

ENTERIČKA DUPLIKACIJSKA CISTA U NOVOROĐENAČKOM RAZDOBLJU

ZORA ZAKANJ

Klinički bolnički centar Sestre milosrdnice, Klinika za ginekologiju i porodništvo, Zagreb, Hrvatska

Dijagnostika novorođenačkih malformacija posljednjih desetljeća je sve uspješnija zahvaljujući napretku ultrazvučne dijagnostike. Cistične intra-abdominalne tvorbe mogu se uspješno dijagnosticirati već prenatalno, najčešće u trećem tromjesečju, uglavnom kao izolirane jednostrane lezije u inače zdravih fetusa. Uz postojanje intra-abdominalnih cista u novorođenčeta treba tragati za bolestima mokraćnog i probavnog sustava te anomalijama srca i kralješnice. Prikazani su dijagnostička obrada i perinatalni tijek u ženskog novorođenčeta s enteričkom duplikacijskom cistom.

Ključne riječi: ciste, ileum, novorođenče, perinatologija, ultrazvuk abdomena, magnetska rezonancija abdomena

Adresa za dopisivanje: Prof. dr. sc. Zora Zakanj, dr. med.
Klinički bolnički centar Sestre milosrdnice
Klinika za ginekologiju i porodništvo
Vinogradska cesta 29
HR-10000 Zagreb, Hrvatska
Tel: 00385 1 378 72 95; e-pošta: zora.zakanj@hotmail.com

UVOD

Enteričke duplikacijske ciste (EDC) su prirodene anomalije koje se mogu naći u bilo kojem dijelu probavnog sustava od usta do anusa, najčešće u području ileuma. Etiološki gledano, radi se o poremećajima u embrionalnom razvoju probavnog sustava, najčešće zbog poremećene rekanalizacije crijevnog lumena. Postoji i teorija neurenteričke duplikacije, prema kojoj EDC mogu biti udružene s anomalijama kralješnice (1). Nepovoljni okolišni činitelji tijekom fetalnog razvoja, poput traume i hipoksije, mogu biti uzročno-posljedično povezani s multiplim duplikacijama, malrotacijama i atrezijama probavne cijevi (2). Ovisno o autorima, pojavnost se kreće od 1: 4500 - 5000 poroda (3).

Prvi UZV prikaz EDC ciste bilježi se 1984. godine, kada su ga opisali Dam i sur. (4), iako se kao klinički entitet u literaturi pojavljuje još sredinom 18. stoljeća (5). Sumnja na EDC u antenatalnom razdoblju postavi se u oko 20-30 % slučajeva (6), dok se ostatak zamijećenih cističnih promjena u truhu, posebno u ženskih fetusa, najčešće pripisuje cistama jajnika (7). Ako se ne dijagnosticiraju antenatalno, te tijekom dojenačkog razdoblja ostanu asimptomatske, mogu se dijagnosticirati kasnije u djetinjstvu (8). U blažim kliničkim

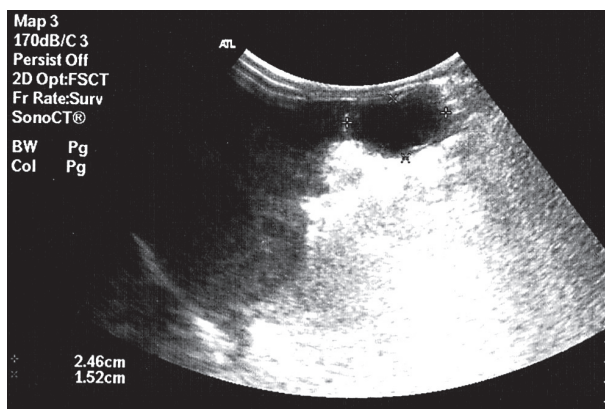
oblicima mogu uzrokovati nenapredovanje na težini djeteta ili konstipaciju, a u težim oblicima volvulus ili intususcepciju. Pojava simptoma ovisi o lokalizaciji, veličini, obliku i tipu EDC-a (9). U odnosu na lumen crijeva EDC se pojavljuju u dva oblika: komunikacijske i nekomunikacijske. Nekomunikacijske se u praksi češće viđaju. U preko 95 % slučajeva su solitarne, a znatno rjeđe se radi o multiplim EDC (10).

U diferencijalnoj dijagnozi treba misliti na malrotaciju, Meckelov divertikul, mezenterijske i medijastinalne ciste, bilijarne ciste, ciste gušterače, displastični bubreg i tumore (limfangiom, adenokarcinom) (11).

Pri potvrdi dijagnoze EDC potrebno je pomno kliničko praćenje od ultrasoničara i dječjeg kirurga, te pravodobno kirurško liječenje resekcijom zahvaćenog segmenta. Od ranih komplikacija moguća su krvarenja, perforacija, fistule, ulceracije i opstrukcija, dok je maligna alteracija duplikacijski promijenjenog segmenta jedan od mogućih dugoročnih nepovoljnih ishoda. Stoga se većina autora slaže da je kirurško liječenje metoda terapijskog izbora, naročito u današnje vrijeme u kojem je moguće korištenje metoda minimalno invazivne kirurgije (12).

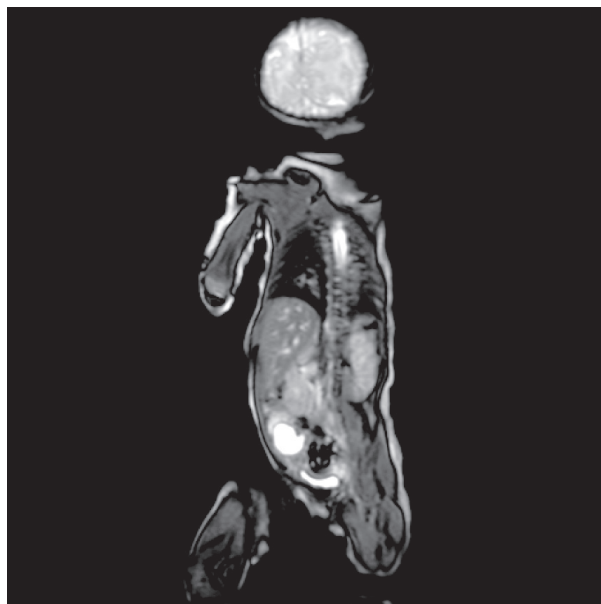
PRIKAZ BOLESNIKA

Žensko novorođe M.N. rođeno je iz treće kontrolirane trudnoće zdrave 28-godišnje majke. Obiteljska anamneza bila je uredna. Prenatalnim UZV praćenjem se od 22. tjedna gestacije sve do poroda prikazivala cistična tvorba u desnoj polovici trbuha, pod sumnjom na cistu desnog jajnika. Promjer tvorbe je u 22. tjednu bio 10 mm, a u 37. tjednu trudnoće iznosio 21 mm. Ostala fetalna morfologija, količina plodove vode i veličina posteljice su bili uredni. Porod je uslijedio na vrijeme, urednog tijeka i bez komplikacija. Porodna masa novorođeta bila je 3040 g, porodna duljina 49 cm, a ocjena vitalnosti prema Apgarovoj 10/10. Klinički pregled novorođeta, te njegov daljnji perinatalni tijek bili su bez odstupanja. S obzirom na anamnestički podatak o fetalnom UZV praćenju i činjenicu suspektne fetalne intraabdominalne tvorbe, u drugom danu života je u rodilištu učinjen UZV abdomena kojim je potvrđena cistična promjena subhepatalno, promjera 25 x 15 mm, sa stijenkom debljine 2 mm i nešto ehogenijim, pretežno bistrim sadržajem unutar lumena (sl. 1.). Nalaz magnetske rezonancije (MR) je potvrdio postojanje bisagaste cistične promjene (sl. 2.), jednake veličine kao na UZV pregledu. Tvorba je bila smještena ispod i iza cekuma, u cijelosti okružena stijenkom. S obzirom da je opisana tvorba bila oštro ograničena, da se uz nju nije prikazivalo tkivo jajnika niti druge okolne promjene, postavljena je sumnja da se radi o EDC. Svi hematološki i biokemijski nalazi u djeteta, kao i UZV mozga i srca bili su bez odstupanja. Nisu nađene anomalije kralješnice. Nalaz rtg-a srca i pluća bio je uredan.



Sl. 1. Ultrazvučni prikaz enteričke duplikacijske ciste smještene subhepatalno

Nakon otpusta iz rodilišta, dijete je upućeno dječjem kirurgu zbog daljnje dijagnostičke obrade i praćenja. Ultrazvučno praćenje je pokazivalo smanjenje tvorbe čiji je promjer krajem prvog mjeseca iznosio 20 mm, a krajem trećeg mjeseca 12 mm. Promjer tvorbe se smanjuje, a dijete uredno napreduje uz praćenje dječjeg kirurga s ciljem postavljanja pravodobne indikacije za kirurško liječenje.



Sl. 2. MRI prikaz enteričke duplikacijske ciste smještene subhepatalno

RASPRAVA

Suvremeni nadzor trudnoće, a posebno UZV praćenje fetalne morfologije, omogućilo je značajan napredak u ranom otkrivanju raznih anomalija, pa tako i cističnih promjena u trbuhu fetusa. Iako promjene nastaju između 6. i 8. tjedna gestacije, UZV se najčešće otkrivaju između 18. i 22. tjedna trudnoće (13). Chen i sur. su UZV postavili dijagnozu EDC već u 12. tjednu gestacije (14). U slučaju diferencijalno-dijagnostičkih dvojbi, pored UZV-a preporuča se učiniti pregled MR (15), koji je metoda izbora ne samo u dijagnostici EDC, već i mogućih pridruženih anomalija. S neonatološkog aspekta, prenatalno postavljena sumnja na EDCi zahtijeva detaljan klinički pregled novorođeta neposredno nakon rođenja, uz slikovnu dijagnostiku i isključivanje mogućih pridruženih anomalija. Obje metode koje smo koristili u našem slučaju, i UZV i MR, pokazale su gotovo jednake rezultate s obzirom na veličinu, oblik i sadržaj cistične promjene, dok je postojanje dvostruke stijenke ukazivalo u prilog EDC. Većina autora u novijim izvještajima o EDC i usporedbi slikovnih dijagnostičkih metoda prikazuje gotovo identične rezultate u korištenju obju navedenih metoda (16,17). Ultrazvučna metoda je dostupnija, jeftinija i praktičnija za izvedbu, dok je MR metoda izbora u konačnoj dijagnozi i isključivanju pridruženih anomalija.

Gotovo jedna trećina novorođenačadi s EDC ima pridružene anomalije od kojih su najčešći defekti kralješnice, sekvestracija pluća, kongenitalna cistična adenomatoidna malformacija i srčane greške (18).

U našem se slučaju radilo o izoliranoj EDC bez pridruženih malformacija. Osim toga, dijete je bilo bez znakova koji bi upućivali na komplikacije povezane s EDC, uz postepenu, ali ne i cjelovitu regresiju EDC. Stoga se u našem slučaju još uvijek čeka na pravodobnu procjenu o izvođenju kirurškog zahvata s obzirom na dob djeteta, a zahvat se planira unutar prve godine života. Postoje izvještaji o masivnim EDC, koji su zahtijevali antenatalnu intervenciju (19). Međutim, u pretežitom broju slučajeva EDC se kirurški liječe u prvih nekoliko mjeseci života (20).

U prikazanom slučaju radilo se o antenatalno postavljenoj sumnji na EDC koja je dijagnosticirana UZV u drugom danu života, i potvrđena MR. Smatramo da je za neonatološko praćenje i perinatalni tijek izuzetno važno poznavanje činjenica iz antenatalnog razdoblja, što je važan čimbenik kvalitetne rane dijagnoze i kvalitetnog daljnjeg praćenja i liječenja.

L I T E R A T U R A

1. Puligandla PS, Nguyen LT, St-Vil D i sur. Gastrointestinal duplications. *J Pediatr Surg* 2003; 38: 740-4.
2. Stern LE, Warner BW. Gastrointestinal duplications. *Semin Pediatr Surg* 2000; 9: 135-40.
3. Zahir I, Yusuf S, Zada F, Asif M, Akhtar N, Abbasi MZ. Duplication cyst in a newborn. *Int J Pathol* 2010; 8: 84-6.
4. Van Dam Lj, DeGroot CJ, Hazelbrock FW, Waldimiroff JW. Case report: Intrauterine demonstration of bowel duplication by ultrasound. *Gynecol Reprod Biol* 1984; 18: 229-32.
5. Keckler SJ, Holcomb GW. Alimentary tract duplications. U: Holcomb GW and Murphy JP, eds. *Aschcrafts Paediatric Surgery*. 5th edition. Philadelphia, Pa, USA: Sanders Elsevier, 2010, pp 517-25.
6. Gul A, Tekoglu G, Asian H i sur. Prenatal sonographic features of esophageal and ileal duplications at 18 weeks gestation. *Prenatal Diagn* 2004; 24: 969-71.
7. Turgal M, Ozyuncu O, Yazicioglu A. Outcome of sonographically suspected fetal ovarian cysts. *J Matern Fetal Neonatal Med* 2013; 26: 1728-32.
8. Bubnar J. Pojava Meckelovog divertikulitisa u ranom postoperativnom tijeku nakon apendektomije. *Acta Med Croatica* 2013; 67: 65-8.
9. Somoncu S, Cakmak M, Caglayan E, Unal B. Intestinal duplication cyst associated with intestinal malrotation anomaly: report of case. *Acta Chir Belg* 2006; 106: 611-2.
10. Ben-Ishay O, Connolly SA, Buchmiller TL. Multiple duplication cysts diagnosed prenatally: case report and review of the literature. *Pediatr Surg Int* 2013; 29: 397-400.
11. Ozyuncu O, Canpolat FE, Ciftci AO, Yurdakok M, Onderoglu LS, Deren O. Perinatal outcomes of fetal abdominal cysts and comparison of prenatal and postnatal diagnoses. *Fetal Diagn Ther* 2010; 28: 153-9.
12. Lima M, Molinaro F, Ruggeri G, Gargano T, Randi B. Role of mini-invasive surgery in the treatment of enteric duplications in pediatric age: a survey of 15 years. *Pediatr Med Chir* 2012; 34: 217-22.
13. Teunissen J, Dams A, Bruneel E. Prenatal detection of an enteric duplication cyst. *Acta Chir Belg* 2013; 113: 355-6.
14. Chen M, Lam YH, Lin CL. Sonographic features of ileal duplication cyst at 12 weeks. *Prenat Diagn* 2002; 22: 1067-70.
15. Gupta P, Sharma R, Kumar S i sur. Role of MRI in fetal abdominal cystic masses detected on prenatal sonography. *Arch Gynecol Obstet* 2010; 281: 519-26.
16. Cheng G, Soboleski D, Daneman A, Poenaru D, Hurlbut D. Sonographic pitfalls in the diagnosis of enteric duplication cysts. *Am J Roentgenol* 2005; 184: 521-5.
17. Correia-Pinto J, Tavares ML, Monteiro J, Moura N, Guimaraes H, Estevas-Costa J. Prenatal diagnosis of abdominal enteric duplications. *Prenat Diagn* 2000; 20: 163-7.
18. Laje P, Flake AW, Adzick NS. Prenatal diagnosis and postnatal resection of intraabdominal enteric duplications. *J Pediatr Surg* 2010; 45: 1554-8.
19. Ness A, Bega G, Wood DC, Baxter J, Weiner S, Berghella V. Massive fetal duplication requiring antenatal intervention. *J Ultrasound Med* 2006; 25: 785-90.
20. Vivier PH, Beurdeley M, Bachy B i sur. Ileal Duplication. *Diagn Interv Imaging* 2013; 94: 98-100.

S U M M A R Y

ENTERIC DUPLICATION CYST IN NEONATAL PERIOD: CASE REPORT

Z. ZAKANJ

Sestre milosrdnice University Hospital Center, Clinical Department of Gynecology and Obstetrics, Zagreb, Croatia

In recent decades, diagnosis of neonatal malformations has shown growing success thanks to advances in ultrasound diagnostics. Intra-abdominal cystic formation can be successfully diagnosed prenatally, most often in the third trimester, mainly as isolated unilateral lesions in otherwise healthy fetus. With the existence of intra-abdominal cyst in neonate, it is necessary to exclude urinary tract anomalies and abnormalities of the heart and the spine. We present diagnostic procedure and perinatal outcome of a female newborn with enteric duplication cyst.

Key words: cyst, ileum, infant, perinatology, ultrasonography, abdominal magnetic resonance imaging