

DOI: 10.31636/prmd.v6i1.2

Злоякісна неоплазія в дивертикулі Меккеля — наш досвід

О. Майєр^{1,3}, А. Кучера^{1,3}, О. Доброванов^{2,3}, І. Брихта^{1,3}, М. Відішак^{1,3}

¹ Перша хірургічна клініка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Лікарня ім. академіка Л. Дерера, Братислава, Словаччина

² Клініка дітей та підлітків А. Гетліка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Братислава, Словаччина

³ Словацький медичний університет у Братиславі, Словаччина

Резюме. Дивертикул Меккеля є найпоширенішою вродженою аномалією шлунково-кишкового тракту з поширеністю в загальній популяції 0,9–3%. Серед злоякісних новоутворень дивертикулу Меккеля у відсотковому співвідношенні переважають карциноїди та гастроінтестинальні стромальні пухлини; поширеність аденокарцином становить менше 6% від усіх асоційованих злоякісних новоутворень. Автори представляють рідкісний клінічний випадок 67-річного пацієнта з аденокарциномою шлункового типу в дивертикулі Меккеля з метастатичними вогнищами в обох частках печінки на момент встановлення діагнозу. Випадок демонструє діагностичні й терапевтичні процедури, які привели до правильного діагнозу та задовільного результату лікування. Вони наголошують на важливості використання всіх можливостей діагностики та лікування, а також на необхідності співпраці з іншими фахівцями у правильному лікуванні цього захворювання, висловлюють думку щодо розгляду профілактичної резекції інтраопераційно виявленого дивертикулу Меккеля.

Ключові слова: дивертикул Меккеля, аденокарцинома, метастази, печінка, лікування

Вступ

Дивертикул Меккеля (ДМ) є найпоширенішою вродженою аномалією шлунково-кишкового тракту з поширеністю в загальній популяції 0,9–3% [1–3]. Він розташований на відстані 60–100 см від баугіневої заслінки з антимезентеріального боку клубової кишки. Це залишок ембріональної тканини *ductus omphaloentericus*, частина якого збереглася у вигляді кишкового випинання з відносно широким гирлом [1, 2]. У більшості випадків він безсимптомний, але

в інтервалі від 4 до 40% населення може призвести до ускладнень. При ускладненнях найчастіше зустрічаються ентерорагія, дивертикуліт, механічна кишкова непрохідність, рідше — пухлина або взаємне поєднання етіопатогенетичних факторів [4, 5]. У разі наявності гетеротопної тканини, частота появи якої оцінюється в 50%, вона може містити в собі тканину шлунка чи підшлункової залози або їхню комбінацію. Хоча *Helicobacter pylori* також було виявлено при

МД, зв'язок між кровотечею та цією бактерією не було доведено [6,7].

Епідеміологія коротко пояснюється “правилом двох”, взятим з американської літератури: довжина дивертикулу — 2 дюйми (2 × 2,54 см), розташування — 2 фути від ілеоцекального клапана (2 × 30,48 см), поширеність — 2 % населення, зустрічається найчастіше у віці 2 років, удвічі частіше у чоловіків [1–3].

У минулому “золотим стандартом” діагностики ускладнених МД було контрастне дослідження (*enteroclysis*), на зміну якому прийшла комп'ютерна томографія.

У разі кровоточивого дивертикулу корисною є сцинтиграфія з радіоізотопним технецієм (Tc-99m) або дослідження міченими радіоізотопами еритроцитами. У рамках диференціальної діагностики з метою виключення інших джерел кровотечі використовують езофагогастроуденоскопію та колоноскопію, а також інші дослідження (капсульна ендоскопія, різні види *overtube*-ендоскопії). У періоди спокою МД допоміжні обстеження часто бувають негативні.

Терапія полягає в хірургічній резекції ураженої ділянки клубової кишки та лікуванні можливих ускладнень [1–5].

У нашому клінічному звіті йдеться про одне із зазначених вище рідкісних ускладнень дивертикулу Меккеля — злоякісну неоплазію.

Клінічний випадок

Пацієнт 69-ти років був госпіталізований у 1-й хірургічній клініці Словацького медичного університету та університетської лікарні у м. Братислава з приводу хронічного болю в животі із загостренням протягом останніх двох днів. Хворому раніше проводили консервативне лікування з антибіотикотерапією з приводу підозри на дивертикуліт. Сімейний анамнез був без особливостей, без онкологічних захворювань. В особистому анамнезі є відомості про артеріальну гіпертензію, прийом антигіпертензивних препаратів, стан після апендектомії (АЕ) та холецистектомії (ХЕ). Алергологічний анамнез негативний.

Об'єктивно живіт був трохи вище рівня грудної клітки, рефлексії в нормі, перкусія болюча в обох нижніх відділах живота, пальпація утруднена зі значною пальпаторною чутливістю під пупком та в правому мезогіпогастрії, без резистентності, печінка та селезінка не збільшені, пах вільний, рубці

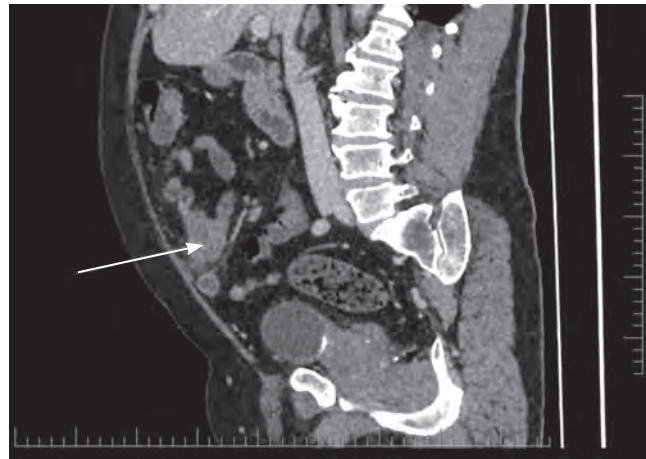


Рис. 1. КТ-зображення в сагітальній проекції, інфільтрат дивертикулу Меккеля позначено стрілкою.

Джерело: Архів авторів, 1-ша хірургічна клініка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Лікарня ім. академіка Л. Дерера, Братислава, Словаччина

після АЕ та ХЕ загоєні, тверді, без ознак грижі. Дослідження *per rectum* та останній огляд, крім підвищення артеріального тиску, не виявили патологічних змін.

Під час госпіталізації хворому виконано комп'ютерну томографію (КТ) черевної порожнини та малого таза з контрастуванням — виявлено запальний дивертикул Меккеля та множинні неспецифічні кістозні утворення печінки (рис. 1).

Беручи до уваги ознаки рецидиву запалення дивертикулу, показане було оперативне втручання під загальним наркозом. Проведено лапароскопічне дослідження черевної порожнини з інтраопераційним виявленням запаленої звивини кишкових петель клубової кишки та ймовірно запалений дивертикул Меккеля, зі значною мезентеріальною лімфаденопатією та множинними вогнищевими змінами в печінці; виражена підозра на метастазовані пухлини.

У зв'язку з обширністю ураження, важкомобілізованою звивистістю петель тонкої кишки, було вирішено завершити лапароскопію. Далі доступ до черевної порожнини здійснювали через середню лапаротомію (рис. 2, 3). Виконано сегментарну резекцію звивини кишкової петлі клубової кишки з боковим ентоероентероанастомозом.

На серозній оболонці клубової кишки була ділянка без оболонки, просвіт дивертикулу Меккеля був заповнений пухлиноподібними масами, резектовані зразки були направлені на гістологічне дослідження, проведено оментектомію з приводу підозри на пухлиноподібну інфільтрацію великого сальника.



Рис. 2. Інтраопераційна знахідка пухлинної інфільтрації дивертикулу Меккеля.

Джерело: Архів авторів, I-ша хірургічна клініка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Лікарня ім. академіка Л. Дерера, Братислава, Словаччина



Рис. 3. Інтраопераційна знахідка мезентеріальної лімфаденопатії.

Джерело: Архів авторів, I-ша хірургічна клініка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Лікарня ім. академіка Л. Дерера, Братислава, Словаччина

Післяопераційна адаптація була задовільною, клінічні ознаки відновлення пасажу свідчили про достатність ентероентероанастомозу. Перебіг подальшої госпіталізації ускладнювався розвитком клостридіального ентероколіту (проби на антиген і токсин *Clostridium difficile* були позитивні), який успішно лікувався антибіотиками макролідового ряду (пероральний Ванкоміцин).

Через підозрілі відкладення в печінці, виявлені на КТ та під час операції, було проведено магнітно-резонансну томографію (МР), яка виявила множинні осередки ураження печінки метастатичного характеру з фіброзним компонентом (у диференційній діагностиці — атипові гемангіоми або атиповий вторинно-запальний вогнищевий процес). У рамках диференційної діагностики було виконано КТ (staging) (рис. 4) — без верифікації легеневого метастатичного

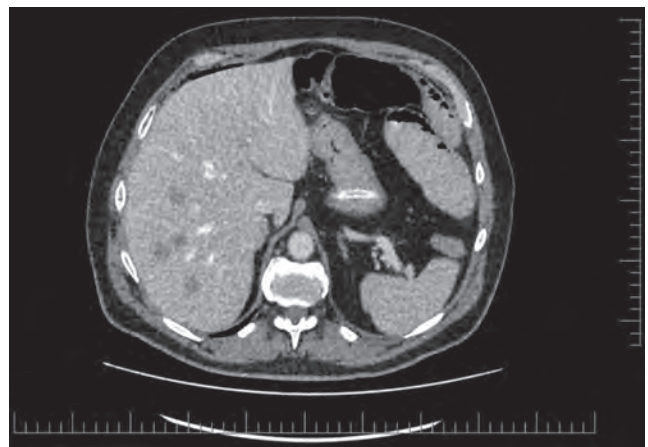


Рис. 4. Зображення з КТ (staging) в поперечній площині, що демонструє численні вогнища метастазів у печінці.

Джерело: Архів авторів, I-ша хірургічна клініка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Лікарня ім. академіка Л. Дерера, Братислава, Словаччина

ураження, діагностовано аутоімунний тиреоїдит, без ознак первинного раку щитоподібної залози.

Подальший перебіг госпіталізації знову ускладнився розвитком симптомів кишкової непрохідності з виявленням на КТ підозри на механічну кишкову непрохідність, показана була хірургічна ревізія. Під час ревізії виявлено початковий локальний перитоніт та спайково змінений анастомоз, щільно фіксований до брижі, в операційній рані підшкірно було гнійне скупчення характеру абсцесу. Проведено адгезіоліз, мілкінг кишкового вмісту з механічною перевіркою прохідності ентероентероанастомозу, в операційну рану встановлено вакуумну ранозагоєвальну систему V.A.C. seal Renasys.

Після відновлення харчування, перевірки механічної прохідності анастомозу та діагностичного обстеження хворого було виписано на домашнє та амбулаторне лікування.

У зв'язку з неоднозначним характером вогнищевих змін у печінці далі ми звернулись по допомогу до Клініки ядерної медицини Інституту онкології Св. Єлизавети у Братиславі (OUSA). Рекомендовано було провести обстеження всього тіла за допомогою позитронно-емісійної томографії у поєднанні з комп'ютерною томографією (ПЕТ/КТ). Результатом ПЕТ/КТ з використанням 18-фтордезоксиглюкози (18-ФДГ) було виявлення численних гіперметаболических вогнищ характеру метастазів в обох частках печінки та, за даними КТ, прогресування розмірів порівняно з попереднім обстеженням; описано гіперметаболическу лімфаденопатію в брижі, неоднозначні гіперметаболическі фокальні знахідки у висхід-

ній ободовій кишці та в операційній рані (загоєння *per secundam intentionem*, але не можна виключити імплантаційне метастатичне залучення).

Нарешті, гістологічні результати підтвердили наявність аденокарциноми шлункового типу в дивертикулі Меккеля (табл. 1).

Після обстеження хворого виписано й направлено в онкологічний диспансер для ведення та подальшого лікування.

Обговорення

Доброякісні новоутворення є найпоширенішими серед пухлин МД; злаякісна трансформація спостерігається в 0,5–3,2% усіх зареєстрованих випадків [8]. Зі злаякісних новоутворень карциноїди (84,6%), шлунково-кишкові стромальні пухлини (8%), аденокарциноми МД складають менше 6% усіх асоційованих злаякісних новоутворень. Прогноз у них, як правило, несприятливий через пізні виявлення та запущену стадію на момент встановлення діагнозу.

Зі слів Кетлін ван Малдерен та ін. і з даних Mayo Clinic випливає, що до 89,47% випадків у спостережуваній вибірці були випадковими знахідками [9]. У вибірці з 402 спостережуваних пацієнтів переважали чоловіки, середній вік становив 58 років. Зі всіх пацієнтів тільки у 24 було діагностовано аденокарциному без подальшого уточнення гістологічної природи даної пухлини, тобто без диференціації шлункового/кишкового типу. 104 пацієнтів із даного спостереження були в стадії вторинного метастатичного ураження на момент встановлення діагнозу.

Таблиця 1. Висновок остаточної гістології

Зразок № 1 (резектована клубова кишка)	Аденокарцинома, NOS, шлунковий тип низького ступеня G2 в дивертикулі Меккеля, повне видалення, pT4, pN2 (3/3). Макроскопічно: надісланий зразок розміром близько 450 мм, приблизно 130 мм від лінії резекції на серозі, перфорація в ділянці дивертикулу, на розрізі дивертикул заповнений пухлиноподібними масами розміром приблизно 50 x 40 x 40 мм, у брижі присутній твердий наліт білуватого кольору на розрізі, чітко обмежений, підозра на метастази. Імуногістохімічне дослідження: CK20: вогнищевий +, CK7:+, CK19:+, EMA:+. Su38: фокальний +, інакше негативний.
Зразок № 2 (резектований великий сальник)	Захоплений сальник без пухлинних змін.

Джерело: Архів авторів, I-ша хірургічна клініка Словацького медичного університету та університетської лікарні, Лікарня ім. академіка Л. Дерера, Братислава, Словаччина.

Враховуючи наведені дані та частоту таких ускладнень МД, як злаякісна неоплазія, ми робимо висновок, що ймовірність розвитку аденокарциноми в дивертикулі Меккеля є незначною, але можливою [10–12]. Тому ми вважаємо нашу казуїстику рідкісною.

Крім того, хочеться зазначити, що дивертикул Меккеля може бути безсимптомним, але при його запаленні може симулювати клінічну картину гострого апендициту. Тому під час апендектомії хірург повинен зробити ревізію тонкої кишки на відстань близько 100 см.

Думки щодо профілактичної резекції дивертикулу Меккеля відрізняються, враховуючи його відносно високу поширеність у загальній популяції та відносно низьку частоту супутніх ускладнень [13]. Згідно з останніми аналітичними даними, дехто схиляється до думки, що резекцію випадкового дивертикулу Меккеля слід призначати групі ризику (чоловіки до 40 років, довжина дивертикулу понад 2 см і наявність макроскопічних змін слизової) [13].

Однак через високий ризик пізнього виявлення пухлини та пов'язаних з нею вторинних пухлин слід розглянути резекцію кожного інтраопераційно виявленого дивертикулу Меккеля [13, 14].

Висновок

Одним із рідкісних ускладнень МД може бути пухлина — доброякісна або злаякісна. Серед злаякісних новоутворень карциноїди переважають у відсотковому співвідношенні, поширеність аденокарцином становить менше 6% від усіх асоційованих злаякісних новоутворень. Прогноз залежить від стадії захворювання на момент діагностики, але є, як правило, несприятливим через пізнє виявлення та запущену стадію на момент встановлення діагнозу.

На прикладі нашого клінічного випадку хочемо підкреслити, що у разі запаленого або симптоматичного МД слід також думати про можливі супутні ускладнення, які — у разі їх виявлення — повинні вирішуватись мультидисциплінарно.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

References

1. Hansen CC, Søreide K. Systematic review of epidemiology, presentation, and management of Meckel's diverticulum in the 21st century. *Medicine (Baltimore)* [Internet].

- 2018;97(35):e12154. Available from: <http://dx.doi.org/10.1097/MD.00000000000012154>
2. Vidiščák M. *Novorodenecká chirurgia*. Krivá : M-SERVIS; 2008. 225 p. ISBN 978-80-969978-1-7
3. Fusco JC, Achey MA, Upperman JS. Meckel's diverticulum: Evaluation and management. *Semin Pediatr Surg* [Internet]. 2022;31(1):151142. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.sempedsurg.2022.151142>
4. Keese D, Rolle U, Gfroerer S, Fiegel H. Symptomatic Meckel's Diverticulum in Pediatric Patients-Case Reports and Systematic Review of the Literature. *Front Pediatr* [Internet]. 2019;7:267. Available from: <http://dx.doi.org/10.3389/fped.2019.00267>
5. Tiu A, Lee D. An unusual manifestation of Meckel's diverticulum: strangulated paraumbilical hernia. *N Z Med J* [Internet]. 2006 Jun 23;119(1236):U2034. PMID: 16807577. Available from: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16807577/>
6. Shaprynsky V, Nazarchuk O, Faustova M, Mitiuk B, Dmytriiev D, Dobrovanov O, et al. Some aspects of infectious complications in patients with surgical diseases. *Lekársky obzor*. 2020;69(7-8): 257-260.
7. Suhardja TS, Kua H, Hrabovszky Z. Helicobacter pylori Colonisation in Heterotopic Gastric Mucosa in Meckel Diverticulum: Case Report and Review of the Literature. *Clinical Medicine Insights: Case Reports* [Internet]. 2019 Jan;12:117954761984608. Available from: <http://dx.doi.org/10.1177/1179547619846088>
8. Kabir SA, Raza SA, Kabir SI. Malignant neoplasms of Meckel's diverticulum; an evidence based review. *Ann Med Surg (Lond)* [Internet]. 2019;4:43:75-81. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.amsu.2019.05.017>
9. Malderen K, Vijayvargiya P, Camilleri M, Larson DW, Cima R. Malignancy and Meckel's diverticulum: A systematic literature review and 14-year experience at a tertiary referral center. *United European Gastroenterol J* [Internet]. 2018;6(5):739-747. Available from: <https://doi.org/10.1177/2050640617752771>
10. Principe DR, Nesper P, Metropulos AE, Rubin J, Marinov MN. Intestinal adenocarcinoma originating from an undiagnosed Meckel's diverticulum. *Journal of Surgical Case Reports* [Internet]. 2022 May 1;2022(5). Available from: <http://dx.doi.org/10.1093/jscr/rjact128>
11. Zhao Y, Yang X, Ye Y. Adenocarcinoma located at a Meckel's Diverticulum: A case report and literature review. *J Cancer Res Ther* [Internet]. 2017;13(5):878-881. Available from: https://doi.org/10.4103/jcrt.jcrt_124_17
12. Kusumoto H, Yoshitake H, Mochida K, Kumashiro R, Sano C, Inutsuka S. Adenocarcinoma in Meckel's diverticulum: report of a case and review of 30 cases in the English and Japanese literature. *Am J Gastroenterol*. 1992;87(7):910-913.
13. Robijn J, Sebrechts E, Miserez M. Management of Incidentally Found Meckel's Diverticulum A New Approach: Resection Based on a Risk Score. *Acta Chirurgica Belgica* [Internet]. 2006 Jan;106(4):467-70. Available from: <http://dx.doi.org/10.1080/00015458.2006.11679933>
14. Caracappa D, Gullà N, Lombardo F, Burini G, Castellani E, Boselli C, et al. Incidental finding of carcinoid tumor on Meckel's diverticulum: case report and literature review, should prophylactic resection be recommended? *World Journal of Surgical Oncology* [Internet]. 2014;12(1):144. Available from: <http://dx.doi.org/10.1186/1477-7819-12-144>

Malignant neoplasia in Meckel's diverticulum — our experience

^{1,2}A. Mayer, ^{1,3}A. Kuchera, ^{2,3}O. Dobrovanov, ^{1,3}I. Brychta, ^{1,3}M. Vidiscak

¹ 1st Surgical Clinic of the Slovak Medical University and University Hospital of Medicine, Academician Ladislav Derer Hospital, Bratislava, Slovakia

² A. Getlik Clinic for Children and Adolescents of Slovak Medical University and University Hospital of Medicine, Bratislava, Slovakia

³ Slovak Medical University in Bratislava, Slovakia

Resume. Meckel's diverticulum is the most common congenital anomaly within the gastrointestinal tract, with a prevalence in the general population of 0.9–3%. Among the malignant neoplasms associated with Meckel's diverticulum, carcinoids and gastrointestinal stromal tumors predominate in percentage, with adenocarcinomas accounting for less than 6% of all associated malignancies. The authors present a rare case report of a 67-year-old patient with gastric-type adenocarcinoma in Meckel's diverticulum, with metastatic foci in both lobes of the liver at the time of diagnosis. The case demonstrates diagnostic and therapeutic procedures that led to a correct diagnosis and a satisfactory treatment outcome. They emphasize the importance of using all the possibilities of diagnosis and treatment as well as the necessity of cooperation with other experts in the proper management of this disease, they express an opinion about considering prophylactic resection of intraoperatively detected Meckel's diverticulum.

Key words: adenocarcinoma, Meckel's diverticulum, liver, metastases, treatment