

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ CASE REPORT

<https://doi.org/10.17816/mechnikov201911481-85>

ГЕАНГИОМА БОЛЬШОГО ДУОДЕНАЛЬНОГО СОСОЧКА, ОСЛОЖНЕННАЯ РЕЦИДИВНЫМ КРОВОТЕЧЕНИЕМ

В.Ю. Райн^{1, 2}, В.П. Ионин¹, М.А. Персидский²

¹ БУВО «Ханты-Мансийская государственная медицинская академия», Ханты-Мансийск;

² БУ «Окружная клиническая больница», Ханты-Мансийск

Для цитирования: Райн В.Ю., Ионин В.П., Персидский М.А. Гемангиома большого дуоденального сосочка, осложненная рецидивным кровотечением // Вестник Северо-Западного государственного медицинского университета им. И.И. Мечникова. – 2019. – Т. 11. – № 4. – С. 81–85. <https://doi.org/10.17816/mechnikov201911481-85>

Поступила: 01.11.2019

Одобрена: 29.11.2019

Принята: 09.12.2019

♦ Описан случай хирургического лечения гемангиомы с редкой локализацией в большом сосочке двенадцатиперстной кишки с дебютом в виде рецидивирующего желудочно-кишечного кровотечения у пациента 60 лет. Клинико-эпидемиологические данные и эндоскопические находки, подозрительные в отношении злокачественного образования фатерова сосочка, определили достаточно агрессивный хирургический подход. После неудачной попытки рентгенэндоваскулярной эмболизации задней панкреатодуоденальной аркады пациенту была выполнена гастропанкреатодуоденальная резекция. Результаты заключительного гистологического исследования оказались неожиданными. В статье обсуждены возможности более точной предоперационной диагностики и тактика хирурга при сомнительных результатах эндоскопической биопсии.

♦ **Ключевые слова:** гемангиома; большой дуоденальный сосочек; панкреатодуоденальная резекция; кровотечение.

HEMANGIOMA OF THE MAJOR DUODENAL PAPILLA COMPLICATED WITH BLEEDING

V.Yu. Rayn^{1, 2}, V.P. Ionin¹, M.A. Persidskiy²

¹ Khanty-Mansiysk State Medical Academy, Khanty-Mansiysk, Russia;

² District Clinical Hospital of the Khanty-Mansiysk Autonomous Okrug – Ugra, Russia

For citation: Rayn VYu, Ionin VP, Persidskiy MA. Hemangioma of the major duodenal papilla complicated with bleeding. *Herald of North-Western State Medical University named after I.I. Mechnikov*. 2019;11(4):81-85. <https://doi.org/10.17816/mechnikov201911481-85>

Received: November 1, 2019

Revised: November 29, 2019

Accepted: December 9, 2019

♦ Herein we report a case of hemangioma with a rare localization in the major duodenal papilla presenting with a recurrent intraluminal bleeding in a 60-years old patient. Late onset, clinical and endoscopic signs suspicious for malignancy and inability to rule out cancer by preoperative biopsy defined an aggressive surgical approach. The patient underwent classical Whipple procedure after failing an attempt of endovascular embolization of the posterior pancreaticoduodenal artery with unfavorable surgical outcome. Available preoperative diagnostic modalities and their accuracy levels are discussed.

♦ **Keywords:** hemangioma; major duodenal papilla; gastrointestinal bleeding; pancreaticoduodenectomy.

Введение

Гемангиомы тонкой кишки составляют от 5 до 10 % доброкачественных опухолей [1] и около 0,3 % всех опухолей этого отдела желу-

дочно-кишечного тракта (ЖКТ), а гемангиомы с локализацией в двенадцатиперстной кишке встречаются чрезвычайно редко (3,4 % всех гемангиом ЖКТ) [2]. Это доброкачественные

сосудистые поражения, которые развиваются вследствие дисэмбриопластических процессов в мезенхиме и представляют собой капиллярные, кавернозные или смешанные по строению структуры подслизистого слоя и слизистых оболочек при локализации в полном органе [3]. Наряду с бессимптомным течением гемангиомы верхних отделов ЖКТ могут проявляться кровотечением, абдоминальными болями и даже инвагинацией кишечника с непроходимостью и перфорацией [1, 3]. Независимо от диагности-

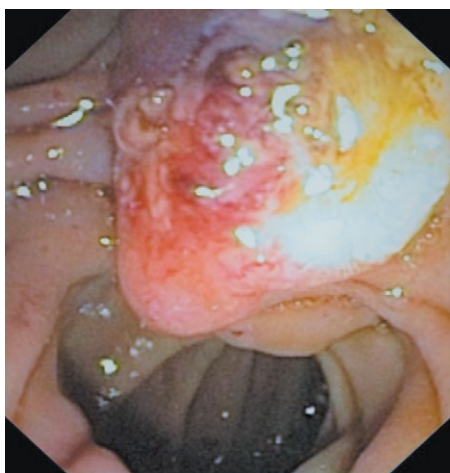


Рис. 1. Эндоскопическая картина после начала терапии блокаторами протонной помпы. Изъязвленная опухоль большого дуоденального сосочка с признаками состоявшегося кровотечения

Fig. 1. Endoscopic view of the Vater's papilla tumor after initiation of treatment with proton pump inhibitors

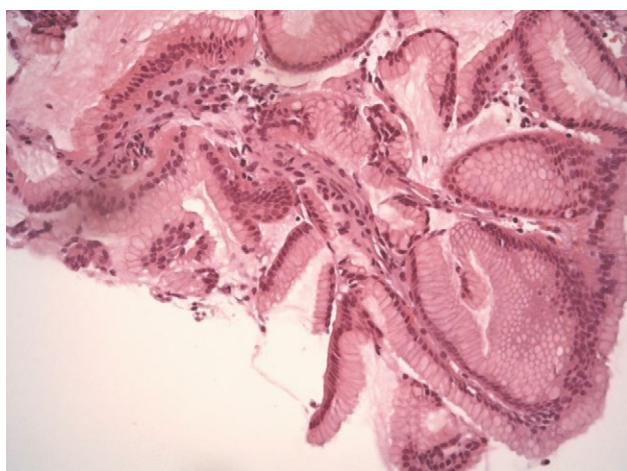


Рис. 2. Биоптат опухоли большого дуоденального сосочка. Окраска гематоксилином и эозином. Увеличение $\times 40$

Fig. 2. Tumor of the major duodenal papilla obtained via endoscopic biopsy at $\times 40$ magnification. H&E

ческих возможностей дооперационная дифференциальная диагностика очень сложна [4, 5] и поставить точный диагноз зачастую можно только после гистологического исследования препарата, удаленного во время операции [6].

В связи с редкостью локализации и эпидемиологическими особенностями (дебют в пожилом возрасте) представляем обзор клинического случая гемангиомы фатерова сосочка у пациента 60 лет, мимикрировавшей в периампулярную злокачественную опухоль, осложненной рецидивирующим интралюминальным кровотечением.

Клинический случай

Пациент Д., 60 лет (167 см, 98 кг, ИМТ 35,1 кг/м²), поступил в хирургическое отделение с рецидивом желудочно-кишечного кровотечения с развернутой клинической картиной: мелена, эпигастральные боли, выраженная слабость и головокружение, гипотензия (артериальное давление 90/55 мм рт. ст.). В анамнезе гипертоническая болезнь высокого риска и сахарный диабет 2-го типа (без потребности в инсулине), гемотрансфузия без реакций и осложнений. Пациент не принимал никаких медицинских препаратов за исключением базисной антигипертензивной и сахароснижающей терапии.

На основании клинических проявлений анемического синдрома, анамнеза периодических эпигастральных болей и данных лабораторных исследований (гемоглобин — 66 г/л; протромбиновый индекс — 60 %; активированное частичное тромбопластиновое время — 24 с; международное нормализованное отношение 1,3) проведена гемоплазмотрансфузия, начата противоязвенная и гемостатическая терапия.

Пациент дообследован. При ультразвуковом исследовании живота выявлены умеренная гепатоспленомегалия, признаки хронического панкреатита и вторичных изменений почек. По данным фиброгастродуоденоскопии (рис. 1) в постбульбарном отделе кишки виден гигантский большой дуоденальный сосочек (БДС) с измененной структурой (25 мм в диаметре, до 50 мм в длину), с синюшной поверхностью, участками некроза по всей поверхности. Отмечается кровотечение из множественных участков измененного БДС.

Выполнена биопсия из слизистой БДС № 5 (рис. 2). Участки слизистой с выстилкой высоким железистым эпителием секреторного типа, а также отдельно лежащие небольшие фрагмен-

ты эпителия кишечного типа с клетками Панета без подлежащих тканей с признаками клеточного атипизма. Заключение: «Гистологическая картина может наблюдаться при аденокарциноме БДС».

Проведен консилиум. С учетом возраста пациента, анамнеза, эндоскопической картины и данных микроскопического исследования биоптатов из опухоли БДС, подозрительных в отношении аденокарциномы, рекомендована эмболизация панкреатодуоденальной артерии как временный гемостаз при подготовке к радикальной операции. В случае рецидива кровотечения показано оперативное лечение. Определение объема вмешательства интраоперационно: при резектабельности — провести панкреатодуоденальную резекцию, при нерезектабельности — ограничиться гемостазом.

Пациенту выполнены брюшная аортография, целиакография, эмболизация задней панкреатодуоденальной артерии. Получен оптимальный ангиографический результат (экстравазации контраста нет).

При эндоскопическом контроле через сутки диагностирован рецидив кровотечения из опухоли БДС. Гемодинамика с тенденцией к гипотензии, уровень гемоглобина — 82 г/л.

Пациенту в экстренном порядке выполнена лапаротомия. При ревизии в проекции головки панкреаса и в просвете двенадцатиперстной кишки пальпируется плотное бугристое образование до 3–4 см в диаметре. Операцию проводили в ночное время, без возможности проведения срочного гистологического исследования, поэтому решение об объеме вмешательства принимали на основании клинических данных и результатов предыдущих исследований. Опухоль была признана резектабельной. Пациенту выполнена гастропанкреатодуоденальная резекция (см. фото органокомплекса на рис. 3).

В связи с находками (мягкая культя панкреаса, вирсунгов проток 1 мм в диаметре) избран двухпетлевой вариант реконструкции. Панкреатикофистулоэнтероанастомоз выполнен на короткой петле на дренаже Фелкера. Гепатикоэнтероанастомоз наложен с изолированной по Ру короткой петлей на дренаже Фелкера, проведен позадибодочно. Гастроэнтероанастомоз двухрядный позадибодочный. Межкишечный анастомоз между основной и изолированной петлей. Операция осложнилась кровотечением из воротной вены вследствие трудностей выделения на фоне инфильтративно-воспалительного процесса по задней поверхности головки панкреаса. Общая

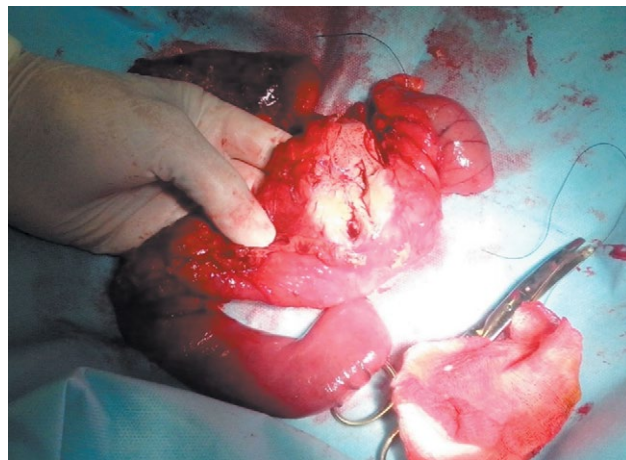


Рис. 3. Макропрепарат. На разрезе опухоль в головке поджелудочной железы

Fig. 3. Specimen section: whitish dense tumor in the head of the pancreas

кровопотеря составила 2 л. Сбор в аппарат Cell-Saver, реинфузия — 1300 мл.

Лечение в отделении реанимации — 3 сут. С положительной клинико-лабораторной динамикой переведен в профильное отделение, где была продолжена комплексная терапия: инфузионная, анальгетическая, профилактика стресс-язв, послеоперационного панкреатита культуры (сандостатин в дозе 0,1 мг подкожно 3 раза в сутки), тромбоэмболических и инфекционных осложнений, нутритивная поддержка, уход за дренажами и катетерами.

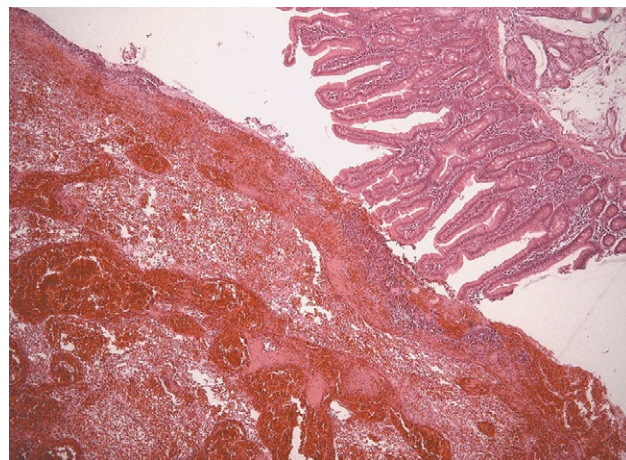


Рис. 4. Фрагмент микропрепаратов панкреатодуоденального комплекса. В большом дуоденальном сосочке склеротические изменения, структуры гемангиомы смешанного типа, выраженные кровоизлияния. Окраска гематоксилином и эозином, увеличение $\times 200$

Fig. 4. Haemangioma located in the papilla of Vater at $\times 200$ magnification. H&E

Течение послеоперационного периода осложнилось длительным парезом ЖКТ (3 нед. назогастральной интубации), формированием подпапневротического абсцесса, послеоперационного гнойного панкреатита культи, неполного наружного желчно-кишечного свища (26-е сутки после операции. Лечение: вскрытие, дренирование абсцесса, герметизация свища катетером Фолея), госпитальной правосторонней пневмонией с аспирацией желчью (28-е сутки после операции. Лечение: санационная бронхоскопия, антибиотикотерапия, кислородная поддержка через вспомогательные режимы ИВЛ), сепсисом с синдромом полиорганной недостаточности (потребовались заместительная почечная терапия, инотропная поддержка). На 41-е сутки после панкреатодуоденальной резекции пациент умер на фоне нарастающих явлений синдрома полиорганной недостаточности.

Результаты гистологии: хронический склерозирующий панкреатит с очагами гнойного воспаления. Гемангиома БДС с кровоизлиянием, лимфангиома головки поджелудочной железы. Порок развития кровеносных сосудов стенки желудка (см. рис. 4).

Обсуждение

Гастропанкреатодуоденальная резекция является стандартной лечебной опцией при злокачественных опухолях головки поджелудочной железы и периампулярной зоны и реже выполняется при доброкачественных процессах данной локализации [6]. Гемангиомы с периампулярной локализацией встречаются редко [7, 8] и могут клинически проявляться рецидивирующими болями в верхних отделах живота, тошнотой и рвотой [6], пальпируемыми бессимптомными образованиями, гидронефрозом [9] или, как в представленном случае, манифестировать гастроинтестинальным кровотечением [10]. Рутинный диагностический поиск начинают с общеклинических анализов, ультразвукового исследования органов брюшной полости и забрюшинного пространства и фиброэзофагогастродуоденоскопии, как правило дополняемой биопсией. Однако эти исследования не всегда достаточно информативны, что не позволяет провести точную дооперационную диагностику [6]. Ряд авторов указывает, что диагностическая точность эндоскопии с биопсией составляет 67,3 % [11]. Применяемые для уточнения диагноза контрастная компьютерная томография или магнитно-резонансная томография

живота, эндоскопическая ультрасонография и тонкоигольная аспирационная биопсия под ЭУС-навигацией доступны не во всех клиниках, диагностическую точность последнего метода оценивают в ряде исследований в 62–85 % [12]. В связи с этим опухоль БДС, осложненную рецидивными кровотечениями, с дебютом в пожилом возрасте, были все основания считать злокачественной. Отсутствие однозначного гистологического заключения по биоптату опухоли на диагностическом этапе и невозможность проведения экспресс-биопсии интраоперационно побудили выполнить радикальную операцию пациенту с неблагоприятным коморбидным фоном. Массивная кровопотеря во время операции у пожилого, исходно анемизированного пациента с факторами риска, к сожалению, привели через ряд осложнений к неблагоприятному исходу. Несмотря на то что у операции Уиппла по-прежнему высоки показатели послеоперационных осложнений и летальности [13–15], наряду с низкими показателями долгосрочной выживаемости [16, 17], панкреатодуоденальная резекция показана при любых подозрительных опухолеподобных поражениях периампулярной зоны [6]. Неожиданные результаты окончательного гистологического исследования лишь подчеркивают, что в сомнительных случаях дифференциального диагноза хирургический метод остается золотым стандартом [6].

Заключение

Исходя из анализа данного клинического случая, можно сделать вывод о необходимости прогнозирования всех рисков и максимального прекондиционирования пациента перед операцией высокого риска. При неизбежности срочного большого хирургического вмешательства и возможности проведения экспресс-биопсии рекомендуем проводить дуоденотомию, папиллэктомию либо ножевую биопсию опухоли БДС и/или core-биопсию из головки поджелудочной железы.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Литература

1. Kuo LW, Chuang HW, Chen YC. Small bowel cavernous hemangioma complicated with intussusception: report of an extremely rare case and review of literature. *Indian J Surg.* 2015;77(Suppl 1):123-124. <https://doi.org/10.1007/s12262-014-1194-3>.

2. Watanabe N, Nenohi K, Takeuchi K, et al. A case of duodenal epithelioid hemangioma causing gastrointestinal bleeding. *Nihon Shokakibyō Gakkai Zasshi*. 2012;109(12):2058-2065.
3. Hu PF, Chen H, Wang XH, et al. Small intestinal hemangioma: endoscopic or surgical intervention? A case report and review of literature. *World J Gastrointest Oncol*. 2018;10(12):516-521. <https://doi.org/10.4251/wjgo.v10.i12.516>.
4. Talaiezadeh A, Ranjbari N, Bakhtiari M. Pancreatic lymphangioma as a rare pancreatic mass: a case report. *Iran J Cancer Prev*. 2016;9(1):e3505. <https://doi.org/10.17795/ijcp-3505>.
5. Lee HS, Jang JS, Lee S, et al. Diagnostic accuracy of the initial endoscopy for ampullary tumors. *Clin Endosc*. 2015;48(3):239-246. <https://doi.org/10.5946/ce.2015.48.3.239>.
6. Lehwald N, Cupisti K, Baldus SE, et al. Unusual histological findings after partial pancreaticoduodenectomy including benign multicystic mesothelioma, adenomyoma of the ampulla of vater, and undifferentiated carcinoma, sarcomatoid variant: a case series. *J Med Case Rep*. 2010;4:402. <https://doi.org/10.1186/1752-1947-4-402>.
7. Terada T. Pathologic observations of the duodenum in 615 consecutive duodenal specimens: I. benign lesions. *Int J Clin Exp Pathol*. 2012;5(1):46-51.
8. Stolte M, Lux G. The duodenum and vater's papilla: tumors and tumor-like lesions – a clinico-pathologic discussion. *Leber Magen Darm*. 1983;13(6):227-241.
9. Fujii M, Saito H, Yoshioka M, Shiode J. Rare case of pancreatic cystic lymphangioma. *Intern Med*. 2018;57(6):813-817. <https://doi.org/10.2169/internalmedicine.9445-17>.
10. Kanaji S, Nakamura T, Nishi M, et al. Laparoscopic partial resection for hemangioma in the third portion of the duodenum. *World J Gastroenterol*. 2014;20(34):12341-12345. <https://doi.org/10.3748/wjg.v20.i34.12341>.
11. Lee HS, Jang JS, Lee S, et al. Diagnostic accuracy of the initial endoscopy for ampullary tumors. *Clin Endosc*. 2015;48(3):239-246. <https://doi.org/10.5946/ce.2015.48.3.239>.
12. Ogura T, Hara K, Hijioka S, et al. Can endoscopic ultrasound-guided fine needle aspiration offer clinical benefit for tumors of the ampulla of vater? – An Initial Study. *Endosc Ultrasound*. 2012;1(2):84-89. <https://doi.org/10.7178/eus.02.006>.
13. Pugalenti A, Protic M, Gonen M, et al. Postoperative complications and overall survival after pancreaticoduodenectomy for pancreatic ductal adenocarcinoma. *J Surg Oncol*. 2016;113(2):188-193. <https://doi.org/10.1002/jso.24125>.
14. Yang DJ, Xiong JJ, Liu XT, et al. Total pancreatectomy compared with pancreaticoduodenectomy: a systematic review and meta-analysis. *Cancer Manag Res*. 2019;11:3899-3908. <https://doi.org/10.2147/CMAR.S195726>.
15. Lessing Y, Pencovich N, Nevo N, et al. Early reoperation following pancreaticoduodenectomy: impact on morbidity, mortality, and long-term survival. *World J Surg Oncol*. 2019;17(1):26. <https://doi.org/10.1186/s12957-019-1569-9>.
16. Sandini M, Ruscic KJ, Ferrone CR, et al. Intraoperative dexamethasone decreases infectious complications after pancreaticoduodenectomy and is associated with long-term survival in pancreatic cancer. *Ann Surg Oncol*. 2018;25(13):4020-4026. <https://doi.org/10.1245/s10434-018-6827-5>.
17. Chen K, Zhou Y, Jin W, et al. Laparoscopic pancreaticoduodenectomy versus open pancreaticoduodenectomy for pancreatic ductal adenocarcinoma: oncologic outcomes and long-term survival. *Surg Endosc*. 2019. <https://doi.org/10.1007/s00464-019-06968-8>.

◆ Адрес автора для переписки (Information about the author)

Василиса Юрьевна Райн / Vasilisa Yu. Rayn

E-mail: raynvu@okbhmao.ru

<https://orcid.org/0000-0003-2406-0000>

SPIN-код / SPIN-code: 9455-8350