

Otrzymano:

27.01.2017

Zaakceptowano:

28.03.2017

Opublikowano:

30.06.2017

Słowa kluczowezdwojenie układu
pokarmowego,
guzy jamy brzusznej
u płodu,
wady wrodzone,
diagnostyka
prenatalna,
badanie
ultrasonograficzne**Keywords**enteric duplication
cyst,
fetal abdominal
masses,
congenital
abnormalities,
prenatal diagnosis,
ultrasound**Fala perystaltyczna jako przydatne narzędzie w prenatalnej diagnostyce różnicowej torbieli jamy brzusznej****A reminder of peristalsis as a useful tool in the prenatal differential diagnosis of abdominal cystic masses**Eugenio O. Gerscovich, Simran Sekhon, Thomas W. Loehfelm,
Sandra L. Wootton-Gorges, Adam Greenspan*Katedra Radiologii, Wydział Medyczny Uniwersytetu Kalifornijskiego Davis Health,
Sacramento, Kalifornia, USA**Adres do korespondencji: Eugenio O. Gerscovich, MD, Department of Radiology
University of California, Davis Medical Center, 4860 Y Street, Suite 3100, Sacramento, CA 95817,
tel.: (916) 734-0371, fax: (916) 734-6548, e-mail: eogerscovich@ucdavis.edu*

DOI: 10.15557/JoU.2017.0019

Abstract

With routine antenatal ultrasound and recent advances in ultrasound technology, fetal intraabdominal cystic masses are recognized more often and are better characterized than in the past. They may be classified as solid and cystic, and may originate from multiple structures. When considering the extensive differential diagnosis of cystic masses, the observation of peristalsis narrows the possibilities to the gastrointestinal tract. To find this feature on ultrasound, the examiner must expressly think and look for it, otherwise it may be missed. Our case report illustrates one of those cases.

Opis przypadku

Trzydziestotrzyletnia pacjentka (ciąża 4., wcześniejsze rozwiązania 3, trymestr III) została skierowana do naszej placówki w celu sprawowania opieki położniczej z ciążą bliźniaczą dwukosmówkową dwuowodniową w 29,4 Hbd. Dostarczona dokumentacja medyczna wykazywała symetryczny wzrost obu płodów oraz guz wielkości 1 cm, umiejscowiony w pobliżu prawej nerki płodu A, wykryty w badaniu ultrasonograficznym w 21. tygodniu ciąży. W poprzedniej ciąży u matki rozpoznano cukrzycę ciężarnych, kontrolowaną poprzez stosowanie odpowiedniej diety.

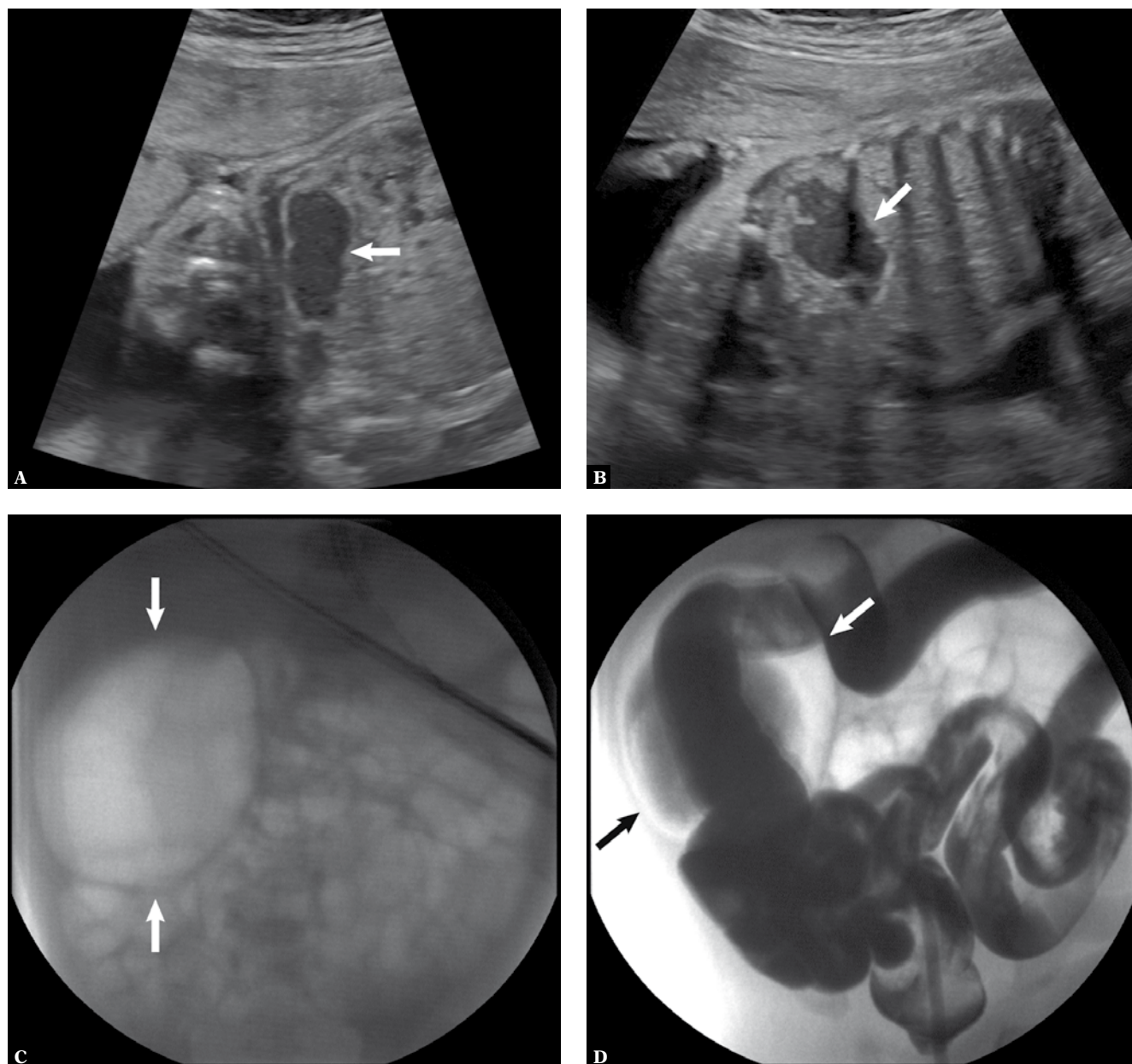
W badaniu fizykalnym pacjentki w naszej placówce stwierdzono BMI 30,45 kg/m², a wyniki badań laboratoryjnych wykazały cukromocz. Nieinwazyjne badanie prenatalne (*noninvasive prenatal testing*, NIPT) wskazywało na niskie ryzyko wystąpienia anomalii chromosomalnych u płodów.

Pierwsze badanie ultrasonograficzne przeprowadzone w naszej placówce, w 30,5 Hbd według terminu ostatniej

miesiączki, 29,6 Hbd według pomiarów USG, nie wykazało niepokojących objawów poza obecnością rurowatej struktury torbielowatej w okolicy podwątrobowej u płodu A, o wymiarach 3,2 × 1,5 cm. Szczegółowe badanie wykazało obecność fali perystaltycznej w strukturze (ryc. 1 A i B). Badanie kontrolne w 33 Hbd według ostatniej miesiączki, 32,4 Hbd według pomiarów USG wykazało prawidłowy wzrost obu płodów, ruchy płodów oraz zwiększenie się wymiarów zmiany do 4,9 × 1,8 cm. W zmianie ponownie zaobserwowano falę perystaltyczną. Płyn w świetle badanej struktury był lekko echogeniczny (film 1 i film 2 – dostępne w wersji elektronicznej artykułu na www.jultrason.pl).

W żadnym z badań nie zaobserwowano poszerzenia jelita, wolnego płynu w jamie brzusznej ani zwapnień. Pęcherzyk żółciowy był prawidłowy. W diagnostyce różnicowej uwzględniono zdwojenie jelita, atrezję, zwężenie jelita oraz uchyłek Meckela.

U pacjentki wystąpiły przedwczesne niekontrolowane skurcze porodowe, w związku z czym przeprowadzono ce-



Ryc. 1. Zdwojenie jelita: **A.** Płód, 29,6 Hbd. Zmiana w spoczynku (strzałka). **B.** Zmiana (strzałka) w trakcie fali perystaltycznej. **C.** Noworodek jednodniowy. Na zdjęciu rentgenowskim widoczna zawartość gazowa wewnątrz zmiany (strzałki) z obecnym prawidłowym obrazem gazów jelitowych. **D.** Wlew dojelitowy z kontrastem uwidocznił zmatowienie okrężnicy i dużej części jelita cienkiego. Widoczna penetracja zmiany (strzałki)

sarskie cięcie bez powikłań w 35,3 Hbd. Płód A, u którego stwierdzono nieprawidłową strukturę w jamie brzusznej, był niemowlęciem płci męskiej z wynikiem Apgar 7 w 1. minucie życia oraz 9 w 5. minucie życia, o masie urodzeniowej 2385 g. Badanie fizykalne noworodka wykazało miękki brzuch, brak tkliwości na dotyk, brak wyczuwalnego guza oraz prawidłowe odgłosy perystaltyki jelit.

W tym samym dniu u noworodka przeprowadzono badanie z podaniem wlewu doodbytniczego z kontrastem niejonowym. W badaniu wstępnie uwidoczniło struktu-

rę wypełnioną gazem (odpowiadającą obrazowi ultrasonograficznemu struktury wypełnionej płynem w badaniu prenatalnym) w prawej części jamy brzusznej oraz ogólnie prawidłowy obraz gazów jelitowych (ryc. 1 C). Podanie kontrastu nie uwidoczniło anomalii okrężnicy ani też dystalnego odcinka jelita krętego. Po dotarciu do środkowej części jelita krętego kontrast został uwidoczniiony wewnątrz zmiany (ryc. 1 D).

Następnego dnia noworodek poddany został laparotomii eksploracyjnej. Znaleziono i usunięto miejscowo poszerzo-

ny odcinek proksymalnego fragmentu jelita krętego wraz ze zrostami ze strukturami sąsiadującymi. Zgodnie z wynikami wcześniejszych badań obrazowych nie stwierdzono niedrożności proksymalnego odcinka jelit. Badanie histopatologiczne usuniętych tkanek wykazało odcinek jelita cienkiego o długości 10,2 cm i maksymalnej średnicy 3,2 cm. W niskodawkowym obrazie podglądowym (*scout radiograph*) uzyskanym przed podaniem wlewu dojelitowego z kontrastem miejscowe poszerzenie jelita wypełnione gazem miało wymiary 5 × 4,3 cm. Na obu końcach zmiana była otwarta oraz drożna, w świetle struktury stwierdzono obecność kleistego materiału o brązowym zabarwieniu. Obecne były wszystkie warstwy ściany jelita, łącznie ze śródściennymi zwojami nerwowymi. Wyniki badania histopatologicznego były charakterystyczne dla zdwojenia przewodu pokarmowego.

Okres pooperacyjny przebiegał bez powikłań. Noworodek został wypisany do domu w 16. dniu po zabiegu.

Omówienie

Dzięki rutynowym ultrasonograficznym badaniom prenatalnym oraz postępie technologicznym w dziedzinie badań ultrasonograficznych częściej niż w przeszłości wykrywane są oraz lepiej rozpoznawane guzy jamy brzusznej u płodu. Diagnostyka różnicowa powinna uwzględniać kilka możliwych jednostek chorobowych w zależności od umiejscowienia guza, jak też płci płodu. Guzy te można podzielić na dwie grupy: uwidaczniające się w I trymestrze oraz stwierdzone pod koniec II trymestru lub w III trymestrze ciąży.

Torbiele usytuowane w jamie brzusznej są rzadkie w I trymestrze, zazwyczaj wiążą się z dobrym rokowaniem i mogą ulegać samoistnej regresji. W przeważającej części są one zmianami pojedynczymi, aczkolwiek znane są także przypadki zmian o charakterze torbielowatym powiązanych z innymi anomaliami budowy płodu, takimi jak wady wrodzone odbytu i odbytnicy, torbiele dróg żółciowych, torbiele wątroby, zdwojenie jelita krętego, a nawet obumarcie płodu⁽¹⁾. Jedna z dostępnych publikacji opisuje przypadek torbieli zaobserwowanej pomiędzy 14. a 16. tygodniem ciąży, która następnie samoistnie ustąpiła, jednak u dziecka w wieku 7 miesięcy doszło do nagłego skrętu jelit⁽²⁾.

Zmiany torbielowate zaobserwowane pod koniec II trymestru oraz w III trymestrze ciąży również są rzadkie. Mogą one wywodzić się praktycznie z dowolnego narządu. Najczęściej dotyczą nerek, w przypadku których może dojść do wielotorbielowatej dysplazji bądź też zdwojenia układu zbiorczego. Wśród innych narządów, w których może dojść do tego typu wad rozwojowych, wymienia się m.in. nadnercza, wątrobę, śledzionę, osierdzie, sieć większą i mniejszą⁽³⁾.

Torbiele przewodów żółciowych występują w okolicy podwątrobowej oraz w pęcherzyku żółciowym i przewodach żółciowych. Torbiele jajników u dziewczynek mają zazwyczaj charakter funkcyjny, łagodny i rzadko uwidaczniają się przed 23. tygodniem. Zazwyczaj są to torbiele proste,

występujące pojedynczo, bywają jednak zlokalizowane obustronnie. Charakteryzują się dużą ruchomością i mogą znajdować się w dowolnej lokalizacji w jamie brzusznej⁽³⁾. Pęcherz moczowy olbrzymi jest wadą rozwojową polegającą na powiększeniu pęcherza, powiązanym zazwyczaj z obecnością zastawki cewki tylnej u chłopców. Z powodu niedrożności dróg moczowych wadzie tej towarzyszy często małowodzie⁽⁴⁾. W obrębie przewodu pokarmowego najczęstszą przyczyną perinatalnej niedrożności jelit jest atrezja dwunastnicy. Widoczny jest wówczas klasyczny objaw radiologiczny „podwójnej bańki”. W 30% przypadków wada ta wiąże się z występowaniem zespołu Downa. Może być też powiązana z innymi malformacjami przewodu pokarmowego, takimi jak atrezja przełyku⁽⁵⁾. Torbiele krezki, sieci większej lub mniejszej czy też osierdzia klasyfikowane są jako błędniki limfatyczne i występują zazwyczaj pojedynczo i bez powiązania z innymi wadami. Podobnie jest w przypadku naczynek limfatycznych⁽⁶⁾. Torbiele moczownika rozpoznaje się na podstawie ich lokalizacji i połączenia z pęcherzem moczowym. Pseudotorbiele smółkowe powstają na skutek perforacji jelita i spowodowanego chemicznego (smółkowego) zapalenia otrzewnej. Towarzyszą im wodobrzusze oraz zwapnienia otrzewnej, a same torbiele mają grube ściany. Często współwystępują również z poszerzeniem jelita, obrzękiem uogólnionym płodu oraz wielowodzie⁽⁷⁾. Uchylek Meckela jest jedną z najczęstszych wad wrodzonych przewodu pokarmowego, obserwowaną u 2% populacji. Tworzą go wszystkie warstwy ściany przewodu pokarmowego, a w 50% przypadków występować może herotopia żołądkowa z powiązanymi potencjalnymi powikłaniami. W obrębie tej malformacji zaobserwować można falę perystaltyczną, możliwa jest też niedrożność jelit⁽⁸⁾.

Forma torbielowata zdwojenia przewodu pokarmowego (torbiele enterogenne) występować może w dowolnej lokalizacji w przewodzie pokarmowym, częściej spotykana jest jednak w dwunastnicy oraz kątnicy. Powstaje w wyniku nieudanej rekanalizacji cewy pokarmowej. Zdwojenie przyjmuje formę kulistą lub rurowatą i może, lecz nie musi, komunikować się z przewodem pokarmowym. Umiejscowione jest wzdłuż krezki jelita i uwidacznia się jako struktura torbielowata o grubych ścianach. Typowa dla przewodu pokarmowego trójwarstwowa budowa ściany może nie być widoczna w prenatalnym badaniu ultrasonograficznym. W obrębie torbieli zauważyć można falę perystaltyczną, jak w naszym przypadku. Zmiana może powodować powikłania, takie jak niedrożność, skręt czy wgłobienie jelita, a także krwawienie z heterotopii żołądkowej⁽⁹⁾. Tym samym diagnostyka prenatalna jest niezwykle istotna, jako że pozwala na staranne zaplanowanie interwencji chirurgicznej, mającej na celu zapobiegnięcie powikłaniom poprzez resekcję torbieli.

Pomimo że zakres diagnostyki różnicowej torbieli jamy brzusznej płodu jest niezwykle szeroki, podejście systemowe pozwala na zawężenie spektrum możliwych jednostek chorobowych. W pierwszym etapie postępowania diagnostycznego należy wykonać badanie dopplerowskie, co pozwala na wykluczenie potencjalnych zmian naczyniowych. Kolejnym krokiem jest uwzględnienie takich czynników,

jak lokalizacja guza, płęć płodu oraz potencjalne dodatkowe objawy, takie jak zwapnienia, uogólniony obrzęk płodu czy wielowodzie, by zawęzić kryteria diagnostyczne. Ostateczne dokładne rozpoznanie jest możliwe dzięki starannej ocenie cech samego guza, takich jak jego kształt, grubość ścian, rodzaj zawartości płynowej czy właśnie obecność fali perystaltycznej w obrębie struktury.

Objaw perystaltyczny u płodów ze zdwojeniem przewodu pokarmowego oraz uchyłkiem Meckela był opisywany w literaturze. Ponieważ jest to cecha dość swoista dla tych dwóch rodzajów wad rozwojowych, powinno się ją poddawać starannej ocenie: w badaniu ultrasonograficznym należy dokonać powiększenia obrazu zmiany, a następnie przytrzymać głowicę w jednym miejscu przez dłuższy czas w oczekiwaniu na powolne falowe skurcze ścian badanej zmiany. Jest to niezwykle subtelny objaw, który może pozostać niezarejestrowany, jeśli nie poświęci mu się należytej uwagi w badaniu. W literaturze dostępny jest opis przypadku rzadkiego odcinkowego poszerzenia kątnicy u płodu bez współwystępującej niedrożności, w którym objawy były podobne, to jest stwierdzono guza o charakterze

torbielowatym z obecną falą perystaltyczną⁽¹⁰⁾. Zdaniem autorów niniejszej pracy opisywany przez nich przypadek można przypisać do tej samej kategorii.

Wnioski

Podsumowując, szczegółowa diagnostyka guzów enterogennych o charakterze torbielowatym może nastęrczać trudności. W przypadkach, gdy badanie ultrasonograficzne wykazuje zmianę torbielowatą jamy brzusznej u płodu z obecną falą perystaltyczną, co jest cechą dość swoistą dla zmian wywodzących się z przewodu pokarmowego, należy zawsze wziąć pod uwagę, że możemy mieć do czynienia ze zdwojeniem jelita.

Konflikt interesów

Autorzy pracy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami.

Piśmiennictwo

1. Khalil A, Cooke PC, Mantovani E, Bhide A, Papageorgiou AT, Thilaganathan B: Outcome of first-trimester fetal abdominal cysts: cohort study and review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2014; 43: 413–419.
2. Sepulveda W, Dickens K, Casasbuenas A, Gutierrez J, Dezerega V: Fetal abdominal cysts in the first trimester: prenatal detection and clinical significance. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2008; 32: 860–864.
3. Agarwal R: Sonographic assessment of fetal abdominal cystic lesions: a pictorial essay. *Indian J Radiol Imaging* 1999; 9: 169–182.
4. Berrocal T, López-Pereira P, Arjonilla A, Gutiérrez J: Anomalies of the distal ureter, bladder, and urethra in children: embryologic, radiologic, and pathologic features. *Radiographics* 2002; 22: 1139–1164.
5. Chitty LS, Goodman J, Seller JM, Maxwell D: Esophageal and duodenal atresia in a fetus with Down's syndrome: prenatal sonographic features. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1996; 7: 450–452.
6. Mostofian E, Ornvold K, Latchaw L, Harris RD: Prenatal sonographic diagnosis of abdominal mesenteric lymphangioma. *J Ultrasound Med* 2004; 23: 129–132.
7. Eckoldt F, Heling KS, Woderich R, Kraft S, Bollmann R, Mau H: Meconium peritonitis and pseudo-cyst formation: prenatal diagnosis and post-natal course. *Prenat Diagn* 2003; 23: 904–908.
8. Rushford MP, Stys SJ, Latchaw LA, Kasales C, Vaccaro T: Prenatal sonographic detection of Meckel diverticulum in utero with postnatal radiologic and surgical confirmation. *J Ultrasound Med* 2004; 23: 319–321.
9. Prada Arias M, García Lorenzo F, Montero Sánchez M, Muguerra Velibre R: Enteric duplication cyst resembling umbilical cord cyst. *J Perinatol* 2006; 26: 368–370.
10. Waters KJ, Levine D, Lee EY, Buonomo C, Buchmiller TL: Segmental dilatation of the ileum: diagnostic clarification by prenatal and postnatal imaging. *J Ultrasound Med* 2007; 26: 1251–1256.