

Илеоцекальная инвагинация на фоне метастаза меланомы в подвздошной кишке: клинический случай и обзор литературы

М.А. Данилов, А.О. Атрощенко, С.В. Поздняков, Г.Г. Саакян

ГБУЗ «Московский клинический научно-практический центр им. А.С. Логинова»
Департамента здравоохранения г. Москвы, г. Москва, Российская Федерация

Ileocecal intussusception in a patient with ileal melanoma metastasis: clinical case and review of the literature

M.A. Danilov, A.O. Atroschenko, S.V. Pozdnyakov, G.G. Saakyan

Moscow Clinical Scientific Center, Moscow, Russia Federation

Цель клинического наблюдения. Выбор оптимальной тактики хирургического лечения инвагинации кишечника.

Основные положения. Кишечная инвагинация — очень редкая патология, особенно у взрослых, причиной развития которой могут быть как доброкачественные, так и злокачественные новообразования. Часто кишечная инвагинация бывает случайной диагностической находкой, однако описаны случаи клинически выраженных инвагинаций, вызвавших нарушение пассажа по кишечнику. Значимый вклад в диагностику данной патологии вносят ультразвуковое исследование и эндоскопия, но иногда приходится использовать такие методы, как компьютерная и магнитно-резонансная томография. Тактика хирургического лечения кишечной инвагинации разнообразна — от консервативного расправления инвагината до расширенной резекции участка кишки. В данном клиническом примере описан случай развития илеоцекальной инвагинации на фоне метастаза меланомы в подвздошной кишке.

Ключевые слова: инвагинация, меланома, кишечная непроходимость.

Aim of clinical case presentation. Choice of optimal surgical approach for treatment of intestinal intussusception.

Key points. Intestinal intussusception is a rare condition, especially in adults, which can develop due to both benign and malignant neoplasms. Commonly intestinal intussusception is an accidental diagnostic finding, however cases of clinically severe intussusception resulting in impaired passage of intestinal content are described in the literature. Ultrasound investigation and endoscopy contribute significantly to diagnosis of this pathology; however in certain cases computer and magnetic-resonance tomography are required. Surgical approach in intestinal intussusception varies widely from conservative reposition of intussuscepted loop to expanded resection of intestinal segment. Clinical case of ileocecal intussusception caused by melanoma metastasis to the ileum is presented.

Key words: intussusception, melanoma, intestinal obstruction.

Данилов Михаил Александрович — кандидат медицинских наук, старший научный сотрудник отделения колопроктологии ГБУЗ «Московский клинический научно-практический центр им. А.С. Логинова» ДЗМ.
Контактная информация: m.danilov@mknc.ru; 111123, г. Москва, шоссе Энтузиастов, д. 86
Danilov Mikhail A. — MD, senior research associate, coloproctology department, Moscow Clinical Scientific Center.
Contact information: m.danilov@mknc.ru; 111123, Moscow, Entuziastov highway, 86

Поступила: 28.06.2017/Received: 28.06.2017

Для цитирования: Данилов М.А., Атрощенко А.О., Поздняков С.В., Саакян Г.Г. Илеоцекальная инвагинация на фоне метастаза меланомы в подвздошной кишке: клинический случай и обзор литературы. Рос журн гастроэнтерол гепатол колопроктол 2018; 28(3):101-105
DOI: 10.22416/1382-4376-2018-28-3-101-105

For citation: Danilov M.A., Atroschenko A.O., Pozdnyakov S.V., Saakyan G.G. Ileocecal intussusception in a patient with ileal melanoma metastasis: clinical case and review of the literature. Rus J Gasroenterol Gepatol Coloproctol 2018; 28(3):101-105
DOI: 10.22416/1382-4376-2018-28-3-101-105

Актуальность

Кишечная инвагинация у взрослых — очень редкая патология, она составляет около 5% от всех инвагинаций и становится причиной кишечной обструкции не более чем в 4% случаев (0,02% от всех госпитализированных взрослых больных) [1–3]. В большинстве случаев причиной толстокишечной инвагинации являются злокачественные новообразования, тогда как тонкокишечную инвагинацию чаще вызывают доброкачественные заболевания (полипы, липомы, дивертикулы Меккеля и т.д.) [4–6]. Однако не стоит преуменьшать значение злокачественных новообразований, которые также могут стать причиной тонкокишечной инвагинации (первичной или метастатической) [7]. Первое описание кишечной инвагинации относится к 1674 г. (Барбет), первый удачный опыт хирургического лечения взрослого пациента с инвагинацией описал Вилсон в 1831 г., а в 1871 г. Хатчинсон выполнил успешную операцию по поводу кишечной инвагинации у ребенка [8]. Немногочисленность описаний случаев развития данной патологии в мировой литературе и разнообразие причин ее возникновения повышают клинический интерес к вопросам, касающимся кишечной инвагинации у взрослых.

Материал и методы исследования

Пациентке М., 1987 г.р., при рождении был поставлен диагноз «обширный пигментно-волосистой невус с бородавчатым наростом и атрофией подлежащих тканей» (около 50% поверхности тела). В возрасте одного года пациентке произведено выжигание невусов, в юношеском возрасте хирургические и медикаментозные мероприятия не проводили. В 2014 г. удалены новообразования мягких тканей правой ягодицы (диаметром около 5 см), гистологическое заключение — меланома, учитывая отсутствие связи с эпидермисом — метастаз меланомы в кожу, при пересмотре стекол и блоков в Российском онкологическом центре им. Н.Н. Блохина — злокачественная беспигментная меланома. Пациентке выполнено ПЭТ/КТ — наличие специфической метаболической активности ткани в остеолитических очагах IV ребра справа, левой подвздошной кости, S_{VIII} печени, S_{VIII} правого легкого. В дальнейшем выполнено генетическое исследование на мутации — в 61-м

кодоне 3-го экзона гена N-ras обнаружена мутация p.Q61R, в 15-м экзоне гена BRAF мутации не выявлены. В 2015 г. в МНИОИ им. П.А. Герцена выполнена биопсия образований ребра и печени: печень — метастаз эпителиоверетеноклеточной пигментной меланомы, ребро — метастаз злокачественной меланомы с небольшим количеством пигмента. Пациентке установлен диагноз «меланома без первичного выявленного очага», назначена терапия препаратом «Кейтруда».

Описание клинического случая

В 2016 г. у пациентки стали появляться боли в правых отделах живота, в связи с чем она была госпитализирована в хирургический стационар по месту жительства, где была диагностирована кишечная непроходимость, которая была купирована с помощью консервативной терапии. В декабре 2016 г. пациентка обратилась в Московский клинический научный центр с жалобами на выраженные боли в животе. В срочном порядке выполнена колоноскопия: в восходящей ободочной кишке выявлена инвагинированная тонкая кишка, занимавшая $\frac{2}{3}$ просвета, протяженность инвагината около 15 см, в терминальном отделе тонкой кишки обнаружена опухоль диаметром около 4 см, слизистая оболочка над образованием с эрозиями и наложениями фибрина (вероятно, стромального характера), биопсию не выполняли в связи с высоким риском возникновения кровотечения (рис. 1).

Результаты КТ органов брюшной полости — картина инвагинации терминального отдела подвздошной кишки в слепую и восходящую кишку, кровоток на уровне инвагината прослеживается (рис. 2).

С учетом клинической картины непроходимости пациентке выполнено оперативное вмешательство в объеме правосторонней гемиколэктомии с D3-лимфаденэктомией (рис. 3) и формированием ручного илеотрансверзоанастомоза (принимая во внимание отсутствие морфологической верификации опухоли и невозможность исключить злокачественное поражение, операция выполнена в указанном выше объеме).

Результаты гистологического и иммуногистохимического исследований — беспигментный метастаз меланомы, в 29 лимфатических узлах метастазов нет, в клетках опухоли определяется экспрессия S100, CD117, HMB45



Рис. 1. Эндоскопическая картина инвагината
Fig. 1. Endoscopic view of intussuscepted bowel



Рис. 2. КТ органов брюшной полости
Fig. 2. Abdominal CT



Рис. 3. Инвагинат (интраоперационное фото) и удаленный макропрепарат
Fig. 3. Intussuscepted bowel (intraoperational photo) and resected macrospecimen

Melan A. Послеоперационный период без особенностей, пациентка выписана на 6-е сутки послеоперационного периода. В настоящее время она продолжает терапию кейтрудой, при контрольном ПЭТ/КТ обнаружены очаги в печени, легком, ребре и подвздошной кишке без динамики, свежие очаги не выявлены.

Обсуждение

Илеоцекальная инвагинация у взрослых — очень редкая патология [9, 10]. Чаще инвагинация происходит в тех отделах кишки, где имеется избыточная подвижность ее участков относительно друг друга, в большинстве случаев между пет-

лей кишки, свободно лежащей в брюшной полости, и забрюшинно расположенной [11]. Однако настоящая причина инвагинации до сих пор неясна, по-видимому, любое поражение стенки кишки или наличие раздражающего вещества в ее просвете, которые изменяют нормальную перистальтическую активность, могут инициировать инвагинацию. Часть кишки, которая вворачивается в дистальный участок, называется инвагинатом. Во время инвагинации возникает отек кишечной стенки инвагината, вследствие чего нарушается кровообращение и при несвоевременном выполнении вмешательства может развиваться некроз этого участка кишки. Из описанных в литературе случаев следует, что илеоцекальная инваги-

нация чаще наблюдается у женщин в возрасте 50–70 лет [12]. У детей 90% инвагинаций идиопатического характера.

Различают тонко-тонкокишечную инвагинацию [13]; тонко-толстокишечную, когда участок тонкой кишки инвагинирует в толстую кишку без вовлечения аппендикулярного отростка; тонко-слепокишечную (илеоцекальная), когда инвагинатом являются терминальный отдел подвздошной кишки и илеоцекальный сегмент вместе с аппендикулярным отростком; толсто-толстокишечную (в том числе колоректальная), когда инвагинация ограничивается толстой и прямой кишкой без протрузии в анальный канал [14, 15]. Более половины толстокишечных инвагинаций — это следствие злокачественных новообразований, причиной колоректальных инвагинаций чаще бывает метастатическое поражение прямой кишки при раке легких или меланоме.

Симптоматика у таких пациентов неспецифична, у них могут наблюдаться боли в животе (у 70%), тошнота и рвота (у 68%), напряжение мышц передней брюшной стенки (у 45%). Фебрильная температура, примесь крови в каловых массах или мелена отмечаются очень редко [16]. В большинстве случаев инвагинация дебютирует возникновением болевого синдрома, пальпаторно определяется болезненный инфильтрат, повышаются лейкоцитоз и уровень С-реактивного белка.

На обзорной рентгенограмме брюшной полости чаще всего определяются раздутые газом петли кишечника, а диагноз устанавливают на основании результатов УЗИ и КТ органов брюшной полости. Обзорная рентгенография брюшной полости служит первым диагностическим инструментом, по ее результатам можно судить о наличии кишечной непроходимости и косвенно — о стороне обструкции. Большую диагностическую ценность имеют контрастные рентгенологические исследования, на рентгенограммах инвагинат в верхних отделах желудочно-кишечного тракта может выглядеть как «сложенные монеты» или «спиральная пружина». Бариевая клизма полезна при толстокишечных и илеоцекальных инвагинациях, рентгенологический признак которых — наличие чашеобразного дефекта наполнения. Однако выполнение бариевой клизмы может быть противопоказано при картине непроходимости или признаках ишемии [12].

Колоноскопия — очень полезный диагностический инструмент, особенно при подозрении на наличие толстокишечного инвагината. Эндоскопическую биопсию следует проводить с осторожностью из-за риска перфорации на фоне ишемии кишки [16, 17].

УЗИ при инвагинации характеризуется высокой информативностью и точностью [18]. Классические ультразвуковые признаки, такие

как «мишень» в поперечной плоскости и «псевдопочка» в продольной, наблюдаются практически у всех пациентов при инвагинации, однако имеется один большой недостаток — исследование затруднено при раздутых газом петлях, а такое состояние при наличии инвагината не редкость [19].

В последнее время КТ используют как основной метод диагностики при наличии неспецифической абдоминальной симптоматики после рентгенографии брюшной полости [20]. На томограммах в аксиальных проекциях инвагинат выглядит как «мишень» с эксцентрично расположенным «ободком» пониженной денситометрической плотности. По мере нарастания выраженности ишемии в инвагинируемой кишке эффект наслаивания усиливается и картина «мишени» становится более выразительной. Данные, полученные в последние годы, свидетельствуют о высокой диагностической информативности КТ, которая превосходит даже ультрасонографию и эндоскопические методы в диагностике инвагинации.

Эффективность МРТ в диагностике инвагинации сопоставима с таковой КТ, общие характеристики картины инвагината схожи, однако МРТ часто имеет преимущества, такие как более быстрое проведение исследования по сравнению с КТ и отсутствие негативного эффекта от бария, помарки которого часто остаются в кишке [21–23].

Самым важным моментом при выборе тактики лечения инвагинации остается решение вопроса о необходимости расправления инвагината или выполнении первичной резекции [16]. Показаниями к резекции единым блоком являются наличие злокачественного новообразования, а также невозможность дифференцировать доброкачественную и злокачественную природу новообразования [24]. При небольшом инвагинате некоторые хирурги рекомендуют ликвидировать ее механически, однако при наличии в инвагинате малигнизированной опухоли расправление может спровоцировать внутрипросветную опухолевую диссеминацию или венозную эмболизацию, поэтому при возникновении сомнений следует выполнять расширенную резекцию кишки [25]. Однако механические манипуляции с инвагинатом могут привести к образованию десерозированных участков, а иногда и к перфорации стенки кишки [26]. По мере накопления опыта лечения кишечной инвагинации сформировалась точка зрения, согласно которой тонко-тонкокишечные инвагинации сначала следует попытаться ликвидировать механически, а при илеоцекальных и толсто-толстокишечных целесообразнее выполнить резекцию [27]. Мини-инвазивные вмешательства при кишечной инвагинации производят как с диагностической, так и с лечебной целью, но чаще при небольших инвагинациях [28]. Выбор доступа

зависит от ряда факторов: соматического состояния пациента, локализации и степени выраженности инвагинации, опыта хирурга [29, 30].

Заключение

Инвагинация кишечника у взрослых — очень редко встречающаяся патология, которая проявляется неспецифическими симптомами. Компьютерная томография брюшной полости

является самым информативным методом визуализации кишечной инвагинации. Хирургическое лечение в большинстве случаев заключается в резекции вовлеченного в патологический процесс сегмента кишки. Расправление инвагината без резекции целесообразно лишь в том случае, если есть полная уверенность в жизнеспособности кишки и отсутствуют данные о наличии злокачественного поражения.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Conflict interest. The authors declare no conflict of interest.

Список литературы/References

- Alonso V., Targarona E.M., Bendahan G.E., Kobus C., Moya I., Cherichetti C., Balagué C., Vela S., Garriga J., Trias M. Laparoscopic treatment for intussusception of the small intestine in the adult. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2003; 13:394-6.
- Azar T., Berger D.L. Adult intussusception. *Ann Surg* 1997; 226:134-8.
- Tan K.Y., Tan S.M., Tan A.G., Chen C.Y., Chng H.C., Hoe M.N. Adult intussusception: experience in Singapore. *ANZ J Surg* 2003; 73:1044-7.
- 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; 13:39-41.
- Zanoni E.C., Averbach M., Borges J.L., Corrêa P.A., 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; 13:280-2.
- Jelenc F., Brencic E. Laparoscopically assisted resection of an ascending colon lipoma causing intermittent intussusception. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2005; 15:173-5.
- Yamada H., Morita T., Fujita M., Miyasaka Y., Senmaru N., Oshikiri T. Adult intussusception due to enteric neoplasms. *Dig Dis Sci* 2007; 52:764-6.
- Yalamarthi S., Smith R.C. Adult intussusception: case reports and review of literature. *Postgrad Med J* 2005; 81:174-7.
- Begos D.G., Sandor A., Modlin I.M. The diagnosis and management of adult intussusception. *Am J Surg* 1997; 173:88-94.
- Felix E.L., Cohen M.H., Bernstein A.D., Schwartz J.H. Adult intussusception; case report of recurrent intussusception and review of the literature. *Am J Surg* 1976; 131:758-61.
- Weilbaeher D., Bolin J.A., Hearn D., Ogden W. 2nd. Intussusception in adults. Review of 160 cases. *Am J Surg* 1971; 121:531-5.
- Wang L.T., Wu C.C., Yu J.C., Hsiao C.W., Hsu C.C., Jao S.W. Clinical entity and treatment strategies for adult intussusceptions: 20 years' experience. *Dis Colon Rectum* 2007; 50:1941-9.
- Sachs M., Encke A. Entero-enteral invagination of the small intestine in adults. A rare cause of «uncertain abdomen». *Langenbecks Arch Chir* 1993; 378:288-91.
- Eisen L.K., Cunningham J.D., Aufses A.H. Jr. Intussusception in adults: institutional review. *J Am Coll Surg* 1999; 188: 390-5.
- Thomas A.W., Mitre R., Brodmerkel G.J. Jr. Sigmoidorectal intussusception from a sigmoid lipoma. *J Clin Gastroenterol* 1995; 21:257.
- Takeuchi K., Tsuzuki Y., Ando T., Sekihara M., Hara T., Kori T., Kuwano H. The diagnosis and treatment of adult intussusception. *J Clin Gastroenterol* 2003; 36:18-21.
- Hurwitz L.M., Gertler S.L. Colonoscopic diagnosis of ileocolic intussusception. *Gastrointest Endosc* 1986; 32:217-8.
- Fujii Y., Taniguchi N., Itoh K. Intussusception induced by villous tumor of the colon: sonographic findings. *J Clin Ultrasound* 2002; 30:48-51.
- Cerro P., Magrini L., Porcari P., De Angelis O. Sonographic diagnosis of intussusceptions in adults. *Abdom Imaging* 2000; 25:45-7.
- Bar-Ziv J., Solomon A. Computed tomography in adult intussusception. *Gastrointest Radiol* 1991; 16:264-6.
- Warshauer D.M., Lee J.K. Adult intussusception detected at CT or MR imaging: clinical-imaging correlation. *Radiology* 1999; 212:853-60.
- Marcos H.B., Semelka R.C., Worawattanakul S. Adult intussusception: demonstration by current MR techniques. *Magn Reson Imaging* 1997; 15:1095-8.
- Tamburrini S., Stilo A., Bertucci B., Barresi D. Adult colocolic intussusception: demonstration by conventional MR techniques. *Abdom Imaging* 2004; 29:42-4.
- Gayer G., Apter S., Hofmann C., Nass S., Amitai M., Zissin R., Hertz M. Intussusception in adults: CT diagnosis. *Clin Radiol* 1998; 53:53-7.
- Barussaud M., Regenet N., Briennon X., de Kerviler B., Pessaux P., Kohneh-Sharhi N., Lehur P.A., Hamy A., Leborgne J., le Neel J.C., Mirallie E. Clinical spectrum and surgical approach of adult intussusceptions: a multicentric study. *Int J Colorectal Dis* 2006; 21:834-9.
- Chang C.C., Chen Y.Y., Chen Y.F., Lin C.N., Yen H.H., Lou H.Y. Adult intussusception in Asians: clinical presentations, diagnosis, and treatment. *J Gastroenterol Hepatol* 2007; 22:1767-71.
- Reijnen H.A., Joosten H.J., de Boer H.H. Diagnosis and treatment of adult intussusception. *Am J Surg* 1989; 158:25-8.
- Kitamura K., Kitagawa S., Mori M., Haraguchi Y. Endoscopic correction of intussusception and removal of a colonic lipoma. *Gastrointest Endosc* 1990; 36:509-11.
- Цхай В.Ф., Клиновичский И.Ю. Редкое наблюдение псевдоопухоли тонкой кишки, осложнившейся инвагинацией. *Бюл сибирск мед* 2013; 1:114-7 [Tskhay V.F., Klinovitsky I.Yu. Rare case of small intestinal pseudoneoplasm complicated by intussusception. *Bul sibirsk med* 2013; 1:114-7].
- Шейкман М.В. Редкий случай инвагинации кишечника. *Вятский мед вестн* 2005; 3-4:90-1 [Sheykman M.V. Rare case of intestinal intussusception. *Vyatsky med vestn* 2005; 3-4:90-1].