

ILEOILEALNA INVAGINACIJA U PACIJENTA S PEUTZ-JEGHERSOVIM SINDROMOM

Tomislav Pavlović¹, Krešimir Luetić², Zvonimir Sučić¹, Sanja Baršić-Ostojić¹,
Franka Jelavić-Kojić¹, Natko Beck¹

¹Zavod za radiologiju, Klinička bolnica „Sveti Duh”, Sveti Duh 64,
HR-10000 Zagreb, Hrvatska

²Zavod za gastroenterologiju i hepatologiju, Klinika za unutarnje bolesti, Klinička bolnica
„Sveti Duh”, Sveti Duh 64, HR-10000 Zagreb, Hrvatska

Autor za dopisivanje: Tomislav Pavlović, dr. med.
Zavod za radiologiju, Klinička bolnica „Sveti Duh”, Sveti Duh 64,
HR-10000 Zagreb, Hrvatska
e-pošta: tpavlovic2@gmail.com

Prikaz slučaja

Primljeno: 11. prosinca 2015. Prihvaćeno: 20. siječnja 2016.

Sažetak

Invaginacija je rijedak uzrok akutne intestinalne opstrukcije u odraslih i u njih uzrokuje oko 1 % svih intestinalnih opstrukcija. Odrasli pacijenti čine otprilike 5 % svih slučajeva invaginacije. Dijagnozu je teško utvrditi zbog nespecifične prirode simptoma. Predstavlja se slučaj ileoilealne invaginacije uzrokovane polipom u pacijenta odrasle dobi s Peutz-Jeghersovim sindromom. Dijagnoza je postavljena na temelju MR enterografije i kolonoskopije.

Ključne riječi: Invaginacija; Peutz-Jeghersov sindrom - dijagnoza; Adolescent; Ženska osoba; Prikazi slučajeva

Uvod

Intususcepcija ili invaginacija podrazumijeva uvlačenje proksimalnoga segmenta crijeva (*intususceptum*) u lumen distalnoga segmenta (*intususcipiens*). Rijetko dolazi do retrogradne intususcepcije, odnosno uvlačenja distalnoga segmenta u proksimalni segment (1).

Intestinalna invaginacija ili intususcepcija vodeći je uzrok intestinalne opstrukcije u djece, ali u odraslih čini oko 5 % svih opstrukcija i 1-5 % svih intestinalnih opstrukcija (2,3). Intususcepcija je kod djece u 90 % slučajeva idiopatska, dok u odraslih postoji polazišna točka koja je dobro definirana patološka promjena u 70-90 % slučajeva (4-6).

Prikaz slučaja

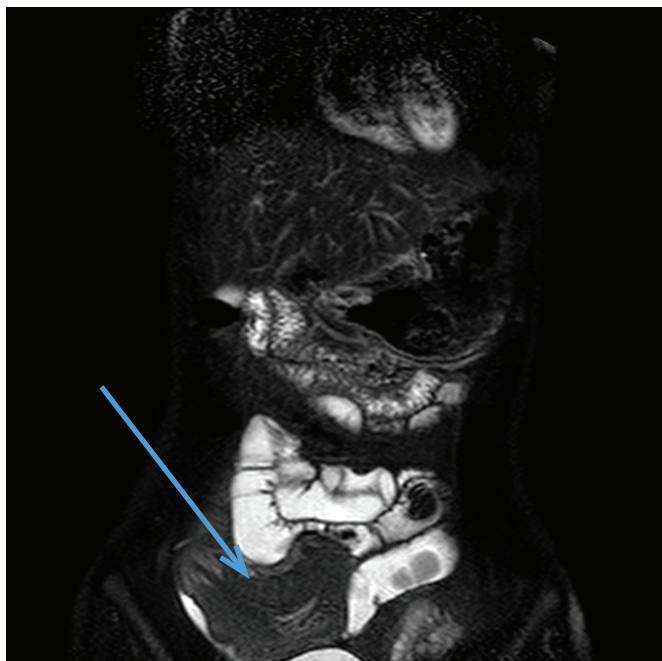
Osamnaestogodišnja pacijentica primljena je u hitnu službu zbog bolova u abdomenu u donjem desnom kvadrantu s difuznim širenjem po cijelome abdomenu, koji su trajali pet tjedana. Dva tjedna prije prijema u bolnicu bolovi su se intenzivirali i trajali po 15-20 minuta.

U učinjenim laboratorijskim nalazima prisutna je sideropenična anemija uz pozitivan test Hemokult. Ultrazvučni pregled abdomena bio je uredan.

U pacijentice je učinjen pregled magnetnom rezonancijom (MR) u protokolu za enterografiju na aparatu Philips Achieva 1.5T u sekvencama BTfE, T2 SPAIR, T1 THRIVE s presjecima u aksijalnoj, koronarnoj i sagitalnoj ravnini uz primjenu peroralnoga kontrastnog sredstva otopine Manitol, subkutanu primjenu GlucaGena te intravenoznu primjenu kontrastnoga sredstva Magnevista. MR enterografijom prikazao se dvostruki lumen na dužini 20 cm unutar terminalnoga ileuma do valvule Bauchini (Slike 1.-3.).

Učinjena je i kolonoskopija s terminalnom ileoskopijom te je na oko 15 cm od valvule Bauchini nađeno invaginirano tanko crijevo s polipom na vrhu invaginiranoga dijela (Slika 4.). U rektumu je nađen polip te je učinjena polipektomija.

U daljnjoj obradi učinjena je gastroskopija i nađena je polipoza želuca.

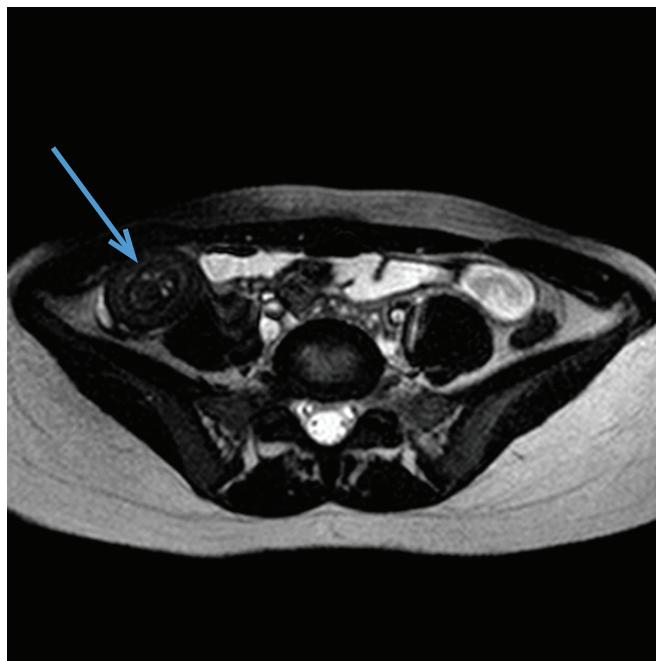


SLIKA 1.

MR enterografija koronarna sekvenca T2W SPAIR sekvenca- strelica pokazuje leziju u obliku mase

FIGURE 1

MR enterography coronal T2W SPAIR sequence - arrow demonstrates mass-like lesion



SLIKA 2.

MR enterografija aksijalna sekvenca BTFE sekvenca- strelica označava „znak mete”

FIGURE 2

MR enterography axial BTFE sequence - arrow demonstrates a “target lesion”

Rasprava

Invaginacija je rijedak uzrok intestinalne opstrukcije u odraslih te se u više od 95 % slučajeva pojavljuje u djece. Invaginacija u odraslih rijetka je patologija s incidencijom oko 2-3 slučaja na 1 000 godišnje (7).

Invaginacija se dijeli na enteričnu i koloničnu. Kada je polazišna točka u tankome crijevu, klasificira se kao enterična i obuhvaća jejunojejunalnu, ileoilealnu i ileokoloničnu invaginaciju. Kolonična invaginacija obuhvaća ileocekokoličnu, kolokoličnu, sigmoidorektalnu i apendikocekalnu invaginaciju.

Točan je mehanizam nastanka nepoznat, ali vjeruje se da bilo koja lezija u stijenci crijeva ili iritacija unutar lumena koja remeti normalnu peristaltiku može pokrenuti invaginaciju (5,8). Hrana i peristaltika stijenke crijeva dovode do konstrikcije iznad polazišne točke i relaksaciju ispod polazišne, što dovodi do teleskopskoga uvlačenja proksimalnoga crijeva u distalno. Kako dolazi do uvlačenja i mezenterija, dolazi do kompromitacije venskoga protoka i stvaranja edema i daljnje restrikcije krvnoga protoka. U konačnici dolazi do opstrukcije arterijskoga protoka te ishemije i nekroze stijenke.

U djece je invaginacija najčešće idiopatska ili sekun-

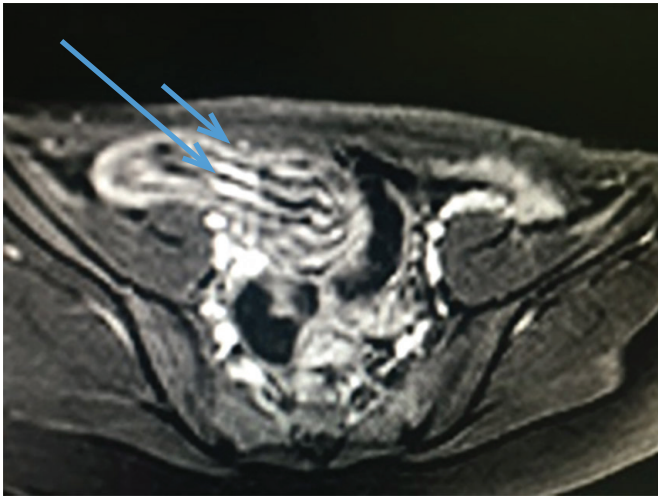
darna zbog virusne infekcije. U odraslih u više od 90 % slučajeva postoji polazišno mjesto zbog patologije koja uzrokuje invaginaciju (8,9).

Uzroci invaginacije u odraslih brojni su i obuhvaćaju:

- gastrointestinalne maligne tumore: kolorektalni karcinom, metastaze (melanoma, karcinoma dojke, karcinoma pluća) te limfom tankoga crijeva
- benigne tumore: gastrointestinalni stromalni tumor (engl. *gastrointestinal stromal tumor* - GIST), intestinalni lipom, polipoidni hemangiomi, intestinalni polip
- kongenitalne promjene: Meckelov divertikul, duplikacijska cista, ektopični pankreas
- traumatske promjene: muralni hematomi
- inflamatorne promjene: apendicitis.

Najčešći je uzrok tumor, a kod kolona maligni tumori (4,5,8,10-12).

Klinička je slika nespecifična i time teška za dijagnosticiranje. Abdominalni bolovi, mučnina, diareja i krvarenje u stolici najčešći su simptomi. Klasični su simptomi u djece abdominalna bol, povraćanje, krv u stolici i palpabilna masa, a oni se u odraslih rijetko nalaze (4). U odraslih se mogu javiti akutni, subakutni i kronični simptomi (13). Zbog toga često dolazi do previda u po-



SLIKA 3.

MR enterografija aksijalna T1 THRIVE postkontrastna sekvenca T1 THRIVE - mala strelica označava intususciptijens, velika strelica označava intususceptum

FIGURE 3

MR enterography axial T1 THRIVE postcontrast sequence - small arrow demonstrates intussusciptiens, large arrow demonstrates intususceptum

stavljanju dijagnoze te se dijagnoza često postavi unutaroperativno.

Nekoliko slikovnih metoda može pomoći u postavljanju dijagnoze: pregled barijevom kašom, ultrazvuk, kompjutorizirana tomografija (engl. *computerized tomography* - CT), itd. (7,8,14,15).

Nativna snimka abdomena najčešće je prva dijagnostička metoda koja može pokazati znakove intestinalne opstrukcije, ali i omogućiti otkrivanje mjesta opstrukcije (12,16). Kontrastne pretrage mogu pomoći u otkrivanju mjesta i razloga opstrukcije, naročito u kroničnim slučajevima. Pregled barijevom kašom kontraindiciran je kod sumnje na perforaciju ili ishemiju.

Kolonoskopija je korisna i u dijagnosticiranju invaginacije, naročito prilikom opstrukcije debelog crijeva (5,17,18). Nije preporučljivo učiniti biopsiju ili polipektomiju u pacijenta s dugotrajnim simptomima zbog rizika od perforacije, što se može dogoditi zbog kronične ishemije i nekroze zbog vaskularne kompromitacije u intususcepciji (19).

Ultrazvuk se može upotrebljavati za dijagnosticiranje invaginacije. Klasični je nalaz „znak mete” na poprečnome presjeku i „znak pseudobubrega” na uzdužnome presjeku. Glavni je nedostatak ultrazvuka nemogućnost prikaza zbog meteorizma crijevnih vijuga (17,18,20-22) i ovisnost o pregledavaču.



SLIKA 4.

Kolonoskopija prikazuje ileoilealnu invaginaciju

FIGURE 4

Colonoscopy demonstrating ileoileal intussusception

CT abdomena najkorisnija je metoda za dijagnosticiranje invaginacije, superioran u odnosu na druge kontrastne pretrage, ultrazvuk i endoskopski pregled (23-26). Dijagnostička točnost CT-a iznosi 58-100 % (4,8,13,18,27). Klasični je nalaz na pregledu CT-om „znak mete” (5,23). Vidi se troslojna slika: kanal i zid intususceptuma kao unutarnji sloj, mezenterične masti kao središnji sloj i intususciptijens kao vanjski sloj. CT je odličan za prikaz mjesta i uzroka intestinalne opstrukcije kao i za dijagnosticiranje moguće ishemije crijeva. Također daje dodatne informacije o limfadenopatiji i metastazama.

Slikovni prikaz intususcepcije prikazan MR-om sličan je prikazu CT-om (26,28).

Optimalni je tretman invaginacije u odraslih kontroverzan. Operativna je intervencija potrebna kod invaginacije u odraslih i u djece koja ne reagiraju na konzervativnu terapiju. Nekoliko je autora opisalo unutaroperativnu redukciju invaginacije prije resekcije (10). Većina autora to ne predlaže zbog visoke incidencije malignih tumora kao uzroka invaginacije i rizika tumorske embolizacije (4,7,13,14,29). Neki autori preporučuju selektivni pristup resekciji uzimajući u obzir mjesto opstrukcije koje je povezano s patologijom (5,30). Minimalno invazivne metode u odraslih se rabe u tretmanu opstrukcija tankoga i debelog crijeva prilikom invaginacije laparaskopskim zahvatima (31,32). Izbor laparaskopskoga ili otvorenoga pristupa ovisi o mjestu i proširenosti invaginacije, kliničkome stanju pacijenta, patološkome uzroku opstrukcije i iskustvu kirurga (33,34).

Zaključak

Invaginacija je rijedak uzrok akutnoga abdomena u odraslih. Postavljanje dijagnoze može predstavljati izazov zbog nespecifičnih simptoma. CT i MR metode su izbora za postavljanje dijagnoze invaginacije. Operativna tehnika i opseg resekcije ovise o dužini zahvaćenoga crijeva, uzrocima opstrukcije (benigni ili maligni) i dobi pacijenta.

LITERATURA

- Chand M, Bradford L, Nash GF. Intussusception in colorectal cancer. *Clin Colorectal Cancer*. 2008;7(3):204–5. doi: <http://dx.doi.org/10.3816/CCC.2008.n.028>. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/18621640>.
- Zubaidi A, Al-Saif F, Silverman R. Adult intussusception: a retrospective review. *Dis Colon Rectum*. 2006;49(10):1546–51. doi: <http://dx.doi.org/10.1007/s10350-006-0664-5>. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16990978>.
- Laws HL, Aldrete JS. Small bowel obstruction: a review of 465 cases. *South Med J*. 1976;69(6):733–4. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/935902>.
- Azar T, Berger DL. Adult intussusception. *Ann Surg*. 1997;226(2):134–8. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9296505>.
- Begos DG, Sandor A, Modlin IM. The diagnosis and management of adult intussusception. *Am J Surg*. 1997;173(2):88–94. doi: [http://dx.doi.org/10.1016/S00029610\(96\)00419-9](http://dx.doi.org/10.1016/S00029610(96)00419-9). PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9074370>.
- Weilbaecher D, Bolin JA, Hearn D, Ogden W 2nd. Intussusception in adults. Review of 160 cases. *Am Surg*. 1971;121(5):531–5. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/5557762>.
- Dener C, Bozoklu S, Bozoklu A, Ozdemir A. Adult intussusception due to a malignant polyp: a case report. *Am Surg*. 2001;67(4):351–3. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11308002>.
- Van Heel DA, Panos MZ. Colonoscopic appearance and diagnosis of intussusception due to large bowel lipoma. *Endoscopy*. 1999;31(6):508. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10494696>.
- Erkan N, Hacıyanlı M, Yildirim M, Sayhan H, Vardar E, Polat F. Intussusception in adults: an unusual and challenging condition for surgeons. *Int J Colorectal Dis*. 2005;20(5):452–6. doi: <http://dx.doi.org/10.1007/s00384-004-0713-2>. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15759123>.
- Dharia KM, Marino AW, Mancini HW. Enterocolic intussusception in adults. *Dis Colon Rectum*. 1972;15(3):194–200. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/5028582>.
- Tan KY, Tan SM, Tan AG, Chen CY, Chng HC, Hoe MN. Adult intussusception: experience in Singapore. *ANZ J Surg*. 2003;73(12):1044–7. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/14632903>.
- Eisen LK, Cunningham JD, Aufuses AH Jr. Intussusception in adults: institutional review. *J Am Coll Surg*. 1999;188(4):390–5. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10195723>.
- Felix EL, Cohen MH, Bernstein AD, Schwartz JH. Adult intussusception; case report of recurrent intussusception and review of the literature. *Am J Surg*. 1976;131(6):758–61. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/937658>.
- Lorenzi M, Iroatulam AJ, Vernillo R, Banducci T, Mancini S, Tiribocchi A, i sur. Adult colonic intussusception caused by a malignant tumor of the transverse colon. *Am Surg*. 1999;65(1):11–4. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9915523>.
- Laredo J, Filtzer HS. Right colonic intussusception. *Am J Surg*. 2000;179(6):485. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11004336>.
- Cerro P, Magrini L, Porcari P, De Angelis O. Sonographic diagnosis of intussusceptions in adults. *Abdom Imaging*. 2000;25(1):45–7. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10652920>.
- Hurwitz LM, Gertler SL. Colonoscopic diagnosis of ileocolic intussusception. *Gastrointest Endosc*. 1986;32(3):217–8. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3721141>.
- Thomas AW, Mitre R, Brodmerkel GJ Jr. Sigmoidorectal intussusception from a sigmoid lipoma. *J Clin Gastroenterol*. 1995;21(3):257. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/8648067>.
- Chang FY, Cheng JT, Lai KH. Colonoscopic diagnosis of ileocolic intussusception in an adult. A case report. *S Afr Med J*. 1990;77(6):313–4. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2315816>.
- Kitamura K, Kitagawa S, Mori M, Haraguchi Y. Endoscopic correction of intussusception and removal of a colonic lipoma. *Gastrointest Endosc*. 1990;36(5):509–11. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2227328>.
- Fujii Y, Taniguchi N, Itoh K. Intussusception induced by villous tumor of the colon: sonographic findings. *J Clin Ultrasound*. 2002;30(1):48–51. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11807856>.
- Boyle MJ, Arkell LJ, Williams JT. Ultrasonic diagnosis of adult intussusception. *Am J Gastroenterol*. 1993;88(4):617–8. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/8470658>.
- Bar-Ziv J, Solomon A. Computed tomography in adult intussusception. *Gastrointest Radiol*. 1991;16(1):264–6. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/1879648>.
- Takeuchi K, Tsuzuki Y, Ando T, Sekihara M, Hara T, Kori T, i sur. The diagnosis and treatment of adult intussusception. *J Clin Gastroenterol*. 2003;36(1):18–21. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/12488701>.
- Gayer G, Apter S, Hofmann C, Nass S, Amitai M, Zissin R, i sur. Intussusception in adults: CT diagnosis. *Clin Radiol*. 1998;53(1):53–7. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9464437>.
- Warshauer DM, Lee JK. Adult intussusception detected at CT or MR imaging: clinical-imaging correlation. *Radiology*. 1999;212(3):853–60. doi: <http://dx.doi.org/10.1148/radiology.212.3.r99au43853>. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/10478257>.
- Barussaud M, Regenet N, Briennon X, de Kerviler B, Pessaux P, Kohneh-Sharhi N, i sur. Clinical spectrum and surgical approach of adult intussusceptions: a multicentric study. *Int J Colorectal Dis*. 2006;21(8):834–9. doi: <http://dx.doi.org/10.1007/s00384-005-0789-3>. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15951987>.
- Marcos HB, Semelka RC, Worawattanakul S. Adult intussusception: demonstration by current MR techniques. *Magn Reson Imaging*. 1997;15(9):1095–8. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/9364957>.
- Nagorney DM, Sarr MG, McIlrath DC. Surgical management of intussusception in the adult. *Ann Surg*. 1981;193(2):230–6. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/7469558>.
- Reijnen HA, Joosten HJ, de Boer HH. Diagnosis and treatment of adult intussusception. *Am J Surg*. 1989;158(1):25–8. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2662787>.

31. Karahasanoglu T, Memisoglu K, Korman U, Tunckale A, Curgunlu A, Karter Y. Adult intussusception due to inverted Meckel's diverticulum: laparoscopic approach. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech.* 2003;13(1):39–41. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/12598757>.
32. Zaroni EC, Averbach M, Borges JL, Corrêa PA, Cutait R. Laparoscopic treatment of intestinal intussusception in the Peutz-Jeghers syndrome: case report and review of the literature. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech.* 2003;13(4):280–2. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/12960794>.
33. Alonso V, Targarona EM, Bendahan GE, Kobus C, Moya I, Cherichetti C, i sur. Laparoscopic treatment for intussusception of the small intestine in the adult. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech.* 2003;13(6):394–6. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/14712104>.
34. Jelenc F, Brencic E. Laparoscopically assisted resection of an ascending colon lipoma causing intermittent intussusception. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2005;15(2):173–5. doi: <http://dx.doi.org/10.1089/lap.2005.15.173>. PubMed PMID: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15898912>.

ILEOILEAL INTUSSUSCEPTION IN A PATIENT WITH PEUTZ-JEGHERS SYNDROME

Tomislav Pavlović¹, Krešimir Luetić², Zvonimir Sučić¹, Sanja Baršić-Ostojić¹, Franka Jelavić-Kojić¹, Natko Beck¹

¹Department of Radiology, “Sveti Duh” University Hospital, Sveti Duh 64, HR-10000 Zagreb, Croatia

²Department of Gastroenterology and Hepatology, Department of Internal Medicine, “Sveti Duh” University Hospital, Sveti Duh 64, HR-10000 Zagreb, Croatia

Case reports

Abstract

Intussusception is a rare cause of acute intestinal obstruction in adults and causes approximately 1% of all adult intestinal obstructions. Adult patients account for only 5% of all cases of intussusception. Diagnosing is usually difficult because of non-specific nature of the symptoms. This report presents a case of ileoileal intussusception caused by a polyp in an adult patient with Peutz-Jeghers syndrome. The case was diagnosed with magnetic resonance enterography (MRE) and colonoscopy.

Key words: Intussusception; Peutz-Jeghers syndrome - diagnosis; Adolescent; Female; Case reports

