

УДК 616.33-007.415-06:616.351]-036.1-089.87

Н.С. Косминіна¹, М.В. Лучак²

Гетеротопія слизової оболонки шлунка в прямій кишці: опис клінічного випадку

¹Львівський національний медичний університет імені Данила Галицького, Україна
²КНП Львівської обласної ради Львівська обласна дитяча клінічна лікарня «ОХМАТДИТ», Україна

Modern Pediatrics. Ukraine. (2023). 2(130): 117-120. doi 10.15574/SP.2023.130.117

For citation: Kosmylina NS, Luchak MV. (2023). Heterotopia of the gastric mucosa in the rectum: a clinical case report. Modern Pediatrics. Ukraine. 2(130): 117-120. doi 10.15574/SP.2023.130.117.

Гетеротопна слизова оболонка шлунка рідко зустрічається в педіатричній популяції, проте може становити діагностичну проблему. Ця патологія може виникнути в будь-якому відділі травного тракту — від ротоглотки до аноректальної ділянки. Більшість випадків спостерігаються в стравоході, дванадцятипалій кишці та гепатобіліарній системі, проте наявність цієї тканини в прямій кишці є надзвичайно рідкісним явищем.

Мета — провести клінічний опис рідкісної патології у дітей, щоб привернути увагу лікарів до необхідності проведення комплексної діагностики пацієнтів з гематохезією.

Клінічний випадок. Наведено клінічний випадок дитини з гетеротопією слизової оболонки шлунка в пряму кишку. Симптоматика включала гематохезію та анальний біль під час акту дефекації, загальну слабкість, зниження апетиту. Ці прояви спостерігалися протягом двох років із періодами загострень і ремісій на тлі консервативного лікування. Остаточний діагноз встановлено на основі біопсії нодулярних утворень прямої кишки, виявлених за даними колоноскопії.

Висновки. Враховуючи негативний вплив проявів цього захворювання на якість життя пацієнта та потенційний ризик злоякісної трансформації, слід враховувати можливість наявності гетеротопічної слизової оболонки шлунка в прямій кишці за невизначеної кровотечі з нижніх відділів шлунково-кишкового тракту та проводити повне обстеження, у тому числі біопсію. Після підтвердження діагнозу рекомендується радикальне хірургічне видалення. Початкове консервативне лікування інгібіторами протонної помпи приносить лише нетривале полегшення та супроводжується періодами загострень і ремісії. Остаточним лікуванням завжди є хірургічне або ендоскопічне висічення гетеротопічної слизової оболонки.

Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду батьків, дитини.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

Ключові слова: педіатрія, гетеротопія, шлунок, пряма кишка.

Heterotopia of the gastric mucosa in the rectum: a clinical case report

N.S. Kosmylina¹, M.V. Luchak²¹Danylo Halytsky Lviv National Medical University, Ukraine²Lviv Regional Children's Clinical Hospital «OKHMATDYT», Ukraine

Heterotopic gastric mucosa is rare in the paediatric population, but it can pose a diagnostic challenge. This pathology can occur in any part of the digestive tract, from the oropharynx to the anorectal area. Most cases are observed in the esophagus, duodenum and hepatobiliary system, but the presence of this tissue in the rectum is extremely rare.

Purpose — to conduct a clinical description of a rare pathology in children in order to pay the doctors' attention to the need for comprehensive diagnosis of patients with hematochezia.

Clinical case. We present a clinical case of a child with heterotopia of the gastric mucosa into the rectum. Symptoms included hematochezia and anal pain during the act of defecation, general weakness, and decreased appetite. These manifestations were observed for two years with periods of exacerbations and remissions on the background of conservative treatment. The final diagnosis was made on the basis of a biopsy of nodular formations of the rectum, detected by colonoscopy.

Conclusions. Given the negative impact of the disease manifestations on the patient's quality of life and the potential risk of malignant transformation, the possibility of heterotopic gastric mucosa in the rectum with indeterminate bleeding from the lower gastrointestinal tract should be considered and a complete examination, including biopsy, should be performed. Once the diagnosis is confirmed, radical surgical removal is recommended. Initial conservative treatment with proton pump inhibitors provides only short-term relief and is accompanied by periods of exacerbation and remission. The final treatment is always surgical or endoscopic excision of the heterotopic mucosa.

The research was carried out in accordance with the principles of the Helsinki Declaration. The informed consent of the patient was obtained for conducting the studies.

No conflict of interests was declared by the authors.

Keywords: pediatrics, heterotopia, stomach, rectum.

Вступ

Гетеротопна слизова оболонка шлунка рідко зустрічається в педіатричній популяції, проте може становити діагностичну проблему. Термін «гетеротопія» походить від грецького слова та означає «інше місце», тобто виявлення певного типу тканин

у нефізіологічному для них місці, але зазвичай вони співіснують з оригінальною тканиною в її правильному анатомічному розташуванні.

Водночас гетеротопія слизової оболонки шлунка може виникнути в будь-якому відділі травного тракту — від ротоглотки до аноректальної ділянки, більшість випадків спостерігаються в стравоході та дванадцятипалій

кишці, оскільки ці структури ембріонально та анатомічно пов'язані зі шлунком, а також у гепатобіліарній системі, проте наявність цієї тканини в прямій кишці є надзвичайно рідкісним явищем [1,3–5].

З 1939 року задокументовано 72 випадки, і лише 34 випадки зафіксовано в педіатричній популяції. Перший відомий випадок гетеротопічної слизової оболонки шлунка в прямій кишці описано Ewell і Jackson у 1939 році у 6-річного хлопчика. У 2016 році Iacorini та співавторами опубліковано вичерпний огляд усіх випадків гетеротопічної слизової оболонки шлунка в прямій кишці та анальному отворі, який включав 68 випадків у прямій кишці та 4 випадки в анальному отворі. У 2018 році Mannan та співавторами проведено пошук протягом 23 років у 5 окремих закладах і виявлено 26 додаткових випадків у прямій кишці та 4 додаткові випадки в анальному отворі [9].

На сьогодні етіологія та механізм розвитку гетеротопії не відомі, проте запропоновано 3 гіпотези для пояснення такого феномену. Найімовірнішою є гіпотеза, яка припускає, що в організмі розвиваються невідомі стани, запалення або травми, які спонукають диференціюватися плюрипотентні примітивні ентодермальні стовбурові клітини, що вистилають кишковий канал. Однак можлива помилка в диференціюванні, коли клітини замість диференціювання в колоректальний епітелій диференціюються в епітелій слизової оболонки шлунка. Друга гіпотеза припускає, що після деструктивного процесу нормальної слизової оболонки кишечника аномальна регенерація тканини призводить до зростання гетеротопії шлунка. Умови, що спричиняють заміну нормальної слизової оболонки чистою гетеротопічною слизовою оболонкою шлунка, не відомі та не є універсальними після всіх пошкоджень. І нарешті третя гіпотеза припускає, що коли ембріональна тканина шлунка опускається, частина клітин можуть залишатися затриманими в стравоході, проте це не пояснює наявність ректальної шлункової гетеротопії [1,2,4,8,9].

Педіатричні пацієнти з цією патологією мають специфічні аноректальні симптоми та неспецифічні абдомінальні. Прояви захворювання можуть коливатися від безсимптомних до діареї, анального тенезму, анального болю, болю в животі або шлунково-кишкової кровотечі. В огляді F. Iacorini та співавторів аноректальні симптоми, такі як гематохезія та аналь-

ний біль, описані у 69% пацієнтів із гетеротопією слизової оболонки шлунка в прямій кишці та анальному отворі; нечіткі, неспецифічні абдомінальні симптоми виявлені лише в 11% пацієнтів [7]. У дослідженні A. Mannan та співавторів гематохезія виявлена в 30,7% пацієнтів [9]. Крім того, гетеротопія слизової шлунка в пряму кишку пов'язана з високою частотою ускладнень, таких як перфорація кишечника та утворення виразок або норниць, що пояснюється наявністю великої кількості парієтальних (оксинтих) клітин, які, своєю чергою, секретують соляну кислоту [4,9]. Це свідчить, що кислоти виділення можуть бути важливими для розвитку ускладнень, і підтримує можливість застосування антагоністів H₂-рецепторів та інгібіторів протонної помпи для полегшення симптомів у тому разі, коли повне видалення гетеротопічної слизової оболонки не можливе.

Мета роботи — провести клінічний опис рідкісної патології у дітей, щоб привернути увагу лікарів до необхідності проведення комплексної діагностики пацієнтів з гематохезією.

Клінічний випадок дитини з гетеротопією слизової оболонки шлунка в пряму кишку

Вікторія, віком 14 років, госпіталізована до педіатричного відділення Львівської обласної дитячої клінічної лікарні «ОХМАТ-ДИТ» зі скаргами на ректальний біль під час акту дефекації, біль у промежині, періодичний біль в епігастрії, кашкоподібні випорожнення з домішками крові та слизу, загальну слабкість, запаморочення, зниження апетиту. Зі слів мами, дитина хворіє протягом двох років, коли вперше з'явився біль у ділянці прямої кишки під час дефекації та випорожнення з домішками крові. Останнє загострення спостерігали місяць тому. Дівчинка лікувалася амбулаторно під наглядом сімейного лікаря, застосовувала спазмолітики, антидіарейні препарати, проте стан не поліпшився, і дитина була скерована на стаціонарне обстеження та лікування.

Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду батьків, дитини.

На момент госпіталізації стан дівчинки середньої тяжкості, стабільний. Зріст — 159 см, вага — 47 кг. Шкіра та видимі слизові оболонки бліді, вологі. Набряки відсутні. Частота дихання — 17/хв, частота серцевих скорочень — 84 уд./хв. Аускультативно над легеннями — везикулярне дихання, сатурація — 98%. Тони серця

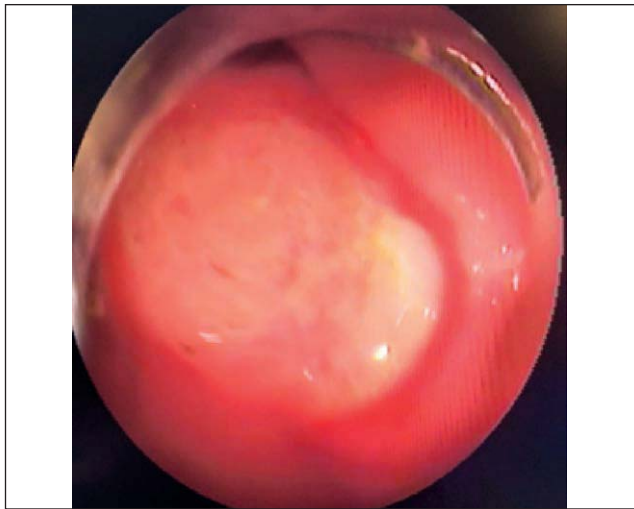


Рис. 1. Виразка прямої кишки

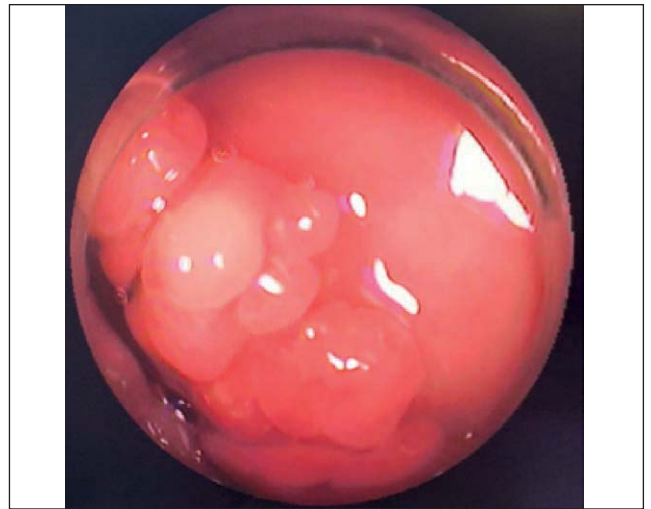


Рис. 2. Ендоскопічна картина гетеротопії слизової шлунка в пряму кишку

ритмічні, ясні. Язик вологий, обкладений білим нальотом. Живіт м'який, помірно болючий під час пальпації в гастродуоденальній зоні, біль у промежині та біль під час акту дефекації. Нижній край печінки пальпується по краю реберної дуги. Сечовиділення вільне. Попередній діагноз – «Неінфекційний гастроентерит та коліт не уточнений».

Лабораторні обстеження: загальний аналіз крові та сечі, іонограма, сечовина, креатинін, білірубін, загальний білок, трансамінази – у межах вікової норми.

Езофагогастродуоденоскопія. Діагностовано еритематозну гастродуоденопатію.

Колоноскопія. Виявлено гіперемію слизової прямої кишки. По передній і задній стінці прямої кишки – дві виразки, діаметром 0,6 і 0,7 см, дно яких вкрито фібрином. Краї виразок плоскі, слизова їх ранима, контактна кровоточивість. По правій боковій стінці ампули прямої кишки, на відстані 1 см від верхнього краю анального каналу, виявлено нодулярне утворення, чітко відмежоване від навколишньої слизової, розміром 15×15 мм. Слизова оболонка інших відділів товстого кишечника рожева, судинний рисунок чіткий, гаустрація збережена. Медичний висновок: виразки прямої кишки (рис. 1); утворення, яке поширюється в латеральному напрямку, гранулярного типу (LST-G), гомогенної структури (0–IIa за Паризькою ендоскопічною класифікацією поверхневих пухлинних уражень стравоходу, шлунка і товстої кишки, 2002 р.), (рис. 2).

Проведено біопсію з країв виразок (біопсійний матеріал 1) і біопсію утворення, що по-

ширюється в латеральному напрямку (біопсійний матеріал 2).

Патогістологічне дослідження. Біопсійний матеріал 1. Тканина слизової оболонки товстокишкового типу з ділянкою формування грануляційної тканини, що поширюється в підслизову основу з дифузною нейтрофільною інфільтрацією та поверхневим нашаруванням некротичного детриту і фібрину, що відповідає ділянці активної виразки. Біопсійний матеріал 2. Матеріал представлений фрагментами слизової оболонки шлункового фундального типу з групами розширених фундальних залоз. Після виконання додаткових зрізів матеріалу з парафінового блоку мікроскопічна картина без суттєвих змін.

Медичний висновок: біопсійний матеріал 1 – активна виразка прямої кишки без специфічних ознак; біопсійний матеріал 2 – матеріал представлений слизовою оболонкою шлункового типу.

Обговорення

Гетеротопна слизова оболонка шлунка є дуже рідкісним утворенням, яке може становити діагностичну проблему та несе ризик розвитку ускладнень аж до злоякісності. Симптоматика, яка включає гематохезію та анальний біль, може бути неспецифічною і збігатися з іншими захворюваннями, такими як дивертикулярна хвороба та анальні тріщини. Крім того, деякі випадки гетеротопії шлунка в прямій кишці можуть перебігати безсимптомно та виявлятися випадково.

У наведеному клінічному випадку виявлено, поряд із виразками прямої кишки, гетеротопні

клітини слизової оболонки шлунка. Можна припустити, з одного боку, що гетеротопна слизова оболонка шлунка є наслідком аномальної регенерації клітин в умовах запалення; а з іншого — первинна гетеротопія слизової оболонки шлунка може ускладнюватися виникненням виразок унаслідок інтенсивного вироблення шлункової кислоти. У такому разі необхідне початкове лікування інгібіторами протонної помпи та антагоністами H₂-рецепторів, проте консервативне лікування цієї патології приносить лише нетривале полегшення, і остаточним лікуванням завжди є хірургічне або ендоскопічне висічення слизової оболонки. Ендоскопічна резекція слизової оболонки та резекція підслизової оболонки при глибоких ураженнях є ефективними методами лікування цієї патології.

Висновки

Враховуючи негативний вплив проявів вищезазначеного захворювання на якість життя пацієнтів та потенційний ризик злоякісної трансформації, слід враховувати можливість наявності гетеротопічної слизової оболонки шлунка в прямій кишці за невизначеної кровотечі з нижніх відділів шлунково-кишкового тракту та проводити комплексне обстеження, включаючи колоноскопію з біопсією та гістопатологічне дослідження. Остаточним лікуванням завжди є хірургічне або ендоскопічне висічення гетеротопічної слизової оболонки.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

REFERENCES/ЛІТЕРАТУРА

1. Antemie G, Apostu A, Rogoian L et al. (2019). Ulcerative colitis associated with gastric heterotopia in the rectum: a case report. *J Gastrointest Liver Dis.* 28 (1): 117–120.
2. Covington D, Zong Y, Talat A et al. (2022). Mass-Forming Gastric Heterotopia of the rectum: A Series of 3 Cases from a Single Tertiary Health Center. *Am J Case Rep.* 23: 936631
3. Dinarvand P, Vareedayah A, Phillips N et al. (2017). Gastric heterotopia in rectum: A literature review and its diagnostic pitfall. *SAGE Open Medical Case Reports.* 5: 1–5.
4. Fernandes S, Safavi A, Cloutier B et al. (2020). Heterotopic gastric mucosa in the rectum. *Journal of Pediatric Surgery Case Reports.* 63: 1–2.
5. Galassi L, Guerrazzi G, Romeo B. (2021). Gastric Mucosa Heterotopia in Distal Rectum: a Case Report and Narrative Literature Review. *Comprehensive Clinical Medicine.* 3: 1469–1476.
6. Hintz G, Zou V, Baird R. (2019). Sclerotherapy for rectal prolapse in children: a systematic review and meta-analysis. *J Pediatr Surg.* 54 (5): 1083–1088.
7. Iacopini F, Gotoda T. (2016). Heterotopic gastric mucosa in the anus and rectum: first case report of endoscopic submucosal dissection and systematic review. *Gastroenterol Rep.* 4 (3): 196–205.
8. Kim H, Kim J. (2012). Heterotopic gastric mucosa with focal intestinal metaplasia and squamous epithelium in rectum. *Dig Endosc.* 24: 46–48.
9. Mannan A, Vieth M, Khararjian A. (2018). The outlet patch: Gastric heterotopia of the colorectum and anus. *Histopathology.* 73 (2): 220–229.

Відомості про авторів:

Косминіна Неля Станіславівна — к.мед.н., асистент каф. пропедевтики педіатрії та медичної генетики Львівського НМУ імені Д. Галицького. Адреса: м. Львів, вул. Пекарська, 69. <https://orcid.org/0000-0003-0422-7002>.

Лучак Марта Володимирівна — к.мед.н., лікар-ендоскопіст Львівської ОДКЛ «ОХМАТДИТ». Адреса: м. Львів, вул. Лисенка, 31. Лікар-ендоскопіст Львівського регіонального кардіологічного центру. Адреса: м. Львів, вул. Кульпарківська, 35. <https://orcid.org/0000-0002-6709-8896>.

Стаття надійшла до редакції 04.01.2023 р., прийнята до друку 13.03.2023 р.