

Vojnomedicinska akademija, Beograd
Klinika za opštu i vaskularnu hirurgiju

Prikaz slučaja
Case report
UDK 616.341-007.4

SUBMUKOZNI LEJOMIOM KAO UZROK JEJUNO-JEJUNALNE INVAGINACIJE KOD ODRASLIH

JEJUNO-JEJUNAL INTUSSUSCEPTION IN ADULTS SECONDARY TO SUBMUCOSAL LEIOMYOMA

Miroljub DRAŠKOVIĆ, Sidor MIŠOVIĆ, Goran KRONJA, Jovan KRŠIĆ, Aleksandar TOMIĆ i Momir ŠARAC

Sažetak - Intususcepcija ili invaginacija predstavlja uvlačenje jednog segmenta creva u susjedni, distalni deo creva. Iako se ovaj klinički entitet najčešće javlja kod dojenčadi i dece, poznato je da se može javiti i kod odraslih. Etiologija invaginacije kod odraslih uglavnom je povezana sa postojanjem organske promene, najčešće tumora, benignog ili malignog. Pravovremeno postavljanje dijagnoze od suštinskog je značaja za ishod lečenja i sniženje morbiditeta i mortaliteta. Rano postavljanje dijagnoze kod odraslih otežava niska incidencija i najčešće subakutna klinička slika. Prikazali smo slučaj 27-godišnjeg muškarca koji je nespecifične abdominalne tegobe imao više nedelja, te je duže vreme hospitalizovan u regionalnoj bolnici. Dominantne tegobe bile su recidivni abdominalni bolovi, povraćanje, dehidracija i gubitak na telesnoj masi. Pacijent je napokon premešten na našu hirušku kliniku. CT pregledom utvrđeno je postojanje invaginacije tankog creva. Preduzeta je hiruška intervencija i operativni nalaz je potvrdio postojanje jejuno-jejunalne invaginacije uzrokovane primarnim tumorom tankog creva. Deo tankog creva sa tumorom je reseciran, a patohistološki nalaz je pokazao da se radi o submukoznom leiomiomu.

Ključne reči: Leiomiom + dijagnoza + hirurgija; Intususcepcija + etiologija; Odrasli; Komorbiditet; Jejunalne bolesti

Uvod

Intususcepcija ili invaginacija je uvlačenje jednog dela creva u susjedni distalni deo. Deo creva koji je uvučen naziva se intususceptum ili invaginatum, a deo koji prima naziva se intususcipiens ili vagina. Invagirano crevo vuče za sobom pripadajući mezen-terijum sa krvnim sudovima što dovodi najpre do venskog zastoja, a kasnije i do arterijskog uzrokujući na taj način strangulaciju i gangrenu creva. Prema tome invaginacija creva ima karakter i op-turacionog i strangulacionog ileusa [1].

Invaginacija je pojava karakteristična za dečju dob, a najveća incidencija se beleži u dojenačkom dobu, tj. u periodu od 2. do 12. meseca života [1]. Kod odraslih je ova pojava redak klinički entitet koji se u prošlosti obično dijagnostikovao tokom hiruške intervencije preduzete zbog razvoja kliničke slike mehaničkog ileusa, tj. akutnog abdomena [2].

Podela invaginacija na juvenilne i adultne ima krupne reperkusije u vezi sa etiologijom, prezentacijom kliničke slike, brzinom dijagnostike i izbor terapijskog pristupa [1].

Juvenilne invaginacije su većinom idiopatske, tj. ne postoji organska lezija koja predstavlja tačku vodilju invaginata, već se tu radi o funkcionalnom poremećaju [3]. Samo izuzetno invaginacija se javlja kao rezultat razvojnih anomalija, perzistencije Meckelovog divertikula, Henoch-Schonleinove purpure ili limfoma [3,4]. Klinička slika je najčešće karakteristična i sumnju na postojanje invaginacije moguće je postaviti već kliničkim pregledom, a za potvrdu dijagnoze metoda izbora je UZ pregled kojim se postižu odlični rezultati u pogledu brzine i tačnosti dijagnostike [3]. Kod terapijskog pristupa

postoji opšti konsenzus da je neoperativna redukcija invaginata (pod kontrolom fluoroskopije ili ultrazvuka) uvek indikovana ako nema striktnih kontraindikacija u koje spadaju znaci perforacije creva, peritonitis, hipovolemijski šok, početak tegobe duže od 24 sata [3-5].

Adultne invaginacije su u preko 95% slučajeva uzrokovane organskim lezijama, najčešće tumorima [6,7]. Kod invaginacije na tankim crevima benigni tumori su uzrok u 85-90% slučajeva, dok na debelom crevu kao uzrok invaginacije prevladavaju maligni tumori [6].

Klinička slika je uglavnom nespecifična tako da karakterističan trijas simptoma koji obuhvata abdominalni bol praćen povraćanjem, krvave stolice i palpabilnu tumefakciju nije prisutan [7,8]. Postoje i razne supkliničke fomez [9] kao i intermitentne neopstruktivne invaginacije [10]. Ako se ima u vidu činjenica da je pojava adultne invaginacije izuzetno retka i da se na nju često i ne misli jasno je zašto često dolazi do dijagnostičke zablude i kasnog ustanovljena dijagnoze što može ugroziti pacijenta.

Dijagnostički postupci koji nam stoje na raspolaganju, prevashodno UZ i CT ipak su znatnije unapredili procenat preoperativno postavljenih dijagnoza invaginacije [1,2,7]. Koliko god postoji dijagnostička dilema, toliko je dokaz da postoji invaginacija kod odrasle osobe apsolutna indikacija za hirušku intervenciju [6,8,9,11-14].

Podela invaginacija može se vršiti i po lokalizaciji, tj. prema visini invaginacije, budući da je taj mehanizam opisan na čitavom tankom crevu, uključujući i duodenum [15], i debelom crevu [6].

Svakako da se invaginacije najčešće javljaju na ileumu i to kao ileo-količne i ileo-ilealne, zatim ko-

lo-količne (ceko-količne), a jejuno-jejunalne su izuzetno retke [2,16,17].

U ovom radu je prikazan slučaj mladog muškarca sa retkom formom jejuno-jejunalne invaginacije uzrokovane submukoznim leiomiomom koji je doveo do intestinalne opstrukcije. Vreme koje je proteklo od momenta pojave simptoma do postavljanja adekvatne dijagnoze i odgovarajućeg lečenja iznosilo je 2 meseca. Tako dugačak period rezultat je kombinacije ranije navedenih karakteristika invaginacije kod odraslih ali i nedovoljnog poznavanja svih aspekata ovog stanja.

Prikaz slučaja

Pacijent životne dobi od 27 godina primljen je na Kliniku za opštu i vaskularnu hirurgiju radi nastavka dijagnostike i lečenja bolova u stomaku koji traju duže vremena. Radi se o pacijentu koji je premešten iz regionalne bolnice gde je 14 dana proveo na internom odeljenju te bolnice a gde definitivna dijagnoza nije utvrđena. Pacijentove tegobe počinju unazad 2 meseca u vidu jakih grčevitih bolova u epigastrijumu i periumbilikalno, koji su praćeni povraćanjem, gubitkom apetita i opštom malaksalošću. Osim toga primetio je u poslednje vreme i promenu boje stolice koja je tamno prebojena. U poslednjih mesec dana pacijent je izgubio na telesnoj težini 14 kilograma. Na prijemu pacijent se žali na difuzan abdominalni bol i povraćanje žutog sadržaja. Kliničkim pregledom je konstatovano da je abdomen mek, difuzno bolno osetljiv, sa najjačim bolom periumbilikalno. Patološke rezistencije i organomegalije nisu registrovane. Peristaltika je bila čujna uz povremeno pretakanje. Rektalnim tušom pronađena je prazna ampula rektuma uz oskudne tragove tamnije obojene stolice. Pacijent je dehidriran, puls oko 100/min, tenzije 120/70 mmHg.

Inicijalne laboratorijske analize pokazuju snižene vrednosti Hgb-100g/L, Hct-0,35, serumskih albumina 25 g/L i ukupnih proteina 50 g/L, serumskog Ca 2,13 i K 2,9 mmol/L, a povišene vrednosti Na-152 mmol/L. Ostali laboratorijski parametri leukociti, trombociti, urea, glukoza, kreatinin, bilirubin, transaminaze, amilaze i nalaz urina pokazali su fiziološke vrednosti.

Na učinjenom nativnom rendgenskom snimku abdomena nije bilo znakova perforacije šupljih organa niti aerolikvidnih nivoa. Uočeno je prisustvo ostataka kontrastnog sredstva u tankom crevu (pre 7 dana snimanje rađeno u drugoj ustanovi). Nakon ovog učinjen je UZ pregled abdomena koji nije ukazivao na patološke promene na abdominalnim organima niti na prisustvo slobodne tečnosti u trbušnoj duplji. Sledeći dijagnostički korak bio je CT pregled abdomena i male karlice. Pregled je rađen najpre bez kontrasta (Slika 1), a potom i sa kontrastom (Slika 2).

Na učinjenim snimcima prikazano je da sa leve strane u visini donjeg pola bubrega postoji promena suspekt na invaginaciju, sa izraženim "znakom



Slika 1. Nalaz CT abdomena bez kontrasta

Fig. 1. Abdominal CT scan without contrast



Slika 2. Nalaz CT abdomena nakon aplikacije kontrasta

Fig. 2. Abdominal CT scan with contrast

mete" i sa solidnim tumorom kao vodičem invaginacije.

Da bi se dopunila dijagnostika urađena je i enterokliza. Pregled je rađen dvojnokontrastnom tehnikom u hipotoniji intubacionim putem. Nalaz



Slika 3. Radiografski nalaz nakon enteroklize

Fig. 3. X-ray finding after enteroclysis

ukazuje da je želudac prepun sekreta, a duodenum i prve vijuge jejunuma jako distendirane i nabori edematozni, što je posledica distalne nepropusnosti za kontrast tako da slika odgovara invaginaciji ili torziji jejunuma (Slika 3).

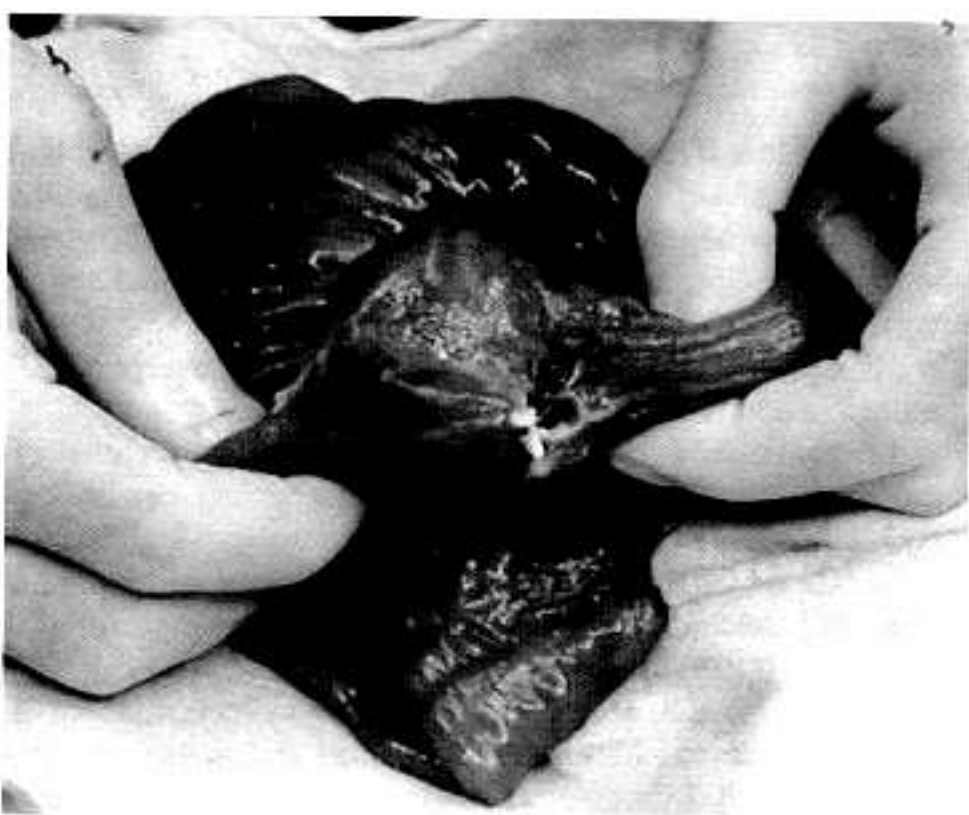
Nakon ovako sprovedene jednodnevne dijagnostike postavljena je indikacija za hitnu hirušku intervenciju, te su sprovedene reanimacione mere i pripreme za operativni zahvat.

Intraoperativno na 20 cm od Treitzovog ligamenta pronađen je početak invaginacije jejunuma u dužini od oko 30 cm prema distalno (Slika 4).



Slika 4. Intraoperativni nalaz jejuno-jejunalne invaginacije
Fig. 4. Intraoperative findings of jejunojejunal intussusception

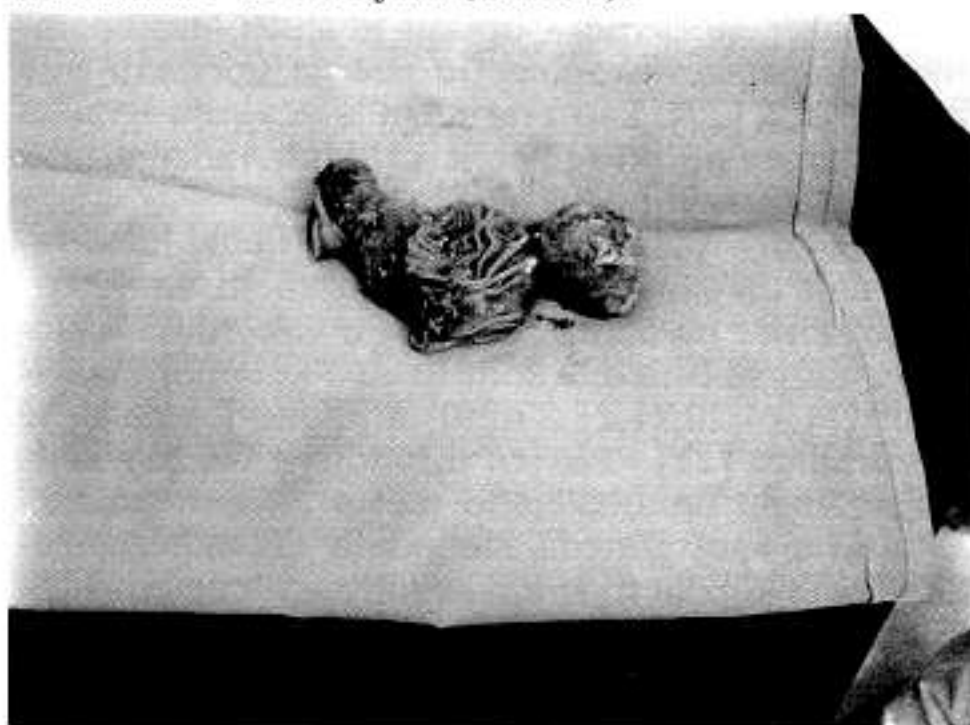
Vodič invaginacije je tumor veličine 5x5 cm koji gotovo potpuno opturira lumen creva, a u bazalnom delu je prisutna ulceracija (Slika 5).



Slika 5. Intraoperativni nalaz tumora jejuno-jejunalne invaginacije
Fig. 5. Intraoperative findings of a tumor-related jejunojejunal intussusception

Creva koja su angažovana u procesu invaginacije su edematozna, distendirana, do 7 cm u prečniku, a distalni deo je kolabiran.

Tumor je smešten na peteljci lociran na anti-mezenterijalnoj ivici creva, sa centralno izraženom nekrozom i ulceracijom (Slika 6).



Slika 6. Resecirani deo creva sa tumorom
Fig. 6. Resected part of the intestine with the tumor

Učinjena je resekcija dela tankog creva sa tumorom u dužini od oko 10 cm, a kontinuitet je uspostavljen T-T anastomozom. Postoperativni tok protekao je uredno.

Patohistoloski pregled pokazao je da se radi o benignom tumoru *Leiomyoma submucosum intestini tenui* (sa elementima ulceracije i sekundarne inflamacije).

Pacijent je 4. postoperativnog dana preveden na peroralnu ishranu, 7. postoperativnog dana je izvađen dren iz Douglasovog prostora, a 11. postoperativnog dana pacijent je otpušten iz bolnice.

Diskusija

Već je naglašeno da je invaginacija na tankom crevu izuzetno retka pojava kada su u pitanju odrasle osobe. Ovo je razumljivo ukoliko se zna da one nastaju kao komplikacija postojanja tumora tankog creva, a koji je sam po sebi izuzetno redak (u jednoj seriji od 11 000 operisanih, tumor tankog creva pronađen je u 67 slučajeva) [18].

Prema podacima iz literature uzroci invaginacije tankog creva obuhvataju heterogru grupu bolesti koje možemo svrstati u nekoliko grupa:

1) Benigni tumor tankog creva - lipomi i intestinalna lipomatoza [12,19,20]; leiomiomi [21]; fibromi [22], angiolipomi [9]

2) Polipi tankog creva-inflamatorni fibroidni polipi [14,17]; polip gastrične mukoze u ileumu koji se javio nezavisno od Meckelovog divertikula [23]; multiple polipoze (Puetz-Jeghersov sindrom, Turcotox sindrom) [22,25];

3) Divertikuli tankog creva - oni se za razliku od divertikula debelog creva smatraju razvojnim

malformacijama i mogu uzrokovati invaginacije bilo da se jave kao solitarni ili multipli [13];

4) Sistemske bolesti - Burkittov limfom [11]; endometrioza, na koju se mora misliti ukoliko se kod fertile ženske osobe koja boluje od dismenoreje i steriliteta razviju znaci ileusa [26];

5) Jatrogeni uzroci - opisan je slučaj postoperativne idiopatske invaginacije gde na operaciji nije nađen uzrok [27]; kao i raritetan slučaj retrogradne jejuno-jejunalne invaginacije prilikom vađenja tube plasirane u terapiji ileusa [28];

6) Ostali - jedinstven slučaj je i ileokolična invaginacija uzrokovana akutnim apendicitisom [29].

Što se tiče nivoa invaginacije u više od 90% slučajeva radi se o ileoilealnoj ili ileo-količnoj invaginaciji [11,14,20,21,23,27,29], a jejuno-jejunalna je prava retkost [17]. Ovo je i razumljivo ako se zna da je anatomska predilekciono mesto za nastanak invaginacije spoj između slobodnih crevnih segmenata i onih koji su fiksirani za retroperitoneum [1].

Problem polimorfne i nespecifične kliničke slike i s tim povezanog kašnjenja u postavljanju dijagnoze ističe se u mnogim radovima [12,19-21,26]. Pacijenti su često mlađi ljudi sa dugogodišnjom anamnezom rekurentnih abdominalnih kolika koji dobro reaguju na primenu spazmolitika [16]. Simptomi mogu biti dispepsija, mučnina, povraćanje ili pak abdominalna distenzija praćena opstipacijom [16]. Ilustrativan je i slučaj 71-godišnje žene koja je hospitalizovana zbog traume ali se rutinskim analizama ustanovila sideropenijska anemija i okultno krvarenje, da bi se UZ pregledom ustanovila invaginacija tankog creva uzrokovana angiolipomom [9]. Nisu retki ni slučajevi gde se tek na ponovljenim hospitalizacijama dijagnostikuje invaginacija, a da se ti bolesnici prethodno leče pod dijagnozama: pi-

jelonefritis, akutni apendicitis, hronična opstipacija ili kolopatija, psihomotorni abdominalni distres [16].

Po našem mišljenju jejuno-jejunalna invaginacija predstavlja veći dijagnostički problem, naročito visoka kao što je u ovde prikazanom slučaju, budući na kliničkom pregledu nema distenzije niti meteorizma kao znakova opstrukcije, a na rendgenskom nativnom snimku abdomena nema nivoa.

Najveću dijagnostičku pomoć prema većini autora predstavlja UZ [6,7,9,11], a kao karakteristični znaci za invaginaciju opisuju se "znak mete" na poprečnom preseku, tj. "znak pseudobubrega" na uzdužnom preseku [6]. Osim UZ praktično istu, ako ne i veću, dijagnostičku vrednost ima CT, što se u ovom našem slučaju pokazalo kao presudno. Slična su iskustva i drugih [6,8,10].

Terapijski izbor je određen činjenicom da je u gotovo svim dosad opisanim slučajevima uzrok invaginacije organska lezija koja zahteva da bude hirurški rešena [9,11-14,16,17].

Postignuti rezultati su uglavnom dobri, a zavise od opšteg stanja pacijenta, konkomitentnog morbiditeta, brzine postavljanja dijagnoze i eventualno prisutnih komplikacija (perforacija, peritonitis i sl. [6,9,11,13,20].

Zaključak

Invaginacija kod odraslih predstavlja retku pojavu. Nastaje kao posledica postojanja organske lezije, najčešće tumora. Klinička slika je nespecifična, tako da se sa postavljanjem dijagnoze obično kasni. Od najveće pomoći su UZ i CT. Uvek je potrebna hirurška intervencija.

Literatura

1. Rohrschneider W. Invagination. *Radiologe* 1997;37(6):446-53.
2. Martin-Lorenzo JG, et al. Intestinal invagination in adults: preoperative diagnosis and management. *Int J Colorectal Dis* 2004;19(1):68-72.
3. Doi O, Aoyama K, Hutson JM. Twenty-one cases of small bowel intussusception: the pathophysiology of idiopathic intussusception and the concept of benign small bowel intussusception. *Pediatr Surg Int* 2004;20(2):140-3.
4. Sonmez K, et al. Conservative treatment for small intestinal intussusception associated with Henoch-Schonlein's purpura. *Surg Today* 2002;32(12):1031-4.
5. Marinaccio F, Nobili M, Niglio F, La Riccia A, Marinaccio M. Intestinal invagination in childhood: our experience. *G Chir* 1997;18(4):204-8.
6. Pohlen U, Eberhardt H, et al. Diagnostics and surgical therapy of enteric intussusception in adults illustrated by three cases. *Chirurg* 2003;74(9):852-5.
7. Fournier R, Gouzien P, Russier Y, Garola P. Intestinal intussusception in adults: contribution of ultrasonography. *J Chir (Paris)* 1994;131(10):430-3.
8. Winslow BT, Westfall JM, Nicholas RA. Intussusception. *Am Fam Physician* 1996;54(1):213-7, 22.
9. Manner M, et al. Invagination caused by angiolipoma of the small intestine: a rare cause of occult gastrointestinal hemorrhage. *Chirurg* 2001;72(3):305-7.
10. Catalano O. Transient small bowel intussusception: CT findings in adults. *Br J Radiol* 1997;70(836):805-8.
11. Szabo A, Farkas P, et al. Ileocecal intussusception caused by Burkitt lymphoma, cause of mechanical ileus. *Magy Seb* 2003;56(3-4):116-9.
12. Galati G, Bononi M, Fiori E, De Cesare A. Lipoma of the small intestine: a rare cause of intestinal invagination. *G Chir* 2001;22(10):349-51.
13. Monzio CB, Rusconi A, Casagrande A, Galimberti A. Small bowel diverticula in adults: clinical and therapeutic features. Report of 2 cases and review of the literature. *Minerva Chir* 2001;56(4):399-403.
14. Dicle O, Erbay G, et al. Inflammatory fibroid polyp presenting with intestinal invagination: sonographic and correlative imaging findings. *J Clin Ultrasound* 1999;27(2):89-91.

15. Ijichi H, Kawabe T, Isayama H, et al. "Duodenal intussusception" due to adenoma of the papilla of Vater. *Hepatogastroenterology* 2003;50(53):1399-402.
16. Sachs M, Encke A. Entero-enteral invagination of the small intestine in adults: a rare cause of "uncertain abdomen". *Langenbecks Arch Chir* 1993;378(5):288-91.
17. Oertli D, Spichtin HP, et al. Intestinal obstruction with invagination caused by an inflammatory fibroid polyp of the small intestine *Chirurg* 1994;65(1):71-3.
18. Geroulanos S, Hahnloser P. Complications in primary tumors of the small intestine. *Schweiz Med Wochenschr* 1975;105(18):582-4.
19. Nincheri KM, Evaristi L, Spadoni R, Cozzani R. Lipoma of the small intestine as a rare cause of intestinal occlusion. *Minerva Chir* 1994;49(9):859-65.
20. Rivera IR, Fernandez MN, Funez LR. Ileco-ileal and ileocecal invagination due to intestinal lipomatosis. *Gastroenterol Hepatol* 2003;26(8):482-4.
21. Fernandez V, Peiper Ch, Klosterhalfen B, et al. Ileocecal invagination due to a benign small intestine tumor: a case report. *Chirurg* 2003;74(9):856-9.
22. Samsonov VA, Gel'fand SI. Fibroma of the small intestine with heterotopia of the pyloric glands in the mucous membrane covering the tumor. *Arkh Patol* 1985;47(5):71-4.
23. Zoller M, Low S, Muller G, et al. Differential diagnosis of acute appendicitis and ileus. Invagination due to polypoid heterotopic gastric mucosa in the ileum without Meckel diverticulum. *Chirurg* 2003;74(10):958-60.
24. Shibata C, Sasaki I, Naito H, Funayama Y. Turcot syndrome with colonic obstruction and small intestinal invagination: report of a case. *Surg Today* 1999;29(8):785-8.
25. Kohut M, Marek T, Rybicka J, Boldys H. Digestive tract hemorrhage and recurrent ileus. Peutz-Jeghers syndrome: case report. *Wiad Lek* 2003;56(3-4):192-8.
26. Mittermair RP, Prommegger R, et al. Intestinal invagination due to endometriosis of the terminal ileum. *Dtsch Med Wochenschr* 1999;124(50):1522-4.
27. Kjellstrom BT, Gortz L, Nilsson S. Adult idiopathic enteric intussusception in the postoperative period: case report. *Eur J Surg* 1991;157(5):359-60.
28. Ophoff K, Riesener KP, Buchin P, et al. Jejuno-jejunal invagination after Dennis tube insertion for ileus: a rare complication. *Chirurg* 1999;70(6):721-3.
29. Bellows CF, Haque S, Jaffe BM. Two unusual cases of adult intussusception. *Dig Surg* 2002;19(3):241-4.

Summary

Introduction

Intussusception is the invagination of a segment of the intestine into itself. It is a serious condition that most commonly affects infants and children, but can also occur in adults. Intussusception in adults is usually caused by tumors, benign or malignant. Early diagnosis is essential to avoid treatment delays, which can increase morbidity and mortality. In older patients and adolescents the diagnosis can be complicated due to lower incidence and variable subacute symptoms.

Case report

We report a rare case of a 27-year-old patient with increasing abdominal discomfort over several weeks. The patient experi-

enced increasing colics, recurrent vomiting, dehydration and weight loss. Finally he was transferred to the surgical ward of our hospital.

Intussusception of the small bowel was diagnosed by CT examination. Laparotomy revealed a jejunojejunal intussusception caused by a small bowel tumor.

Conclusion

The tumor in the jejunum, almost completely obstructed the intestinal lumen and it was resected and bowel continuity was restored. Histopathological examination revealed a submucosal leiomyoma of the jejunum.

Key words: *Leiomyoma + diagnosis + surgery; Intussusception + etiology; Adult; Comorbidity; Jejunal Diseases*

Rad je primljen 23. VI 2004.

Prihvaćen za štampu 3. XI 2004.

BIBLID.0025-8105:(2005):LVIII:7-8:405-409.