

HETEROTOPIE PANCREATICĂ CHISTICĂ – CAUZĂ RARĂ DE STENOZĂ ANTROPILORICĂ LA ADULT

E. Târcoveanu¹, A. Vasilescu¹, N. Vlad¹, Niculina Florea², C. Stanciu³

1. Clinica I Chirurgie, Spitalul „Sf. Spiridon” Iași

2. Departamentul de Anatomie patologică, Spitalul „Sf. Spiridon” Iași

3. Centrul de Gastroenterologie și Hepatologie, Spitalul „Sf. Spiridon” Iași
Universitatea de Medicină și Farmacie „Gr.T. Popa” Iași

GASTRIC OUTLET OBSTRUCTION CAUSED BY CYSTIC HETEROTOPIC PANCREAS

(ABSTRACT): Heterotopic (ectopic) pancreas is relatively rare and is defined as abnormally situated pancreatic tissue has no contact with the normal pancreas and has its own ductal system and blood supply. It is usually an incidental finding in clinical practice. It most often occurs in the proximal gastrointestinal tract – gastric heterotopic pancreas. It may become clinically evident when complicated by pathological changes such as pancreatitis, cystic dystrophy with obstruction as especially gastric outlet obstruction. In this report a 29 – year old man with nausea, recurrent vomiting an abdominal pain is described. Gastroduodenal endoscopic examination, upper GI barium X-ray, ultrasonography revealed a submucosal tumor at the prepyloric area on the posterior wall of the stomach with gastric outlet obstruction. A degenerated gastrointestinal stromal tumor was suspected. Limited distal antrectomy was performed and a histological diagnosis of gastric heterotopic pancreas was confirmed. The patient had an uneventful postoperative course and was discharged 5 days after operation and remains healthy and symptom-free in the follow-up of 6 months. This is a report of a case of gastric outlet obstruction resulting for pancreatic heterotopia in the gastric antrum with cystic dystrophy after acute pancreatitis in an adult man. The incidence of symptomatic heterotopic pancreas is low and preoperative diagnosis is difficult. Although endoscopy ultrasound is helpful for diagnosis, it is difficult to distinguish from stromal tumor. Frozen section should be taken so as to distinguish heterotopic pancreas from malignant tumors. Surgical excision by minimally invasive approach provides symptomatic relief and is recommended.

KEY WORDS: GASTRIC HETEROTOPIC PANCREAS, CYSTIC HETEROTOPIC PANCREAS, GASTRIC OUTLET OBSTRUCTION, SUBMUCOSAL TUMOR, ANTRECTOMY.

Corespondență: Prof. Dr. E. Târcoveanu, Clinica I Chirurgie, Spitalul Universitar „Sf. Spiridon” Iași, Bd. Independenței nr. 1, Iași, 700111; e-mail: etarcov@yahoo.com*.

INTRODUCERE

Heterotopia pancreatică este o anomalie congenitală rară, în care țesutul pancreatic accesoriu, format din țesut nediferențiat până la acini, ducte și insule pancreatice, mai mult sau mai puțin dezvoltate, se găsesc în afara și fără legătură vasculară canalară cu pancreasul normal situat. Un ultim caz, un bărbat tânăr a fost internat cu semne clinico-radiologice de stenoză antrală după o reacție pancreatică, confirmată biologic, interpretată ca tumoră stromală antrală, ce a impus antrectomia, examenul histopatologic aducându-ne surpriza unei heterotopii pancreatice antropilorice chistice stenozante.

* received date: 22.05.2011

accepted date: 12.07.2011

PREZENTARE DE CAZ

Bolnavul S.M., în vârstă de 29 ani, se internează în martie 2011 (FO 13731), prin transfer de la Clinica de Gastroenterologie pentru dureri epigastrice, grețuri, vărsături, scădere ponderală (10 kg/2 luni). Din antecedentele heredocolaterale reținem că are un unchi operat de cancer de colon, iar mama este decedată la 42 ani prin neoplasm ovarian.

Debutul bolii este insidios, în urmă cu 3 luni, cu dureri epigastrice cu iradiere transversală, urmată de grețuri, apoi de vărsături. A urmat un tratament cu antiinflamatoare nesteroidice.

Endoscopia digestivă superioară a arătat o gastrită antrală drog-indusă și a descoperit o formațiune antrală, imediat prepiloric, de 3 cm, bine delimitată, cu o mică ulceratie în centru. Probele biologice sunt normale, inclusiv markerii tumorali, cu excepția amilazelor serice (307,8 U/L) și urinare (1020 U/L) și a rezervei alcaline (30 mEq/L CO₂).

Se transferă în serviciul nostru cu diagnosticul de tumoră antrală stenozantă.

Bolnavul are stare generală relativ bună și prezintă vărsături alimentare postprandiale. Tranzitul baritat esogastric arată un stomac voluminos, cu pliuri groase, cu lichid de secreție abundent, cu evacuare întârziată din cauza unei formațiuni extralumenale de 35 mm, situată pe fața posterioară gastrică, juxtapiloric, care stenozează lumenul (Fig. 1).

Ecografia abdominală evidențiază un stomac voluminos, cu bogat conținut lichidian; pe aria de proiecție a antrului gastric se descoperă o formațiune în cocardă, hiperecogenă, de 35/28 mm, situată predominant extralumenal (Fig. 2).

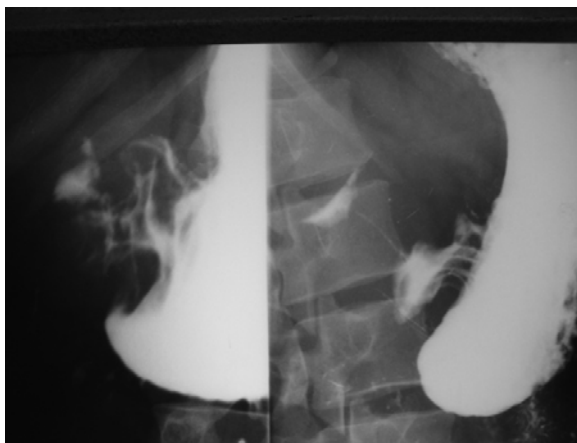


Fig. 1 Tranzit baritat esogastric - stomac voluminos, evacuare întârziată din cauza unei formațiuni extralumenale de 35 mm, situată pe fața posterioară gastrică, juxtapiloric, ce stenozează lumenul.



Fig. 2 Ecografia abdominală - pe aria de proiecție a antrului gastric se descoperă o formațiune în cocardă, hiperecogenă, de 35/28 mm, situată predominant extralumenal

Se intervine chirurgical prin abord laparoscopic. La explorare se găsește o stenoză antropilorică determinată de o tumoră antrală aproape circumferențială, cu adenopatie subpilorică. Se practică decolare colo-epiploică ridicând limfonodulii subpilorici și se eliberează distal marea curbură gastrică.

Se practică minilaparotomie supraombilicală și se recurge la bulbantrectomie cu limită de siguranță oncologică (Fig. 3) și restabilirea tranzitului prin anastomoză gastroduodenală Pean Billroth I.

Piesa de rezecție prezintă o formațiune cu structură lobulată, cu conținut chistic în tensiune, dezvoltată subseros și muscular, cu mezou adiacent infiltrat hemoragic și limfonoduli adiacenți de 1-2 cm. Mucoasa gastrică are pliuri îngroșate și edem (Fig. 4).

Evoluția postoperatorie a fost simplă, cu reluarea tranzitului digestiv și externare a 5-a zi postoperator.

Surpriza ne-o aduce examenul histopatologic pe cupe seriate, care evidențiază heterotopie pancreatică la nivelul peretelui gastric, cu degenerescență chistică, important edem și hemoragie recentă sau în curs de organizare în submucoasă și subseroasă, reacție fibrinohemoragică la seroasă.

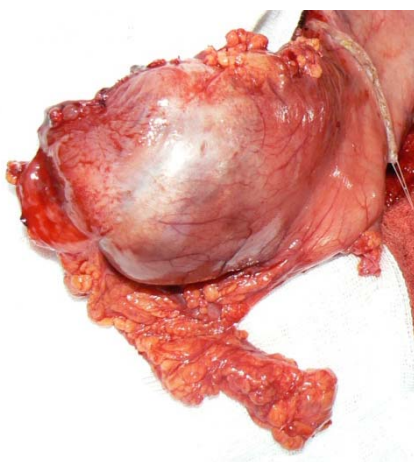


Fig. 3 Bulbantrectomie cu limită de siguranță oncologică

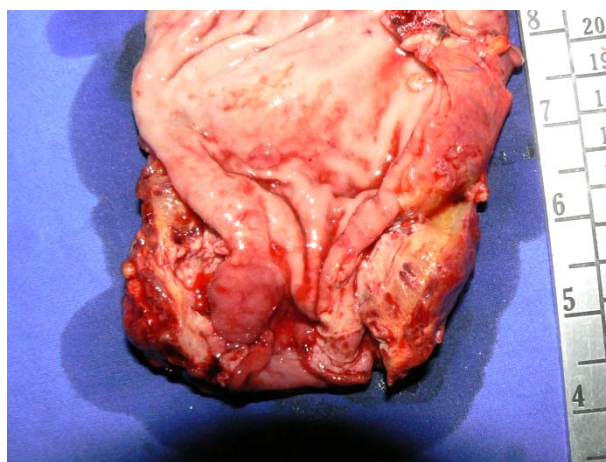


Fig. 4 Piesă de rezecție pe secțiune

Țesutul heterotopic conține acini glandulari și ducte și este localizat predominant subseros și la nivelul peretelui muscular (Fig. 5-8).

Mucoasa gastrică de acoperire are aspect de gastrită cronică foliculară cu metaplazie intestinală completă. Limfonodulii au arhitectură păstrată și histiocitoză sinusală. Duodenul nu are modificări tumorale.

Controlat după 6 luni, pacientul a câștigat în greutate și este asimptomatic.

DISCUȚII

Pancreasul heterotopic gastric reprezintă o cauză foarte rară de stenoză antropilorică la adult. Heterotopia pancreatică a fost descrisă pentru prima dată în 1727 într-un diverticul ileal [cit. 1].

Heinrich, în 1909, împarte heterotopia pancreatică în trei tipuri histologice: tipul I format din ducte, acini și insule pancreatice, tipul II format din acini și ducte și tipul III format numai din ducte [cit. 1].

În 1973, Gaspar și Fuentes propun o nouă clasificare histologică în patru tipuri: tipul I format din ducte, acini și insule pancreatice endocrine, tipul II format numai din ducte (variantea canaliculară), tipul III format numai din acini și tipul IV în care heterotopia conține numai celule endocrine [cit. 2]. Cazul descris aparține tipului I în ambele clasificări.

Prima localizare gastrică este semnalată de Klob J., în 1859 [cit. 1], iar prima stenoză antropilorică prin pancreas aberant gastric este consemnată de Krieg E.G., în 1941 [3]. În literatură această anomalie este cunoscută sub mai multe denumiri: pancreas aberant, pancreas ectopic, heterotopie pancreatică, pancreas accesoriu sau supranumerar, coristom [4].

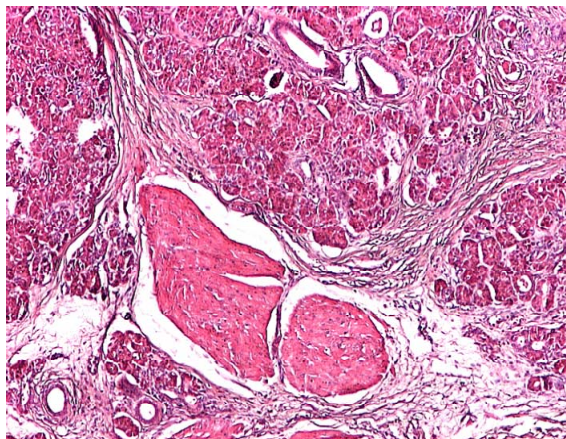


Fig. 5 Pancreas cu structură completă în strat muscular neted, col. HE

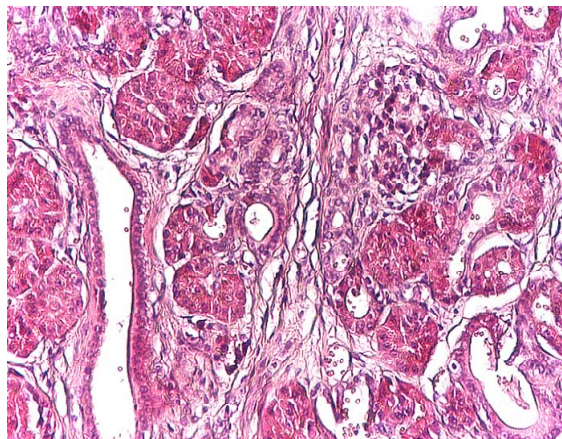


Fig. 6 Pancreas cu insulă endocrină, col. HE

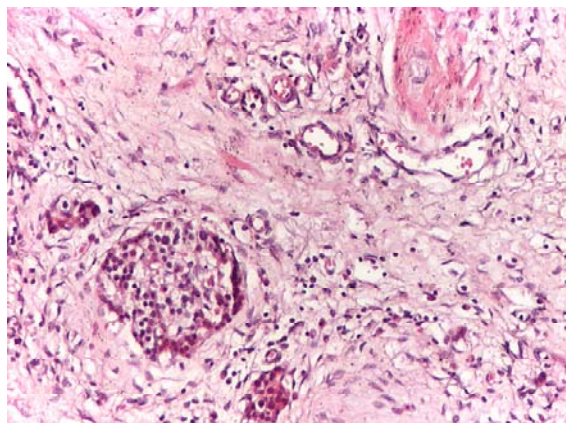


Fig. 7 Insule endocrine restante cu fibroză, inflamație și țesut muscular neted, col. HE

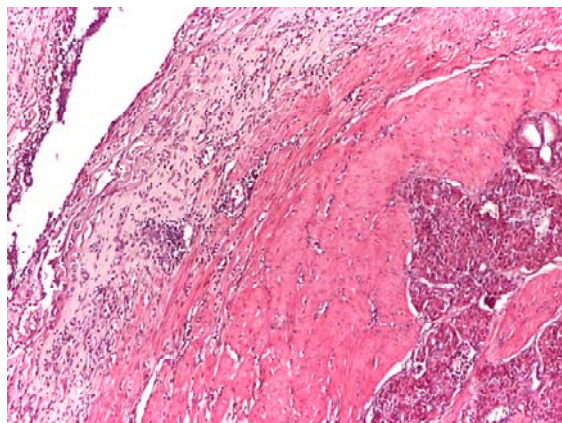


Fig. 8 Incluzie pancreatică în peretele gastric- strat muscular extern și subseroasă cu inflamație și depozite fibrino leucocitare pe seroasă, col. HE

Localizarea predilectă este tractul gastrointestinal superior (70-90%): stomac, duoden, jejun și ileon, foarte rar esofag, diverticul Meckel, colon, rect. Excepțional sunt citate localizări în marele epiploon, spină, căi biliare, ficat, trompă uterină, vezică urinară, perete traheo-bronșic, mediastin, limfonoduli, resturi ale canalului omfaloenteric [cit. 1]. Pe o statistică de 413 cazuri publicată de Barbosa di Castro [cit. 5], frecvența distribuției topografice a cazurilor a fost: 30,5% duoden, 26,5% stomac, 16,5% jejun, 5,8% ileon, 5,3 % diverticul Meckel, iar diferența cu alte localizări.

Două teorii explică diversitatea formelor și locației pancreasului aberant: diferențierea normală, metaplazică a celulelor multipotente endoluminale sau pătrunderea celulelor pancreatice embrionare în structurile intestinului primitiv în timpul rotației normale sau anormale a mugurelui pancreatic primitiv [5]. Pancreasul se dezvoltă din doi muguri: dorsal mare și ventral mic, care fuzionează în săptămâna 6. Pancreasul accesoriu gastric și duodenal se formează din mugurele dorsal, iar cel jejunoileal din mugurele ventral.

Prevalența heterotopiei pancreatice este estimată la 2% [5]. Cel mai frecvent, anomalia este descoperită incidental în cursul autopsiilor, intervențiilor chirurgicale și, în ultima perioadă, în cursul endoscoپیilor digestive sau al explorărilor imagistice. Heterotopia pancreatică este identificată histologic la 0,55-13% din necropsii (media 2%) și o dată la 500 de laparotomii [6] - media 0,2% [7,8].

Majoritatea cazurilor publicate în literatură sunt sporadice. Până în 1935, Poppi a adunat din literatură 300 cazuri, Krieg, până în 1939, 340 observații [3], iar Fernald, până în 1969, 720 cazuri [5]. Serii mai mari au fost relatate de Dolan (212 cazuri), Palmer (215 cazuri), Pang (31 cazuri), Hsia (17 cazuri) [cit. 5]. Într-un studiu recent efectuat în clinica noastră, s-au raportat 22 cazuri: 3 simptomatice, 17 coincidentale și 2 incidentaloame [1].

Localizarea gastrică este cea mai frecventă – 25-38% din cazuri [cit. 2]. Majoritatea lucrărilor semnaleză predominanța localizărilor antrale (85-95%) pe peretele anterior sau posterior, în apropierea mării curbur [2,9,10]. În raport cu stratigrafia gastrică, pancreasul heterotopic se localizează în 73% cazuri în submucoasă, 17% în musculară și 10% în subseroasă [11]. În cazul prezentat, pancreasul heterotopic era situat antral, prepiloric, aproape circumferențial, la nivelul subseroasei și în peretele muscular.

Macroscopic, aspectul endoscopic este de tumoră sesilă, uneori ombilicată central (duct excretor vizibil în jumătate din cazurile submucoase - semn caracteristic), cu diametru de la câțiva milimetri până la 6 cm, nodul aparent încapsulat, renitent, gălbui pe secțiune. Leziunile sunt, în general, mici, 85% din cazuri nedepășind 3 cm; Voboril raportează un singur caz de 9/8 cm, care determina stenoză pilorică [cit. 5].

Cercetarea sistematică a pieselor de rezecție gastrică, descoperă țesut pancreatic în peretele gastric în proporție de 1,2%, localizat în special antral, alcătuind o tumoră de până la 3 cm [12]. Terada, pe 8154 biopsii gastrice, din care 2032 piese de rezecție gastrică, cercetate sistematic a găsit o frecvență a heterotopiei pancreatice de 0,04% [13]. Acest țesut poate dobândi funcțiile pancreasului ortotopic și implicit posibilă sa patologie: pancreatită acută sau cronică, pseudochist, malignizare [14]. În urmă cu 30 ani, am studiat histopatologic 80 piese de rezecție gastrică pentru ulcer peptic perforat și am găsit o singură heterotopie pancreatică, de 0,5 cm, antrală, degenerată malign.

Heterotopia pancreatică este asimptomatică. Skandalakis J.E. consideră că doar 10% din heterotopiile pancreatice ajung în sala de operație, iar dintre acestea 6% sunt simptomatice [cit. 1].

Pancreasul aberant gastric poate da semne clinice încă din perioada neonatală, în copilărie (stenoză pilorică) [15] sau la adult în decada 5-6. Doar leziunile gastrice care depășesc 1,5 cm sunt simptomatice [cit. 8]. Atunci când se manifestă clinic (afectează de 2-4 ori mai frecvent bărbații) simptomele sunt nespecifice: dureri epigastrice (77% cazuri), meteorism abdominal (30%), grețuri și vărsături (18%) [15]; hemoragia digestivă superioară prin ulcerarea mucoasei a fost raportată la 24% din cazuri. Aceste aspecte fac diagnosticul dificil [16].

Obstrucția pilorică poate fi determinată de spasm local, gastrită, edem, degenerare chistică după un puseu de pancreatită acută ca în cazul prezentat.

Degenerarea chistică a fost semnalată în literatură de Christodoulidis [2], Terada [13], Yamashita [17], Lopez-Pelaez [18]. Cazuri de stenoză pilorică prin pancreas aberant gastric au fost raportate atât la copii, cât și la adulți [2,19,20,21]. O manifestare rară, dar înșelătoare a pancreasului aberant gastric este sindromul carcinoid semnalat de Yuan [22].

Diagnosticul imagistic preoperator al heterotopiei pancreatice gastrice este dificil [16]. De obicei, tomografica nu poate diagnostica heterotopia pancreatică [20], deși Cho și colab. au raportat două cazuri interpretate CT ca pancreas aberant [cit.19].

Biopsiile endoscopice nu pot preciza diagnosticul decât în 50% din cazuri deoarece mucoasa acoperă leziunile, adesea profund situate. Ecografia endoscopică cu puncție aspirație este metoda cu cele mai mari rate de succes diagnostic în aceste cazuri [cit. 22].

Tranzitul gastric baritat poate evidenția o formațiune mică submucoasă sau o stenoză antropilorică. Uneori, ecografia simplă abdominală poate descoperi o tumoră parietală gastrică, interpretată ca și în cazul nostru drept tumoră stromală.

Diagnosticul diferențial este dificil, atât imagistic, endoscopic, cât și intraoperator, deoarece este imposibil de înlăturat patologii similare: tumori stromale, leiomiome, tumori carcinoide, tumori neurogene, limfoame, polipi adenomatoși sau cancere gastrice. Diferențierea de o tumoră stromală, chiar malignă, este aproape imposibilă în absența examenului histopatologic extemporaneu. Acesta este foarte important pentru diagnostic deoarece poate preveni o operație extensivă nenecesară [2]. Diagnosticul pancreasului heterotopic este rar pre- sau intraoperator, în afara examenului extemporaneu.

Singura problemă rămâne malignizarea pancreasului aberant de tipul adenocarcinomului sau carcinomului anaplastic, mai rar carcinoid acinos, papilar, cistadenocarcinom papilar. Nakao și colab. raportează 12,7% malignizări pe seria sa [cit. 10]. Prognosticul cancerului pancreasului ectopic este mai bun decât al carcinomului pancreatic ortotopic.

Heterotopia pancreatică gastrică simptomatică trebuie operată – excizie completă limitată prin abord clasic, laparoscopic sau endoscopic, excizie însoțită de examen extemporaneu care va exclude malignitatea. Excizia chirurgicală de tipul "wedge resection" pe cale laparoscopică, cu staplerul sau, mai bine, robotică, oferă un acces și o mai bună vizibilitate 3D, se însoțește de o evoluție simplă, spitalizare redusă și recuperare rapidă [8]. Excizia laparoscopică este ghidată de endoscopia digestivă superioară. Ablația endoscopică este posibilă doar pentru leziunile mici, submucoase, ghidată de eco-endoscopie.

Heterotopia pancreatică gastrică asimptomatică nu va fi operată, dar trebuie urmărită endoscopic. Dacă este descoperită incidental, trebuie excizată, excizie care va preciza diagnosticul și va preveni eventualele complicații.

CONCLUZII

Incidența heterotopiei pancreatice este rară. Diagnosticul preoperator este dificil, diferențierea de o tumoră stromală fiind imposibilă fără examenul histologic extemporaneu care va exclude și o malignitate.

Excizia chirurgicală limitată prin abord minim invaziv este indicată în formele simptomatice benigne.

BIBLIOGRAFIE

1. Tăranu T, Vintilă D, Neacșu N, Popa Paula, Luncă C, Crumpei Felica, Rădulescu Doina, Georgescu SO. Pancreasul accesoriu heterotopic în patologia chirurgicală: experiența a 23 ani. *Chirurgia*. 2010; 105(3): 347-353.
2. Christodoulidis G, Zacharoulis D, Barbanis S, Katsogridakis E, Hatzitheofilou K.: Heterotopic pancreas in the stomach: a case report and literature review. *World J Gastroenterol*. 2007; 13(45): 6098-6100.
3. Krieg EG. Heterotopic pancreatic tissue producing pyloric obstruction. *Ann. Surg.* 1941; 113(3): 364-370.
4. Diaconescu MR, Georgescu S, Dănilă N, Popescu E. Choristomas. *Rev Med Chir Soc Med Nat Iasi*. 1990; 94(3-4): 529-531.
5. Hlavaty T, Lukac L, Vyskocil M, Galbavy S. Heterotopic pancreas in gastric antrum with macroscopic appearance of gastric polyp. *Bratisl Lek Listy*. 2002; 103(3): 117-120.
6. Mönig SP, Selzner M, Raab M, Eidt S. Heterotopic pancreas. A difficult diagnosis. *Dig Dis Sci*. 1996; 41(6): 1238-1240.
7. Hsu SD, Wu HS, Kuo CL, Lee YT. Robotic-assisted laparoscopic resection of ectopic pancreas in the posterior wall of gastric high body: case report and review of the literature. *World J Gastroenterol*. 2005; 11(48): 7694-7696.
8. Tanaka K, Tsunoda T, Eto T, Yamada M, Tajima Y, Shimogama H, Yamaguchi T, Matsuo S, Izawa K. Diagnosis and management of heterotopic pancreas. *Int Surg*. 1993; 78(1): 32-35.
9. Oka R, Okai T, Kitakata H, Ohta T. Heterotopic pancreas with calcification: a lesion mimicking leiomyosarcoma of the stomach. *Gastrointest Endosc*. 2002; 56(6): 939-942
10. Rimal D, Thapa SR, Munasinghe N, Chitre VV. Symptomatic gastric heterotopic pancreas: clinical presentation and review of the literature. *Int J Surg*. 2008; 6(6): 52-54.
11. Haj M, Shiller M, Loberant N, Cohen I, Kerner H. Obstructing gastric heterotopic pancreas: case report and literature review. *Clin Imaging*. 2002; 26(4): 267-269.
12. Yamagiwa H, Ishihara A, Sekoguchi T, Matsuzaki O. Heterotopic pancreas in surgically resected stomach. *Gastroenterol Jpn*. 1977; 12(5): 380-386.
13. Terada T. Heterotopic Pancreatic Tissue of the Stomach: Report of Three Cases and Consideration of Its Histogenesis. *Case Rep Gastroenterol*. 2010; 4(3): 386-392.
14. Rimal D, Thapa SR, Munasinghe N, Chitre VV. Symptomatic gastric heterotopic pancreas: clinical presentation and review of the literature. *Int J Surg*. 2008; 6(6): e52-54.
15. Ormarsson OT, Haugen SE, Juul I. Gastric outlet obstruction caused by heterotopic pancreas. *Eur J Pediatr Surg*. 2003; 13(6): 410-413.
16. Hsia CY, Wu CW, Lui WY. Heterotopic pancreas: a difficult diagnosis. *J Clin Gastroenterol*. 1999; 28(2): 144-147.
17. Yamashita K, Yamazaki K, Ueno A, Arimura Y, Endo T, Imai K. Image of the month. A gastric heterotopic pancreas with cystic change. *Gastroenterology*. 2005; 129(5): 1374, 1809.
18. Lopez-Pelaez MS, Hoyos FB, Isidro MG, Unzurrunzaga EA, Lopez Ede V, Collazo YQ. Cystic dystrophy of heterotopic pancreas in stomach: radiologic and pathologic correlation. *Abdom Imaging*. 2008; 33(4): 391-394.
19. Jiang LX, Xu J, Wang XW, Zhou FR, Gao W, Yu GH, Lv ZC, Zheng HT. Gastric outlet obstruction caused by heterotopic pancreas: A case report and a quick review. *World J Gastroenterol*. 2008; 14(43): 6757-6759.
20. Ormarsson OT, Gudmundsdottir I, Mårvik R. Diagnosis and treatment of gastric heterotopic pancreas. *World J Surg*. 2006; 30(9): 1682-1689.
21. Ayantunde AA, Pinder E, Heath DI. Symptomatic pyloric pancreatic heterotopia: report of three cases and review of the literature. *Med Sci Monit*. 2006; 12(6): CS49-52.
22. Yuan Z, Chen J, Zheng Q, Huang XY, Yang Z, Tang J. Heterotopic pancreas in the gastrointestinal tract. *World J Gastroenterol*. 2009; 15(29): 3701-3703.