semnificativă a elementelor ganglionare spre zonele din apropierea duplicaturii, putând fi observați neuroni dispersați în aria muscularii.

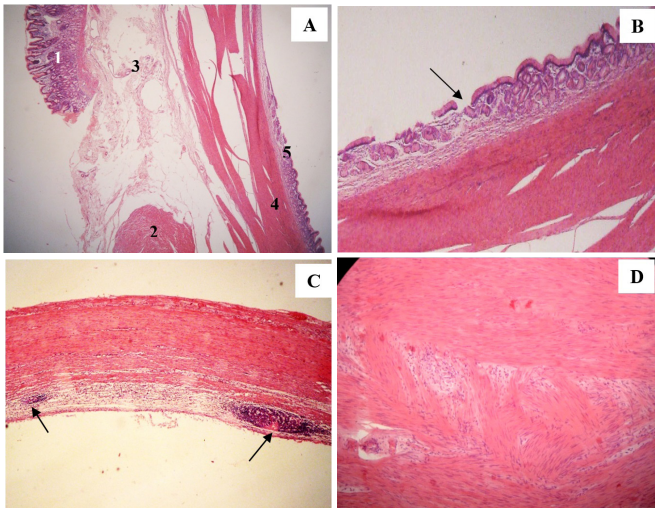


Fig. 4. A - aspectul histologic al zonei de rezecție: 1 - mucoasa gastrică a regiunii antrale; 2 - bontul muscular al peretelui; 3 - submucoasa; 4 - musculara duplicaturii; 5 - mucoasa duplicaturii gastrice cu aspecte de atrofie ce parțial diminuează în grosime; B - suprafața internă a duplicaturii chistice gastrice: epiteliul hipoplazic cu tendință de deminare completă; C - suprafața internă a duplicaturii chistice gastrice cu structuri foliculare limfoide lipsită de elemente glandulare epiteliale; D - rețea ganglio-neuronală mienterică la nivelul joncțiunii

În materialul de țesut adipos au fost atestate structuri pancreatice cu modificări hipoplazice acinar-ductale în mase de țesut fibros-sclerogenizat (fig. 5).

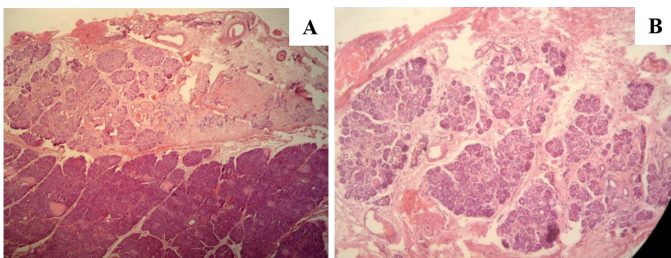


Fig. 5. A - structuri pancreatice sclerogenizate hipoplaziate și cu aspect la limita normală; B - insule de parenchim pancreatic hipoplaziat, acinar-ductal și reacție sclerogenă

Discuții

Conform definiției date de Ladd W.E. și Gross R.E. (1941), duplicațiile reprezintă structuri sferice sau tubulare, care dispun de un strat muscular neted bine dezvoltat, sunt căptușite cu o membrană mucoasă și sunt localizate la orice nivel al tractului alimentar de la limbă până la anus, fiind atașate intim la o parte din tubul digestiv [10, 12]. Incidența duplicațiilor tractului gastrointestinal constituie 1 la 4500 de nou-născuți vii, în 20% din cazuri fiind situate intratoracic [13, 19].

Unii autori consideră cu probabilitate că prima descriere a duplicației tractului digestiv a fost făcută de Blasius, care în

1617 a raportat un „stomac cu lumen dublu” la cadavrul unui bărbat de 35 de ani. În 1882, Read a descris o tumoră chistică a stomacului, iar Wendell (1911) a raportat prima excizie reușită a unui „stomac accesoriu” [6]. De remarcat că în 1884, Reginald Fitz a folosit cuvântul duplicatură pentru a descrie ceea ce credea că sunt reminiscențe ale canalului omfalomezenteric, ulterior diferiți autori utilizând termenii precum chist enterogen, divericul gigant și divericul Meckel [14]. În 1937, Ladd W. a folosit expresia „duplicarea tractului alimentar”, acest termen fiind sprijinit de Donovan E.J. și Santulli T.V. (1947) [8] și, ulterior, de Gross, în lucrarea sa din 1952 [12], în care a explicat inexactitatea termenilor [3].

Ca criteriile esențiale recomandate în diagnosticul duplicațiilor chistice ale stomacului pot fi considerate: învecinarea peretelui chistului cu peretele stomacului, o aprovizionare sanguină de la vas gastric, peretele chistului conține mușchi neted, care este continuu cu mușchii stomacului, suprafața internă a chistului este căptușită cu epiteliu gastric sau orice alt tip de mucoasă gastrointestinală [22, 23]. În unele cazuri, de rând cu epiteliu de tip gastric sau duodenal, poate fi constatat țesut pancreatic sau epiteliu columnar ciliat pseudostratificat de tip respirator [7, 25].

Există controverse cu privire la originea embriologică a acestor malformații, fiind propuse mai multe teorii, inclusiv: teoria erorilor de reorganizare și fuziune a plicilor longitudinale, propusă de Bremer; teoria lui McLetchie, conform căreia adeziunea endodermului notocordal și embrional nu se poate elonga la fel de repede ca structurile înconjurătoare, determinând dezvoltarea unui diverticul de tracțiune, cauzând formarea duplicațiilor chistice, teoria diverticuliilor embriologice persistente, evenimente hipoxice sau traumatiche, etc. [23].

Duplicarea gastrică poate fi tubulară sau chistică, tipul chistic necomunicând cu lumenul stomacului [24]. Mai frecvent (66% din cazuri) duplicările gastrice sunt situate de-a lungul curburii mari, dar pot fi localizate și pe peretele posterior sau anterior al stomacului, în regiunea cardiei sau pilorului [5, 20]. În cazuri rare duplicația chistică gastrică poate fi întâlnită concomitent cu alte malformații ale tractului digestiv, cum ar fi: atrezia duodenală [11], duplicații pancreatice sau coexistența duplicațiilor gastrice, pancreatice și ureterale [4, 5]. Transformarea malignă a duplicațiilor chistice gastrice este întâlnită rar, de obicei, la adulți, fiind raportate cazuri de dezvoltare a adenocarcinomului [16, 26], tumorilor stromale gastrointestinale [9].

Manifestările clinice ale duplicațiilor gastrice la copii variază în funcție de vârstă, pacienții prezentând dureri abdominale, vărsături recurente, dificultăți de alimentație, scaune cu sânge sau alte simptome gastrointestinale nespecifice [27]. Diagnosticul diferențial al acestei leziuni chistice include chisturile de coledoc, mezenteric, omental, ovarian, hidronefroza, etc. [15]. Examenul ecografic, tomografia computerizată sau rezonanța magnetică nucleară sunt modalități utile în diagnosticul acestor leziuni, confirmarea cu certitudine a diagnosticului prin utilizarea acestor metode rămânând o provocare [27], fapt confirmat și în cazul nostru.

Tratamentul de elecție al duplicațiilor gastrice este cel chirurgical, care are ca scop excizia formațiunii, în unele cazuri impunându-se necesitatea de a recurge la o gastrectomie parțială, dictată de dimensiunile duplicaturii [19].

Concluzie

Duplicația chistică gastrică la copii, datorită unei

simptomatologiei nespecifice și rarității acestor leziuni, impune dificultăți de diagnostic preoperator, rezultatele examenului imagistic având capacitatea de a imita alte formațiuni chistice abdominale. Ținând cont de riscul de transformare malignă,

tratatamentul de elecție în această entitate este excizia chirurgicală radicală a formațiunii cu examenul morfofopatologic al piesei de rezecție.

Bibliografie

1. Al Shehi M, Ali M, Abdelrahim, El Gohary A. Gastric duplication cyst causing gastric outlet obstruction. *J Neonat Surg* 2012; 1(3): 42.
2. Bonacci J.L., Schlatter M.G. Gastric duplication cyst: a unique presentation. *J. Pediatr. Surg.* 2008. 43:1203-5.
3. Bower R.J., Sieber W.K., Kiesewetter W.B. Alimentary tract duplications in children. *Ann. Surg.* 1978. 188(5):669-74.
4. Chattopadhyay A., Mitra S.K., Dutta S., Chakraborty H. Gastric, pancreatic, and ureteric duplication. *J. Indian. Assoc. Pediatr. Surg.* 2010. 15(1):25-7.
5. Christians K.K., Pappas S., Pilgrim C., Tsai S., Quebbeman E. Duplicate pancreas meets gastric duplication cyst: a rare of two anomalies. *Int. J. Surg. Case Rep.* 2013. 4:735-9.
6. Clement K.W., Escamilla H.A. Duplications of the stomach. *J. Nat. Med. Assoc.* 1974. 66(4):292-5.
7. Doepker M.P., Ahmad S.A. Gastric duplication cyst: a rare entity. *J. Surg. Case Rep.* 2016. 5:1-3.
8. Donovan E.J., Santulli T.V. Duplications of the alimentary tract. Report of six cases. *Ann. Surg.* 1947. 126(3):289-304.
9. Fernandez D.C., Machicado J., Davogusto G. Gastrointestinal stromal tumor arising from a gastric duplication cyst. *ACG Case Rep. J.* 2016. 3(3):175-7. doi:10.14309/crj.2016.41.
10. Galloway W.H., Sutherland A.M., Williams A.W. Duplication of the stomach. *Arch. Dis. Child.* 1956. 31(159):422-5.
11. Ghoroubi J., Mirshemirani A., Roshanzamir F., Razavi S., Sarafi M. Gastric duplication cyst in association with duodenal atresia in a neonate. *APSP J. Case Rep.* 2016. 7:6.
12. Gross R.E., Holcomb G.W., Farber S. Duplications of the alimentary tract. *Pediatrics.* 1952. 9:449-68.
13. Grossmann O., Dass D., Marven S. Gastric duplication cyst as a differential for an intrathoracic cystic mass. *Afr. J. Paediatr. Surg.* 2015. 12(1):76-8.
14. Holcomb G.W., Gheissari A., O Neil J.A., Shorter N.A., Bishop H.C. Surgical management of alimentary tract duplications. *Ann. Surg.* 1989. 209(2):167-74.
15. Kayastha K., Sheikh A. Gastric duplication cyst presenting as acute abdomen: A case report. *APSP J. Case Rep.* 2010. 1: 6.
16. Kuraoka K., Nakayama H., Kagawa T., Ichikawa T., Yasui W. Adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst with invasion to the stomach: a case report with literature review. *J. Clin. Pathol.* 2004. 57:428-31. doi: 10.1136/jcp.2003.013946.
17. Malgras B., Souraud J.-B., Chapuis O. Retroperitoneal gastric duplication cyst. *J. Visc. Surg.* 2014. 151:479-80.
18. Passos D., Chatzoulis G., Miliadis K., Tzoi E., Christoforakis C., Spyridopoulos P. Gastric duplication cyst (gdc) associated with ectopic pancreas: Case report and review of the literature. *Int. J. Surg. Case Rep.* 2017. 31:109-13.
19. Patiño Mayer J., Bettolli M. Alimentary tract duplications in newborns and children: Diagnostic aspects and the role of laparoscopic treatment. *World J. Gastroenterol.* 2014.20(39):14263-71,
20. Ren H.X., Duan L.Q., Wu X.X., Zhao B.H., Jin Y.Y. Laparoscopic resection of gastric duplication cysts in newborns: a report of five cases. *BMC Surgery.* 2017. 17:37. DOI 10.1186/s12893-017-0234-x.
21. Seetharam P., Rodrigues G. Gastric duplication cyst mimicking pancreatic/hydatid cyst: a rare presentation. *Turk. J. Med. Sci.* 2007. 37(4):231-3.
22. Sharma D., Bharany R.P., Mapshekar R.V. Duplication cyst of pyloric canal: a rare cause of pediatric gastric outlet obstruction: rare case report. *Indian J. Surg.* 2013. 75(suppl 1):S322-S325.
23. Singh J.P., Rajdeo H., Bhuta K., Savino J.A. Gastric duplication cyst: two case reports and review of the literature. *HPC Case Rep. Surg.* 2013. Art. ID 605059. 4 pag. <http://dx.doi.org/10.1155/2013/605059>.
24. Theodosopoulos T., Marinis A., Karapanos K., Vassilikostas G., Dafnios N. et al. Foregut duplications cysts of the stomach with respiratory epithelium.
25. Tjendra Y., Lyapichev K., Henderson J., Rojas C.P. Foregut duplications cyst of the stomach: A case report and review of the literature. *HPC Case Rep. Pathol.* 2016. Art. ID 7318256. 4 pag. <http://dx.doi.org/10.1155/2016/7318256>.
26. Yamasaki A., Onishi H., Yamamoto H., Ienaga J., Nakafusa Y. et al. Asymptomatic adenocarcinoma arising from a gastric duplication cyst: A case report. *Int. J. Surg. Case Rep.* 2016. 25:16-20.
27. Zhang L., Chen Q., Gao Z., Xiong Q., Shu Q. Diagnosis and treatment of gastric duplication in children: a case report. *Exp. Ther. Med.* 2017. 14:3062-6.