

Asemptomatik bağırsak duplikasyonları: iki olgu sunumu ve literatürün gözden geçirilmesi

Feride MEHMETOĞLU *, Mensur SÜER **, Ayşe ERDOĞAN ***

Bursa Dörtçelik Çocuk Hastanesi, *Çocuk Cerrahisi, **Radyoloji, ***Patoloji Klinikleri, Bursa

Özet

Gastrointestinal sistem duplikasyonları ender görülen doğumsal anomaliler olup, sıklıkla ince bağırsakta bulunurlar. Genellikle iki yaşından önce teşhis edilirler. Klinik bulgular hastalığa özgü değildir, yerleşim yerine, boyutlarına ve mukozaya tipine göre değişebilirler. Bu çalışmada oldukça geç dönemde saptanan tübüler tipte ileal duplikasyonlu iki olgu literatür eşliğinde tartışıldı.

Akut karın ağrısı yakınması ile başvuran 17 ve 10 yaşlarındaki iki olgu; ultrasonografilerinin apandisit ile uyumlu olması sebebiyle operasyona alındılar. Eksploreyonda ilk olguda gangrenöz ve ikinci olguda perforé apandisit saptanarak appendektomi uygulandı. Aynı zamanda olgularda sırasıyla ileoçekal valvden 40 cm ve 80 cm uzaklıkta uzunlukları 6 cm ve 8 cm olan, proksimal uçtan bağırsak lümeni ile ilişkili tübüler tipte ileal duplikasyonlar tespit edildi. Her iki olguda da duplike olan bağırsak rezekt edilerek uç uca anastomoz ile bağırsak devamlılığı sağlandı. Histopatolojik incelemeleri ileal duplikasyon ile uyumlu idi. Ektopik doku saptanmadı.

Ektopik mukozaya bulandırmayan sınırlı sayıda gözlemimize göre, duplikasyonların ileum ile proksimal uçtan ilişkili olmalarına rağmen ileri yaşlara kadar asemptomatik kaldıkları sonucuna varıldı.

Anahtar kelimeler: Duplikasyon, ileum, akut karın

Summary

Asymptomatic intestinal duplications: two cases reports and review of the literature

Duplications of gastrointestinal tract are rare congenital anomalies. The small intestine is the most common site. The diagnosis is usually made before two years. Clinical presentation is non-specific and variable according to location, size and the type of mucosal lining. In this study, we present asymptomatic, incidentally diagnosed two cases of tubular ileal duplications and review the literature.

Two patients, aged 17 and 10, presented with signs of acute abdomen, and their ultrasonographies of abdomen demonstrated appendicitis, so they underwent surgery. During exploration gangrenous and perforated appendicitis were diagnosed. Appendectomies were performed. At that time, 40 cm and 80 cm from the ileocecal valve, 6 cm and 8 cm length communicating with proximal end tubular ileal duplications were found. Both duplications were resected with portion of the adjacent ileum and intestinal continuity restored by end-to-end anastomosis. Histopathologic studies showed ileal duplications that did not contain any ectopic tissue.

We conclude that, ileal duplications despite their continuity with the proximal end can be asymptomatic due to lack of ectopic mucosa.

Key words: Duplication, ileum, acute abdomen

Giriş

Sıklıkla ince bağırsaklarda bulunan gastrointestinal sistem duplikasyonları ender görülen doğumsal anomalilerdir. Yaşam boyu asemptomatik kalabilirler bu nedenle gerçek oran bilinmemektedir. Li ve ark.'nın (12) çalışmasında 1/10000 canlı doğumda görüldüğü bildirilirken, başka bir çalışmada bu oran 1/4500 olarak bildirilmiştir (16).

2014'de Trabzon'da yapılan XXXII. Ulusal Çocuk Cerrahisi Kongresi'nde poster olarak sunulmuştur

Adres: Uzm. Dr. Feride Mehmetoğlu, Dörtçelik Çocuk Hastanesi, Ertuğrul Mah. 16140 Bursa

Alındığı tarih: 02.11.2014

Kabul tarihi: 06.07.2015

Gastrointestinal sistem duplikasyon olguları genellikle 2 yaş altında tespit edilmektedir, erişkin yaşta saptanmaları çok enderdir. Değişik serilerde % 85 (2), % 74 (7), 2 yaş altında saptanmışlardır. Karnak ve ark.'nın (9) çalışmasında olguların % 69'u 1 yaş altında, Sander ve ark.'nın (15) 9 olguluk serisinde ise yaş ortalaması 38 gün olarak rapor edilmiştir. Gastrointestinal sistem duplikasyonlarının antenatal tanısı mümkündür ve antenatal tanı alan hastaların oranı yıllar içinde artmaktadır. Çeşitli serilerde bu oran % 54 (5), % 50 (16) ve % 40 (13) olarak bildirilmiştir. Yaşam boyu asemptomatik de kalabilirler.

Bu çalışmada ileri yaşa kadar asemptomatik kalan ve

appendektomi esnasında tesadüfen saptanan, proksimal uçtan intestinal sistem ile ilişkili histopatolojik incelemelerinde ektopik doku saptanmayan iki olgu sunulmuştur.

Olgu 1: On yedi yaşında kız hasta 2 gündür devam eden karın ağrısı ve mide bulantısı yakınmaları ile acil servise başvurdu. Özgeçmişinde bir özellik olmayan hastanın fizik muayenesinde akut karın bulguları mevcuttu. Rutin laboratuvar tetkikleri ve ultrasonografisi apandisit ile uyumluydu. Akut karın ön tanısı ile operasyona alınan hastada gangrenöz apandisit saptandı. Appendektomiyi takiben Meckel divertikülü taraması için yapılan distal ileum kontrolünde ileoçekal valvin 40 cm proksimalinde 6 cm uzunluğunda, mezenterik yüzde, ileum ile proksimal uçtan ilişkili, kör sonlanan, beraberindeki ileum ansı ile aynı çapta ve retansiyon bulgusu olmayan ileal duplikasyon saptandı. Multipl duplikasyon ve ek patolojiler açısından batın eksplorasyonu yapıldı, başka patoloji saptanmadı. Tübüler duplikasyon kendisine komşu ileum ansı ile beraber rezeke edildi (Resim 1). İleoileal anastomoz iki kat üzerinden Connell (4/0 polyglactin) ve Lembert (5/0 polyglac-



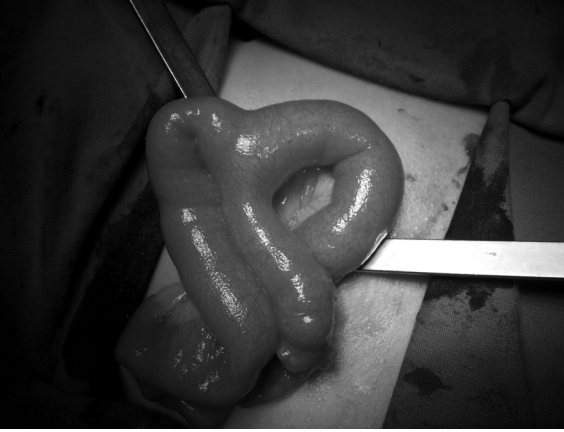
Resim 1. Birinci olgu, ileum ile aynı çapta retansiyon bulgusu olmayan ileal duplikasyon görülmektedir.

tin) sütürlerle yapıldı. Batın içine dren konulmadı. Spesimenin makroskobik incelemesinde çifte namlusu bağırsak ansı görüldü (Resim 2). Ameliyattan sonra ikinci gün beslenen hasta bu dönemi normal seyrinde sorunsuz geçirdi ve 5. gün taburcu edildi. Parçanın histopatolojik incelemesinde her iki lümenin de normal intestinal mukozaya kaplı olduğu; inflamasyon, ülserasyon, kanama ve ektopik mukozaya görülmediği rapor edildi. Hasta 2 yıldır sorunsuz olarak izlenmektedir.



Resim 2. Birinci olgu. Makroskobik incelemede, çifte namlusu şeklindeki bağırsak ansının iç yüzü görülmektedir.

Olgu 2: On yaşında erkek hasta 3 gündür devam eden karın ağrısı, halsizlik ve iştahsızlık yakınmaları ile acil servise başvurdu. Fizik muayenede karın sağ alt kadrana lokalize ağrı ve rebound mevcuttu. Hastanın ultrasonografisi perforate apandisit olarak rapor edildi. Akut karın ön tanısı ile ameliyata alınan hastada perforate apandisit saptandı. Appendektomi sonrası eksplorasyonda, ileoçekal valvden 80 cm proksimalde 8 cm uzunluğunda ileum ile proksimal bağlantısı olan mezenterik yüzde distansiyon veya enflamasyon bulgusu olmayan tübüler ileal duplikasyon tesbit edildi (Resim 3). Duplikasyon kısa olduğu için beraberindeki ileum ansı ile beraber eksize edilerek uçta anastomoz edildi. Dren konulmadı. Yapılan batın eksplorasyonunda ek anomali tesbit edilmedi. Ameliyat sonrası dönem sorunsuz seyretti. Histopatolojik çalışmada içi boş duplike segmentin ortak mukozal duvarı gösterildi ve ektopik doku taşımadığı rapor edildi. Hasta 3 yıldır sorunsuz olarak izlenmektedir.



Resim 3. İkinci olgu, mezenterik yüzde ileum ile proximal uçtan ilişkili, 8 cm uzunluğunda kör sonlanan beraberindeki ileum ansı ile aynı çapta, retansiyon bulgusu olmayan ileal duplikasyon görülmektedir.

Tartışma

Gastrointestinal sistem duplikasyonları, standart tedavisi cerrahi olan yenidoğan, infant veya daha ender olarak çocukluk yaş grubunda rastlanılan doğumsal anomalilerdir ^(10,16). Duplikasyon olgularında ek doğumsal anomali oranı sıklıkla vertebraya ait olmak üzere % 15-17 olarak bildirilmiştir ^(2,16). Erkek kız oranı değişik serilerde farklı bulunmuştur. Olgularımızın biri kız diğeri erkekti ve her iki olguda da ek doğumsal anomali mevcut değildi.

En sıklıkla ileumda görülmekle beraber duplikasyonlar ağızdan anüse kadar tüm intestinal sisteme yerleşebilirler. Değişik serilerde, ileumda görülme sıklığı % 44 ⁽¹²⁾, % 50 ⁽²⁾ olarak belirtilmiştir. Yetmiş üç olguluk bir çalışmada % 31,5 ile en çok ileum, ardından sırası ile % 30,2 ileoçekal valv, % 9,6 duodenum, % 8,2 mide ve jejunum, % 6,8 kolon ve en az % 5,5 rektum olarak rapor edilmiştir ⁽¹³⁾. Aynı kişide birden fazla yerde duplikasyon görülebilir. Bower ve ark. ⁽²⁾ hastaların % 15'inde multipl duplikasyon tespit etmişlerdir.

Duplikasyonlar kistik veya tübüler yapıda, iç yüzleri farklı mukozalar ile örtülü, intestinal sistemle ilişkili veya ilişkisiz olabilirler. Farklı seriler incelendiğinde çalışmaların çoğunda semptom veren duplikasyonların tüme yakınının kistik yapıda olduğu bulunmuştur; 38 olguluk seride 33 olguda, ⁽⁹⁾ 9 olguluk serinin tümünde ⁽¹⁵⁾ ve 102 olguluk seride 101 olgu ⁽⁵⁾ kistik idi. Ektopik mukoza en çok ince bağırsak ve ileoçekal bölgedeki duplikasyonlarda tespit edilmiştir. İnce

bağırsak ve özofageal duplikasyonlarda solunum sistemine ait ektopik mukoza bildirilen çalışmalar da mevcuttur ⁽⁵⁾.

Batın içine yerleşen duplikasyonlar; kusma, abdominal distansiyon, ağrı, kitle hemoperitoneum, melena, rektal prolapsus, perineal abse veya kronik konstipasyon gibi başlıca gastrointestinal sistem bulguları ile karşımıza çıkarken toraks içine yerleşenlerde ise disfaji, pnömoni, solunum sıkıntısı gibi solunum sistemi bulguları ile beraber gastroözofageal reflü de görülebilir ^(2,7,10). Tübüler ileal duplikasyonlar normal bağırsak ile proksimalden birleşmiş ise intestinal içerik ile dolup distansiyon ve kitle oluşturarak komşu bağırsağa bası ile ileusa neden olurlar ⁽¹⁷⁾. Her iki olgumuzun da adölesan döneme kadar appendisit öncesi gastrointestinal sistem ile ilgili yakınmaları olmamıştı. Tanı konulan duplikasyonların sayısı, antenal tanı ve laparoskopik ameliyatların artması ile orantılı olarak hızla artmaktadır ^(5,13). Duplikasyonlar yaşam boyu asemptomatik kalabileceği gibi hayatın herhangi bir döneminde komplike hâle gelerek semptom verebilirler. Literatürde komplike duplikasyon nedeniyle opere edilen en yaşlı hasta 79 yaşındadır ⁽¹¹⁾.

Tübüler ileal duplikasyonların cerrahi tedavisinde en önemli nokta duplikasyonun uzunluğudur. Duplikasyona komşu segment ile paralel aynı mezenterden beslenen bağırsak ansının eksizyonu hasta için önemli bir kayıp değilse duplikasyon ile beraber bu bağırsak ansı da rezeke edilir. Bağırsak kaybının fazla olacağı olgularda, rezeksiyon yerine bağırsak korunarak duplike segment için mukozal soyma tekniği önerilmektedir. Uygun klivaj ile yalnızca duplikasyonun rezeke edilebildiği de bildirilmiştir ⁽¹⁴⁾. Enüklasyon veya unroofing de radikal cerrahinin mümkün olmadığı olgularda uygulanan diğer yöntemlerdir ⁽⁵⁾. Ameliyat esnasında frozen biopsi inceleme ile ektopik doku varlığı tespiti, uzun segment duplikasyonların rezeksiyonu konusunda yol gösterici olabilir ⁽³⁾. İleal duplikasyonlar sıklık açısından ilk sırada yer alırken malignensi açısından kolorektal duplikasyonların ardından ikinci sıradadır. Bu nedenle duplike segment mümkün ise tamamen çıkarılmalıdır ^(6,8).

Olgularımızda duplike segmentler 6 cm ve 8 cm uzunluklarında olup kısa oldukları için, duplikasyon ile beraber komşu segmentin de rezeksiyonu ve anastomozu tercih edilmiştir. Her iki olgumuzda da

akut karını açıklayan gangrenöz ve perforate apandisit saptanmasına rağmen, distal ileumun Meckel divertikülü veya diğer ek patolojiler açısından gözden geçirilmesi esnasında duplikasyonlar teşhis edilmiştir. Peritonitli olgularda bağırsak anastomozu yapılması tartışmalıdır⁽⁴⁾. Klinik uygulamamızda apandisit nedeni ile opere edilen, peritonit tablosu olsun olmasın tüm olgularda saptanan Meckel divertikülü, duplikasyon vb. intestinal patolojilere aynı seansta rezeksiyon ve anastomoz uygulanmaktadır. Bu işleme ait bir komplikasyon görülmemiştir. Klinik serimizde son 5 yılda batin operasyonu geçiren 1000 olgudan 2'sinde tesadüfen duplikasyon olduğu saptanmıştır. Olgu sayımızın az olması ve yalnızca asemptomatik tübüler ileal duplikasyonların saptanması nedeniyle kesin bir oran verilemese de literatüre göre değerlendirildiğinde bu oranın fazla olduğu tespit edildi⁽¹⁶⁾. Yalnızca klinik tablo ile uyumsuz appendektomilerde değil tüm batin operasyonlarında olası Meckel divertikülü veya duplikasyonlar olabileceğinin akılda tutulması ve eksplorasyon gerektiği düşünülmelidir. Apandisit nedeni ile appendektomi uygulanan ve ameliyat sonrası ağrıları devam eden 25 yaşındaki erkek hastaya 3 yıl, 32 yaşındaki kadın hastaya ise 8 yıl sonra ileal duplikasyon nedeniyle operasyon uygulandığı rapor edilmiştir^(1,12).

Tübüler duplikasyonlar, eşlik ettiği bağırsak ansı ile proksimal uç, distal uç veya her iki uçtan ilişkili olurlar ve bu birleşme yerine göre klinik farklılıklar gösterirler. Proksimal uçtan bağırsak lümeni ile ilişkili olan olgularda bağırsak içeriği duplikasyon içerisinde birikip retansiyona neden olarak kitle oluşturabilir⁽¹⁴⁾. Yüz iki olguluk bir çalışmada 26 ileal duplikasyonun 21'inde ektopik doku bulunmuştur⁽⁵⁾. Duplikasyonlarda ektopik doku mevcut ise ektopik dokunun yapısına göre ülser, kanama veya oluşan retansiyon nedeni ile erken yaşlarda semptomatik hâle gelirler. Olgularda tesadüfen saptanan tübüler duplikasyonlar yalnızca proksimalden, peristaltizm yönünde bağırsak lümeni ile bağlantılı olmalarına rağmen literatürde bildirildiği şekilde 6 ve 8 cm'lik duplikasyonlar içerisinde bağırsak muhtevası birikmediği gibi mukus retansiyonu da oluşmamıştır. İki olguda da duplikasyona bağlı obstrüktif bir durumun oluşmamasında, literatürde bildirilenlere göre daha kısa segment tübüler duplikasyon olmaları ve ektopik mukoza içermemeleri nedeniyle ergenlik dönemine kadar asemptomatik kaldıkları düşünülmektedir.

Görüntüleme tekniklerinin ilerlemesine paralel olarak literatürde artan sayılarla bildirilen asemptomatik duplikasyon olgularına rağmen hemen hemen tümünde kesin tanı operasyon anında konulmaktadır ve duplikasyonun özelliklerine göre ameliyat sırasında cerrahi tedavi planına karar verilmektedir. Bu çalışmada olduğu gibi görüntüleme yöntemlerine rağmen, tanı almamış pek çok duplikasyon olgusu ise başka nedenler ile yapılan operasyonlar sırasında tesadüfen saptanabilmektedir. Sonuç olarak, ender de olsa bu gibi sürpriz durumlarda uygun cerrahi tedaviye karar verilebilmesi için her çocuk cerrahının duplikasyonların anatomisi ve operasyon seçenekleri hakkında bilgi sahibi olması gerekmektedir. Akut karın nedeni ile yapılan girişimlerde asemptomatik duplikasyonlar akılda tutulmalıdır.

Kaynaklar

1. Bijalvan A, Sharma P, Sharma S. Duplication of small gut presenting as obstruction in an adult patient: a rare clinical presentation. *Journal of Evolution of Medical and Dental Sciences* 2014;3:1218. <http://dx.doi.org/10.14260/jemds/2014/1971>
2. Bower RJ, Sieber WK, Kiesewetter WB. Alimentary tract duplications in children. *Ann Surg* 1978;188:669. <http://dx.doi.org/10.1097/00000658-197811000-00015>
3. Chandramouli PI, Mahour GH. Duplications of the alimentary tract in infants and children. *J Pediatr Surg* 1995;30:1267. [http://dx.doi.org/10.1016/0022-3468\(95\)90482-4](http://dx.doi.org/10.1016/0022-3468(95)90482-4)
4. Frileux P, Attal E, Sarkis R, et al. Anastomotic dehiscence and severe peritonitis. *Infection* 1999;27:67. <http://dx.doi.org/10.1007/BF02565177>
5. Guerin F, Podevin G, Petit T, et al. Outcome of alimentary tract duplications operated on by minimally invasive surgery: a retrospective multicenter study by the GECl. *Surg Endosc* 2012;26:2848. <http://dx.doi.org/10.1007/s00464-012-2259-7>
6. Haifen M, Weihua X, Junqiang L, et al. Clinical and pathological analysis of malignancies arising from alimentary tract duplications. *Surgical Oncology* 2012;21:324. <http://dx.doi.org/10.1016/j.suronc.2012.09.001>
7. Holcomb GW III, Gheissari A, O'Neill Jr. JA, et al. Surgical management of alimentary tract duplications. *Annals of Surgery* 1989;209:167. <http://dx.doi.org/10.1097/00000658-198902000-00006>
8. Inoue Y, Nakamura H: Adenocarcinoma arising in colonic duplication cysts with calcification. CT findings of two cases. *Abdom Imaging* 1998;23:135. <http://dx.doi.org/10.1007/s002619900305>
9. Karnak I, Ocal T, Senocak ME, et al. Alimentary tract duplications in children: report of 26 years' experience. *Turk J Pediatr* 2000;42:118.
10. Kazez A, Özel ŞK, Kocakoç E, et al. Çekumda duplikasyon kisti perforasyonu: Ender bir olgu. *Fırat Tıp Dergisi* 2005;10:185.

11. Lopez MJ, Bradley TH, Harrison AJ, et al. Perforated tubular duodenal duplication in a 79 year old woman: Case report and review of the literature. *International Journal of Surgery Case Reports* 2013;4:623. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijscr.2013.03.030>
12. Li BL, Huang X, Zheng CJ, et al. Ileal duplication mimicking intestinal intussusception: A congenital condition rarely reported in adult. *World Journal of Gastroenterology* 2013;19:6500. <http://dx.doi.org/10.3748/wjg.v19.i38.6500>
13. Puligandla PS, Nguyen LT, St-Vil D, et al. Gastrointestinal duplications. *J Pediatr Surg* 2003;38:740. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2003.50197>
14. Raffensperger JG. Swenson's Pediatric Surgery, Fifth edition, Appleton&Lange, Norwalk, Connecticut 1990; S: 579.
15. Sander S, Sarımurat N, Erdoğan E. Midgut kökenli sindirim kanalı duplikasyonları: 9 olgunun bildirilmesi. *Pediyatrik Cerrahi Dergisi* 1991;5:98.
16. Schalamon J, Schleef J, Höllwart ME. Experience with gastro-intestinal duplications in childhood. *Langenbeck's Arch Surg* 2000;385:402. <http://dx.doi.org/10.1007/s004230000170>
17. Temiz A, Oğuzkurt P, Ezer SS, et al. Different clinical presentations, diagnostic difficulties, and management of cecal duplication. *J Pediatr Surg* 2013;48:550. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2012.07.048>