

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2019

Карасева О.В., Голиков Д.Е., Горелик А.Л., Уткина К.Е., Ахадов Т.А., Дмитриенко Д.М., Кисляков А.Н., Харитонов А.Ю.

РЕДКОЕ КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ ДЕРМОИДНОЙ КИСТЫ И ИЗОЛИРОВАННОГО УДВОЕНИЯ ТОНКОЙ КИШКИ В ЗАБРЮШИННОМ ПРОСТРАНСТВЕ У ДЕВОЧКИ 15 ЛЕТ

Государственное бюджетное учреждение здравоохранения города Москвы «Научно-исследовательский институт неотложной детской хирургии и травматологии» Департамента здравоохранения города Москвы, 119180, г. Москва

Введение. В доступной литературе нам не удалось найти описания сочетания объёмного образования в виде дермоидной кисты с пороком развития брюшной полости в виде изолированного удвоения тонкой кишки с локализацией в забрюшинном пространстве.

Цель. Представить лечебно-диагностический алгоритм при редкой патологии забрюшинного пространства у ребенка 15 лет.

Материал. Девочка 15 лет, прооперированная по поводу дермоидной кисты и изолированного удвоения тонкой кишки, локализующихся в забрюшинном пространстве и не имеющих клинических проявлений.

Результаты. При выполнении СКТ живота по поводу политравмы, у девочки случайно было выявлено кистозное образование, локализованное в левой половине живота. Учитывая критическое состояние ребенка, рекомендовано наблюдение и принятие решения о хирургическом лечении после выздоровления. При предоперационном дообследовании (УЗИ, СКТ, МРТ) заподозрена забрюшинная локализация образования (дермоидная киста?) и визуализирован изолированный от ЖКТ участок тонкой кишки, прилегающий к нему. Лапароскопия позволила подтвердить диагноз и выполнить успешное удаление обоих образований из забрюшинного пространства.

Вывод. Использование возможностей современных методов визуализации позволяет поставить точный диагноз при редких хирургических заболеваниях до операции, определить хирургическую тактику и минимизировать хирургическую агрессию за счет малоинвазивных технологий.

Ключевые слова: дермоидная киста; удвоение тонкой кишки; порок развития; забрюшинное пространство; дети.

Для цитирования: Карасева О.В., Голиков Д.Е., Горелик А.Л., Уткина К.Е., Ахадов Т.А., Дмитриенко Д.М., Кисляков А.Н., Харитонов А.Ю. Редкое клиническое наблюдение дермоидной кисты и изолированного удвоения тонкой кишки в забрюшинном пространстве у девочки 15 лет. *Детская хирургия.* 2019; 23(6): 339-343. DOI: <http://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2019-23-6-339-343>

Для корреспонденции: Голиков Денис Евгеньевич, научный сотрудник отдела сочетанной травмы НИИ НДХиТ, 119180, Москва. E-mail: den-izym@rambler.ru

Karaseva O.V., Golikov D.E., Gorelik A.L., Utkina K.E., Achadov T.A., Dmitrienko D.M., Kisliakova A.N., Kharitonova A.Yu.

A RARE CLINICAL OBSERVATION OF A DERMOID CYST AND ISOLATED DOUBLING OF THE SMALL INTESTINE IN THE RETROPERITONEAL SPACE IN A 15-YEAR-OLD GIRL

Clinical and Research Institute of Emergency Pediatric Surgery and Trauma, 119180 Moscow, Russian Federation

Introduction. In the available literature, we could not find any description on the combined pathology consisting of a volumetric formation in the form of a dermoid cyst and malformation of the abdominal cavity in the form of an isolated duplication of small intestine with localization in the retroperitoneal space.

Purpose. To present a curative and diagnostic algorithm for a rare pathology in the retroperitoneal space in a 15-year-old child.

Material. A 15-year-old girl who was operated on for a dermoid cyst and an isolated doubling of small intestine localized in the retroperitoneal space and having no clinical manifestations.

Results. When performing the spiral computed tomography (SKT) of the patient's abdomen because of polytrauma, a cystic mass localized in the left half of the abdomen was accidentally revealed. Due to the critical state of the girl, it was decided to observe the child's state and to make a decision on surgical treatment after her recovery. Later, at the preoperative thorough examination (ultrasound, CT, MRI), a retroperitoneal formation (dermoid cyst?) was suspected, and a part of small intestine isolated from the gastrointestinal tract but adjacent to this formation was visualized. Laparoscopy confirmed the diagnosis, and both formations were successfully removed from the retroperitoneal space.

Conclusion. Modern imaging techniques have the potential to make accurate diagnostics in rare surgical diseases before surgery, to determine surgical tactics and minimize surgical aggression due to minimally invasive technologies.

Key words: dermoid cyst; doubling of the small intestine; malformation; retroperitoneal space; children.

For citation: Karaseva O.V., Golikov D.E., Gorelik A.L., Utkina K.E., Achadov T.A. A rare clinical observation of a dermoid cyst and isolated doubling of the small intestine in the retroperitoneal space in a 15-year-old girl. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)* 2019; 23(6): 339-343. (in Russian). DOI: <http://dx.doi.org/10.18821/1560-9510-2019-23-6-339-343>

For correspondence: Denis E. Golikov, MD, researcher at the department of combined trauma, Clinical and Research Institute of Emergency Pediatric Surgery and Trauma, 119180 Moscow, Russian Federation. E-mail: den-izym@rambler.ru

Information about authors:

Karaseva O.V., <http://orcid.org/0000-0001-9418-4418>; Golikov D.E., <https://orcid.org/0000-0001-5982-5494>
Gorelik A.L., <http://orcid.org/0000-0003-1746-8446>; Utkina K.E., <https://orcid.org/0000-0003-3639-9394>

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Acknowledgments. The study had no sponsorship.

Received: September 9, 2019

Accepted: December 9, 2019

Введение

Диагностика и хирургическая тактика при редких пороках развития, тем более при их сочетании с объемными образованиями, представляют интерес для детской хирургии. Нам не удалось найти в доступной литературе описания забрюшинной локализации дермоидной кисты и изолированного типа тубулярного удвоения тонкой кишки у ребёнка.

Герминогенные опухоли (зрелые и незрелые тератомы, дисгерминомы, опухоли эпидермального синуса) встречаются у детей наиболее часто. В общей структуре опухолей их частота колеблется от 21 до 60% [1–4]. При локализации в яичнике у 10–15 % пациенток тератомы бывают двухсторонними [1]. Известно, что дермоидная киста (зрелая тератома) состоит из элементов трёх зародышевых листков. При этом обычно преобладает ткань эктодермального происхождения. Стенка кисты выстлана многослойным плоским эпителием, содержащим сальные и потовые железы. В дермоидных кистах также обнаруживаются кости, зубы, хрящи [1, 2]. Как правило, зрелые тератомы содержат кистозный и солидный компоненты. Злокачественный вариант герминогенных опухолей представлен незрелыми тератомами (тератобластомами) и дисгермиомами [1].

Первое сообщение об удвоении кишечника относится к 1733 г. и принадлежит Calder (цит. по S.J.Bond и D.B.Groff) [5]. Это достаточно редкий (1 случай на 4500 аутопсий) порок развития пищеварительной трубки, его локализация, размеры и клинические проявления могут сильно варьировать [6]. Термин «удвоение пищеварительного тракта» ввел основоположник детской хирургии – американский хирург Уильям Ледд в 1937 г [6]. Удвоения тонкой кишки встречаются чаще удвоений других отделов пищеварительной трубки и составляют 45–71% всех удвоений ЖКТ, причём в 44% они локализуются в терминальном отделе подвздошной кишки [7–10].

Выделяют кистозную, дивертикулярную и трубчатую формы удвоения ЖКТ [7]. Кистозные формы встречаются наиболее часто, на их долю приходится 79–80% [7]. Дивертикулярные удвоения пищеварительного тракта разнообразны по своим размерам и расположению, но наиболее часто сообщаются своим основанием с тонкой кишкой. Трубчатые (тубулярные) формы почти всегда равноценны по диаметру и имеют нормальное строение кишечной стенки. Тип слизистой оболочки дубликатуры, как правило, соответствует отделу ЖКТ, из которого оно исходит, однако в 29–35% отмечают субатрофию или эктопию слизистой. Желудочная ткань является наиболее распространенным типом эктопированной слизистой оболочки [7]. Различают экстралюминарный, интралюминарный и изолированный типы [7].

Целью нашего сообщения является демонстрация лечебно-диагностического алгоритма при редком клиническом наблюдении дермоидной кисты и изолированного тубулярного удвоения тонкой кишки в забрюшинном пространстве у девочки 15 лет.

Материал и методы

Девочка, 15 лет обратилась в ГБУЗ НИИ НДХиТ ДЗМ в плановом порядке по поводу объемного образования (киста) брюшной полости для решения вопроса о хирургическом лечении. Двумя годами ранее, девочка лечилась в клинике по поводу политравмы, полученной в результате ДТП. При выполнении СКТ живота по программе «Whole body», как случайная находка, было выявлено кистозное образование с перетяжкой в центральной части размерами 72 мм (вертикальный), 56 мм (поперечный),

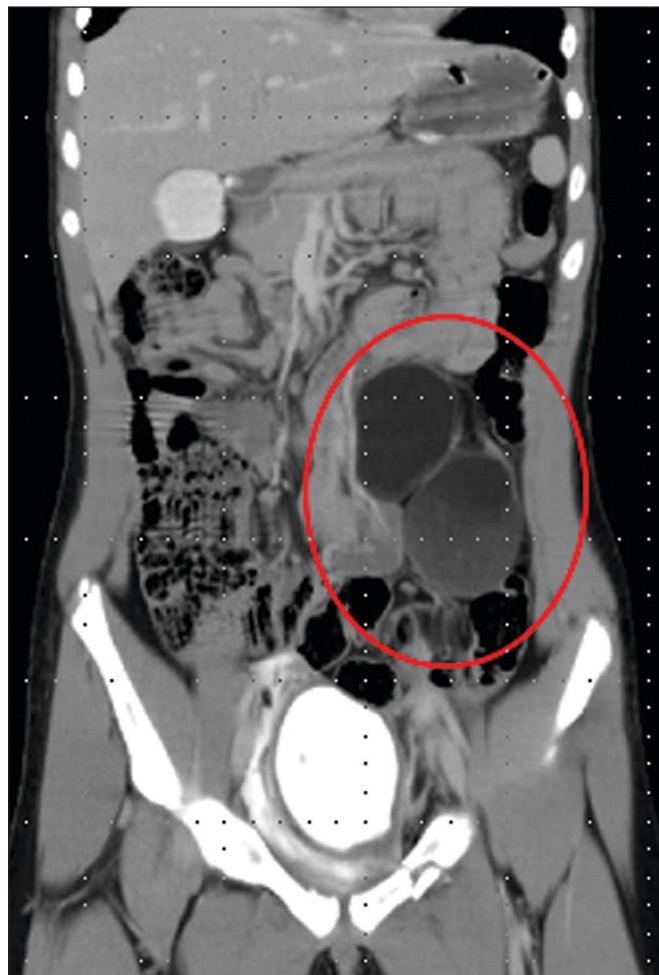


Рис. 1. СКТ: кистозное образование в левой половине живота.

50 мм (сагиттальный), локализующееся в левой половине живота (рис. 1). Образование было расценено как доброкачественная киста (уровень онкомаркеров не повышен, ИФА на эхококкоз – отрицательный), и учитывая критическое состояние ребенка было рекомендовано наблюдение и решение вопроса о хирургическом лечении после завершения курса лечения и реабилитации по поводу травмы. После выписки девочка наблюдалась в КДО: выполняли УЗ-мониторинг, мониторинг уровня онкомаркеров (АФП, СА19-9, СА125), была повторно консультирована онкологом. Кистозное образование незначительно увеличилось в размерах, данных за злокачественный неопластический процесс не выявлено.

Результаты

Для принятия решения об оперативном лечении, в целях дообследования, выполнено МРТ живота. Выявлено гигантское образование забрюшинной области кистозно-солидной структуры размерами 102,0 мм (поперечный) × 69,0 мм (сагиттальный) × 235 мм (вертикальный), занимающее практически всю левую половину живота и распространяющееся от уровня ворот левой почки, деформируя и ротируя её, до мочевого пузыря. Солидная часть прилежала к сосудам и мочеточнику левой почки, брюшной аорте и подвздошным сосудам без признаков прорастания и переходила в кистозный компонент, расположенный в левой подвздошной области и в полости малого таза. Структура большей части солидного компонента напоминала участок тонкой кишки без содержимо-

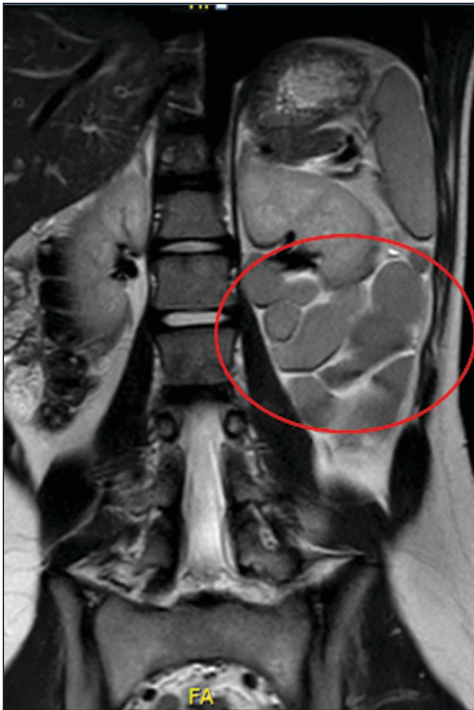


Рис. 2. МРТ: солидный компонент объёмного образования живота, схожий по структуре с петлями тонкой кишки.



Рис. 3. МРТ: кистозный компонент объёмного образования живота.



Рис. 4. С КТ с пероральным контрастированием ЖКТ: отсутствие контрастного вещества в дубликатуре кишки.

го и воздуха в просвете (рис. 2). К солидной части прилежало кистозное образование (рис. 3). Заподозрено сочетание дермоидной кисты с удвоением тонкой кишки. Для исключения связи с ЖКТ выполнена СКТ с двойным контрастированием. Данные СКТ совпадали с результатами МРТ – связи удвоенной части кишечной трубки с ЖКТ выявлено не было (рис. 4). На основании проведенного обследования предположили сочетание дермоидной кисты с изолированным типом тубулярного удвоения тонкой кишки и заподозрили забрюшинное расположение дубликатуры тонкой кишки. Для уточнения локализации и определения хирургической тактики решено было выполнить диагностическую лапароскопию. В левой подвздошной области забрюшинно выявлено кистозное

напряженное образование в виде «восьмёрки» за счёт соединительнотканной перетяжки с размерами частей до 80,0 и 60,0 мм в диаметре (рис. 5). При помощи комплекса Хьюсмана 9 Fg через переднюю брюшную стенку выполнена пункция образования – получено около 200 мл желеобразного содержимого с большим содержанием жира и примесью волос (расценено как содержимое дермоидной кисты). После уменьшения объёма кисты выполнено вскрытие париетальной брюшины и выделение образования из забрюшинного пространства с использованием УЗ-скальпеля-коагулятора. В области верхнего полюса к кисте интимно прилегали петли тонкой кишки, соединенные множественными спайками (рис. 6). Петли тонкой кишки имели полноценную кишечную стенку,

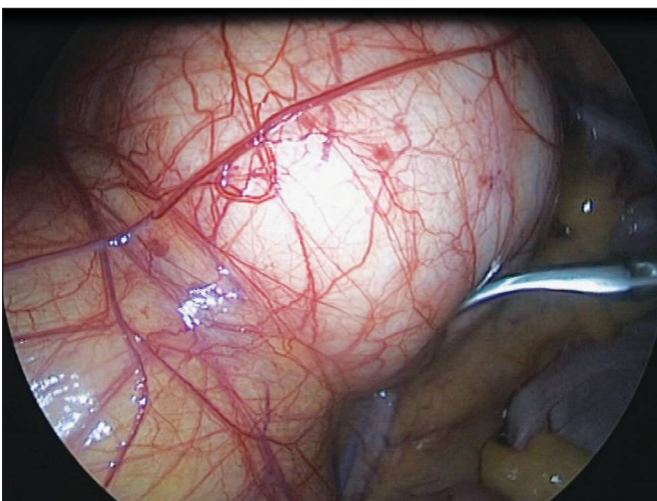


Рис. 5. Лапароскопия: кистозное образование в виде «восьмёрки».

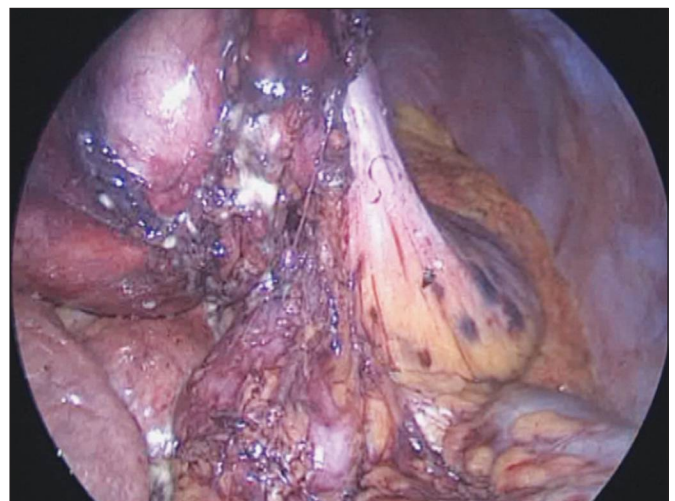


Рис. 6. Лапароскопия: петли дубликатуры в забрюшинном пространстве.



Рис. 7. Макропрепарат: дубликатура тонкой кишки.



Рис. 8. Макропрепарат: содержимое дермоидной кисты.

диаметр от 2 до 4 см, слепо заканчивались и интимно прилегали к воротам левой почки. Диссекцию выполняли при помощи УЗ-скальпеля-коагулятора и монополярного крючка. После выделения общая длина удвоенного участка кишечной трубки составила около 50 см. Образования (рис. 7, 8) были погружены в эндомешок и удалены из брюшной полости через расширенный до 2 см лапароскопический доступ над лонем.

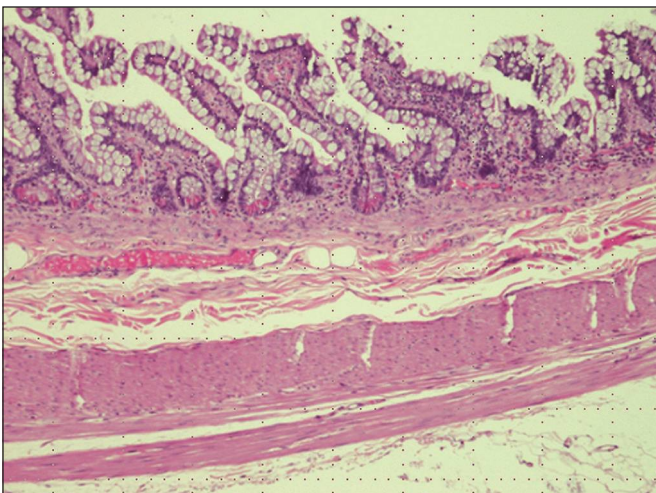
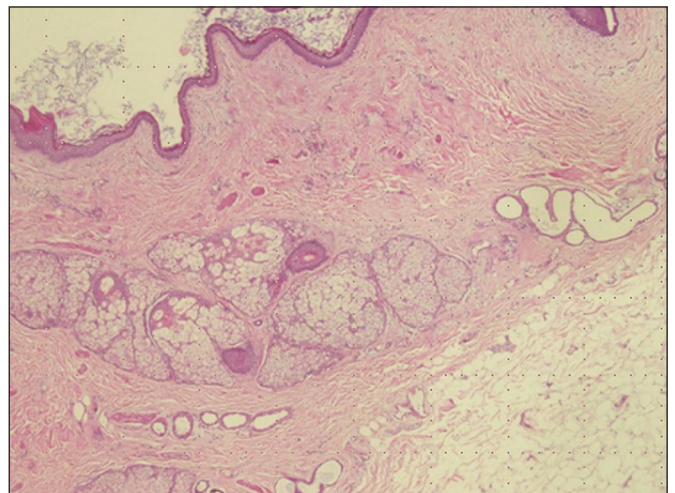
Патоморфологическое исследование подтвердило диагноз. Гистологическое заключение: удвоение тонкой кишки. Зрелая тератома.

1. Фрагмент тонкой кишки: слизистая оболочка субатрофична с неглубокими криптами и невысокими ворсинками. Покрыта на 100% бокаловидными энте-

роцитами, умеренная гиперплазия мышечной пластинки слизистой оболочки. Подслизистая основа умеренно склерозирована. Циркулярный мышечный слой гиперплазирован. Продольный мышечный слой содержит эктопированные нервные сплетения. Серозная оболочка отёчна, полнокровна (рис. 9).

2. Кистозная стенка представлена фиброзной тканью, в которой встречаются волосяные фолликулы, сальные железы, фрагменты зрелого хряща. Изнутри стенка кисты выстлана многослойным плоским ороговевающим эпителием (рис. 10).

Послеоперационный период протекал гладко. Послеоперационные раны зажили первичным натяжением. Девочка выписана домой на 6-е сутки после операции

Рис. 9. Микропрепарат: стенка удвоенной кишки. Окраска гематоксилином и эозином. Увеличение $\times 100$.Рис. 10. Микропрепарат: дермоидная киста. Окраска гематоксилином и эозином. Увеличение $\times 40$.

в удовлетворительном состоянии. В катамнезе через 1 год – жалоб нет, при УЗИ живота данных за объёмные образования не выявлено.

Обсуждение

Удвоение тонкой кишки в сочетании с дермоидной кистой является уникальным клиническим наблюдением, подобных наблюдений в доступной нам литературе выявить не удалось. Следует отметить отсутствие жалоб и клинических проявлений заболевания у ребенка. Несмотря на подростковый возраст девочки, патология не была диагностирована на профилактических осмотрах и оказалась случайной находкой при выполнении пан-КТ по поводу травмы. Но и здесь мы столкнулись с трудностями диагностики изолированного удвоения ЖКТ. При первичной СКТ, выполненной без контрастирования ЖКТ, диагностировать кишечную дубликатуру нам не удалось. И только использование возможностей современных технологий визуализации (МРТ, СКТ с контрастированием ЖКТ) позволило установить правильный диагноз и тем самым выбрать эффективную хирургическую тактику и минимизировать хирургическую агрессию. Случайное выявление объёмных образований в животе, не являющихся причиной кишечной непроходимости, не требует экстренного хирургического вмешательства. В подобных ситуациях необходимы дообследование с использованием современных технологий для уточнения топографии образования и выявление возможных сопутствующих пороков развития; консультация онколога и исследование уровня онкомаркеров для исключения злокачественной природы образования; исследование крови на эхинококкоз при выявлении кист; и только потом – принятие решения о хирургическом лечении.

Заключение

Использование возможностей современных методов визуализации позволяет поставить точный диагноз при редких хирургических заболеваниях до операции, определить хирургическую тактику и минимизировать хирургическую агрессию за счет малоинвазивных технологий.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

ЛИТЕРАТУРА

1. Адамян Л.В., Поддубный И.В., Глыбина Т.М., Федорова Е.В. *Лапароскопия при кистах яичника и брюшной полости у девочек*. М.: ГЭОТАР-Медиа; 2007.
2. Богданова Е.А. *Гинекология детей и подростков*. М.: Медицинское информационное агентство; 2000.
3. Цхай В.Б., Брехова И.С., Котова О.И., Андреева А.А.. Клинический случай гигантской тератомы яичника у юной пациентки. *Сибирское медицинское обозрение*. 2015; 95-8.

4. Гуркин Ю.А. *Гинекология подростков : руководство для врачей*. СПб.: Фолиант; 2000.
5. Машков А.Е., Пыхтеев Д.А., Сигачев А.В., Щербина В.И., Гаганов Л.Е. Видеоассистированное удаление кистозной формы удвоения тощей кишки больших размеров. *Детская хирургия*. 2015; 19(6): 55–6.
6. Карасева О.В., Харитоновна А.Ю., Горелик А.Л., Кисляков А.Н., Коваленко М.И. Удвоение подвздошной кишки, осложненное рецидивирующими кишечными кровотечениями и кишечной непроходимостью. Клиническое наблюдение. *Детская хирургия*. 2018; 22(2): 105-9.
7. Разумовский А.Ю., Смирнов А.Н., Холостова В.В., Гавриленко Н.В.. Удвоение желудочно-кишечного тракта у детей. *Детская хирургия*. 2018; 22 (2): 61-4.
8. Журило И.П., Фоменко С.А., Литовка В.К., Перунский В.П., Лепихов П.А., Гунькин А.Ю. Редкие варианты удвоения пищеварительного тракта у детей. *Вестник неотложной и восстановительной медицины*. 2011; 12(2): 177–82.
9. Аскельров М.А., Киргизов И.В., Цап Н.А., Абушкин И.А., Смоленцев М.М., Емельянова В.А. Полное удвоение левых отделов толстой кишки, открывающихся свищем в преддверии влагалища (клиническое наблюдение). *Детская хирургия*. 2017; 21(3): 165–6.
10. Stringer M.D. Gastrointestinal duplications. In: *Pediatric Surgery*. Berlin: Springer-Verlag; 2006: 239–56.

REFERENCES

1. Adamyan L.V., Poddubny I.V., Glybina T.M., Fedorova E.V. *Laparoscopy for ovarian and abdominal cysts in girls [Лапароскопия при кистах яичника и брюшной полости у девочек]*. GEOTAR-Media; 2007. (in Russian)
2. Bogdanova E.A. *Gynecology of children and adolescents [Гинекология детей и подростков]*. Moscow: Meditsinskoe informatsionnoe agentsvo; 2000. (in Russian)
3. Tskhai V.B., Brekhova I.S., Kotova O.I., Andreeva A.A.. A clinical case of giant ovarian teratoma in a young patient. *Siberskiy meditsinskiy zhurnal*. 2015: 95-8. (in Russian)
4. Gurkin Y.A. *Gynecology of adolescents: a guide for doctors [Гинекология подростков: руководство для врачей]*. St. Petersburg : Foliant; 2000. (in Russian)
5. Mashkov A.E., Pykhteev D.A., Sigachev A.V., Shcherbina V.I., Gaganov L.E. Videoassisted removal of the cystic form of doubling of the large intestine. *Detskaya khirurgiya*. 2015; 19 (6): 55–6. (in Russian)
6. Karaseva O.V., Kharitonova A.Y., Gorelik A.L., Kislyakov A.N., Kovalenko M.I. Doubling of the ileum, complicated by recurrent intestinal bleeding and intestinal obstruction. Clinical observation. *Detskaya khirurgiya*. 2018; 22 (2): 105-9. (in Russian)
7. Razumovsky A.Y., Smirnov A.N., Kholostova V.V., Gavrilenko N.V. Doubling of the gastrointestinal tract in children. *Detskaya khirurgiya*. 2018; 22 (2): 61-4. (in Russian)
8. Zhurilo I.P., Fomenko S.A., Litovka V.K., Perunsky V.P., Lepikhov P.A., Gunkin A.Y. Rare options for doubling the digestive tract in children. *Vestnik neotlozhnoy i vosstanovitel'noy meditsiny*. 2011; 12 (2): 177–82. (in Russian)
9. Askelrov M.A., Kirgizov I.V., Tsap N.A., Abushkin I.A., Smolentsev M.M., Emelyanova V.A. Complete doubling of the left colon, opening with a fistula in anticipation of the vagina (clinical observation). *Detskaya khirurgiya*. 2017; 21 (3): 165–6.
10. Stringer M.D. Gastrointestinal duplications. In: *Pediatric Surgery*. Berlin: Springer-Verlag; 2006: 239–56.

Поступила 27 сентября 2019
Принята в печать 09 декабря 2019