

<https://doi.org/10.33878/2073-7556-2021-20-4-87-91>



Желудочная гетеротопия в прямую кишку у ребенка. Клиническое наблюдение казуистической патологии

Щербакова О.В., Хабибуллина Л.Р.

РДКБ ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова Минздрава России (Ленинский пр-т, д. 117, г. Москва, 119571, Россия)

РЕЗЮМЕ Желудочная гетеротопия в прямую кишку у детей — редкая патология, о которой необходимо помнить при обследовании ребенка с клиникой ректального кровотечения. В течение последних 10 лет в литературе описано около 5 подобных клинических наблюдений у детей. Данное состояние врожденное, обусловленное нарушением дифференцировки тканей в процессе эмбрионального развития. В данной работе описан клинический случай обследования и лечения ребенка с изолированной желудочной гетеротопией в прямую кишку.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: желудочная гетеротопия, прямая кишка, дети

КОНФЛИКТ ИНТЕРЕСОВ: Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов

ДЛЯ ЦИТИРОВАНИЯ: Щербакова О.В., Хабибуллина Л.Р. Желудочная гетеротопия в прямую кишку у ребенка. Клиническое наблюдение казуистической патологии. *Колопроктология*. 2021; т. 20, № 4, с. 87–91. <https://doi.org/10.33878/2073-7556-2021-20-4-87-91>

Rectal gastric heterotopia in a child. Case-report of casuistic pathology

Olga V. Sherbakova, Linara R. Khabibullina

Clinical Hospital Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogova of the Ministry of Health of Russia (Leninskiy prospect, 117, Moscow, 119571, Russia)

ABSTRACT Heterotopy of gastric mucosa in the rectum in children is a rare malformation to keep in mind when examining a child with a rectal bleeding. About 5 such clinical cases in children were described in the literature over the past 10 years. This condition is congenital, due to impaired tissue differentiation during embryogenesis. This case-report demonstrates the diagnostics and treatment of a child with rectal gastric heterotopia.

KEYWORDS: heterotopic gastric mucosa, rectum, children

CONFLICT OF INTEREST: The authors declare no conflict of interest

FOR CITATION: Sherbakova O.V., Khabibullina L.R. Rectal gastric heterotopia in a child. Case-report of casuistic pathology. *Koloproktologia*. 2021;20(4):87–91. (in Russ.). <https://doi.org/10.33878/2073-7556-2021-20-4-87-91>

АДРЕС ДЛЯ ПЕРЕПИСКИ: Щербакова Ольга Вячеславовна, РДКБ ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова МЗ РФ, Ленинский пр., 117, Москва, 119571, Россия; раб. тел.: +7 (495) 936-91-19; e-mail: Shcherbakova_o_v@rdkb.ru

ADDRESS FOR CORRESPONDENCE: Shcherbakova Olga Vacheslavovna, Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov of the Ministry of Health of Russia, Leninskiy prospect, 117, Moscow, 119571, Russia; phone: +7 (495) 936-91-19; e-mail: Shcherbakova_o_v@rdkb.ru

Дата поступления — 23.08.2021

Received — 23.08.2021

После доработки — 11.10.2021

Revised — 11.10.2021

Принято к публикации — 30.11.2021

Accepted for publication — 30.11.2021

В практике детских хирургов гетеротопия встречается достаточно часто. Такие заболевания, как дивертикул Меккеля, удвоение желудочно-кишечного тракта (ЖКТ), как правило, сопровождаются наличием очага гетеротопии, чаще всего клеток слизистой оболочки желудка, реже поджелудочной железы или эпителия респираторного тракта [1,2]. Однако изолированная

желудочная гетеротопия в прямую кишку, как в педиатрической популяции, так и у взрослых пациентов, является крайне редкой аномалией.

Известно, что гетеротопия является врожденной патологией, в отличие от метаплазии — преобразования эпителия в процессе жизнедеятельности. Термин «гетеротопия» представляет собой наличие

морфологически нормального типа ткани в нефизиологическом для нее участке. Гетеротопия чаще встречается в передней кишке, что объясняется нарушением миграции клеток эндодермы, развивающихся из общего зачатка в процессе эмбрионального развития [3]. Однако описаны варианты локализации гетеротопии вне ЖКТ: в средостении, мошонке или желчевыводящих путях [3,4]. Такая разнообразная локализация объясняется тем, что стволовые плюрипотентные клетки эндодермы способны дифференцироваться во все ткани желудочно-кишечного тракта. Ошибка данного процесса и приводит к тому, что слизистая оболочка желудка имеет самую разнообразную локализацию [3].

С момента первой публикации о данной патологии Ewell G.H., Jackson R.H. в 1939 г. в литературе описано около 30 случаев изолированной гетеротопии в прямую кишку [5]. За последнее десятилетие в доступной нам литературе встретилось лишь 5 подобных клинических наблюдений у детей [5–9]. Отечественных работ с описанием изолированной гетеротопии в прямую кишку у детей найти не удалось. В связи с отсутствием обсервационных исследований по данной теме и наличием лишь небольшого числа опубликованных клинических наблюдений, такие показатели, как заболеваемость и распространенность патологии на сегодняшний день неизвестны. В литературном обзоре Iacopini F. и соавт., включившего 72 случая различных гетеротопий у взрослых и детей, данная патология чаще встречалась у мужчин — 63%, чем у женщин — 37%. Также авторами был прослежен возраст на момент выявления патологии, медиана которого составила 22 года (1 день — 69 лет) [10]. Клиническая картина гетеротопии желудка эпителия в прямую кишку включает такие симптомы, как ректальное кровотечение, нередко в сочетании с диареей (22%), тенезмами (22%) и болями в животе (55%). В 20% случаев описано бессимптомное течение заболевания [3]. К тому же, продукция соляной кислоты перемещенными клетками желудка приводит к повреждению близлежащих тканей и возникновению таких осложнений, как кровотечение, возникновение свищей (ректо-везикальных, -вагинальных, -промежностных), перфорация прямой кишки в свободную брюшную полость или полость малого таза [10]. Кроме того, на сегодняшний день представлены единичные публикации, описывающие появление злокачественных образований на фоне имеющейся гетеротопии, в том числе и с бессимптомным течением [11]. Таким образом, вопрос малигнизации на настоящий момент остается открытым для изучения и обсуждения.

Ректальное кровотечение является самым распространенным симптомом желудочной гетеротопии в прямую кишку [10]. Однако важно помнить

о большом спектре заболеваний, сопровождающимся клиникой желудочно-кишечного кровотечения, таких как дивертикул Меккеля, дупликатура ЖКТ различной локализации, ювенильные полипы и другие реже встречающиеся полипозные синдромы, анальные трещины, воспалительные заболевания кишечника (язвенный колит, болезнь Крона), а также различные варианты сосудистых мальформаций. Такое разнообразие заболеваний диктует необходимость тщательного клинико-лабораторного обследования пациента с дебютом желудочно-кишечного кровотечения в любом возрасте с применением инструментальных методов исследований (эзофагодуоденоскопия, илеоколоноскопия, видеокапсульная эндоскопия, радиоизотопное исследование). Хочется отметить необходимость выполнения биопсии образования и слизистой оболочки кишечного тракта для гистологической верификации, что играет решающую роль в постановке окончательного диагноза. Важно, что некоторые инструментальные методы визуализации как КТ и МРТ не обладают достаточной чувствительностью и специфичностью при подозрении на гетеротопию ЖКТ.

Описанные методы консервативной терапии заболевания — блокаторы протонной помпы, антибактериальная терапия с целью эрадикации *Helicobacter pylori* (при обнаружении последнего в биоптате) — могут на какое-то время приводить к купированию кровотечения и воспалительного процесса, и даже к заживлению язв. Однако в 62% случаев в течение 3 месяцев после прекращения лечения отмечалось возобновление симптомов, что требовало выполнения хирургического вмешательства. Только радикальное удаление очага гетеротопии приводило к полному излечению [10].

В хирургическом лечении за последние годы произошли существенные изменения: от резекции пораженного участка кишки до прецизионного удаления очага под эндоскопическим контролем. На сегодняшний день в практике колоректальных хирургов предпочтение отдается эндоскопическим методам лечения — петлевой резекции (полипэктомии, эндоскопической резекции слизистой оболочки (EMR — Endoscopic Mucosal Resection), аргоноплазменной абляции остаточной зоны, эндоскопической подслизистой диссекции (ESD — Endoscopic submucosal dissection). Несмотря на то, что в 17% случаев после эндоскопической резекции слизистой оболочки выявлены остаточные зоны гетеротопии, данный метод в руках опытных специалистов, безусловно, можно назвать золотым стандартом лечения [8,10].

Важно отметить, что у большинства детских хирургов отсутствует опыт в проведении подобных эндоскопических оперативных вмешательств, учитывая редкость патологии. Фиброз подслизистой оболочки,

который закономерно наблюдается при данной аномалии, как результат хронического воспалительного процесса, также может вызывать существенные трудности при выполнении оперативного вмешательства. Наш клинический случай демонстрирует редкую врождённую патологию и выбор метода лечения у пациента с изолированной желудочной гетеротопией. Мальчик В., 10 лет, поступил в хирургическое отделение №1 (колопроктология) РДКБ ФГАОУ ВО РНИИУ им. Н.И. Пирогова Минздрава России с жалобами на примесь крови и слизи в стуле. При сборе анамнеза отмечено, что вышеуказанные жалобы периодически беспокоили ребенка с 2-летнего возраста. При первичном обследовании по месту жительства выявлена анальная трещина, что объясняло клинику гематохезии. Проводимая консервативная местная терапия (противовоспалительные свечи) была неэффективна, сохранялись рецидивы ректального кровотечения. Дополнительное обследование не проводилось. Впервые в возрасте 9 лет, после эпизода массивного ректального кровотечения, ребенку проведена ректороманоскопия: на задней стенке ампулы прямой кишки в 10 см от анального края визуализировано округлое, дивертикуллоподобное образование, диаметром около 2 см с выраженной гиперемией слизистой по окружности и контактной кровоточивостью. Для дальнейшего обследования и определения тактики лечения ребенок переведен в федеральное учреждение.

При поступлении в нашу клинику общее состояние пациента средней степени тяжести. При уточнении клинико-anamнестических данных отмечено, что другой симптоматики не было, наследственный анамнез не отягощен. Физическое развитие соответствовало возрасту. Проведена илеоколоноскопия, по данным которой слизистая оболочка толстой кишки на всем протяжении розовая, гладкая, сосудистый рисунок четкий, равномерный. По задней стенке прямой кишки на расстоянии 10 см от анального края, визуализировано кратерообразное образование до 2 см в диаметре с выраженной контактной кровоточивостью (Рис. 1). При пальцевом ректальном исследовании удалось пропальпировать лишь нижний полюс данного образования.

Для уточнения анатомических особенностей выполнено МРТ малого таза, по результатам которой описывалось наличие по задней стенке прямой кишки, выше уровня анального края на 9 см неравномерного утолщения слизистой оболочки до 35–40 мм, протяженностью до 80–90 мм. Оценить глубину и степень поражения было затруднительно (Рис. 2).

Учитывая чрезвычайную редкость подобных новообразований в хирургической практике, противоречивые данные проведенных исследований о глубине и распространенности гетеротопии в стенке прямой

кишки, а так же отсутствие опыта в проведении эндоскопической диссекции у детей, решено воздержаться от использования этой методики. Принято решение выполнить резекцию участка прямой кишки.



Рисунок 1. Эндоскопическая картина гетеротопии слизистой оболочки желудка в прямую кишку — образование с воронкообразным углублением в центральной части и приподнятыми краями

Figure 1. Endoscopy image of gastric heterotopy of the rectum — lesion with a funnel-shaped depression in the center and with margins slightly raised



Рисунок 2. МРТ малого таза у пациента с гетеротопией в прямую кишку. Локальное утолщение слизистой оболочки прямой кишки (стрелка)

Figure 2. Pelvic MRI of a patient with gastric heterotopy of the rectum. Local thickening of the rectal mucosa (arrow)



Рисунок 3. Гистологическая картина желудочной гетеротопии. Участок гетеротопии, представленный клетками фундального отдела желудка (красная стрелка). Нормальная слизистая оболочка прямой кишки (черная стрелка). Окраска гематоксилином и эозином, увеличение $\times 11$

Figure 3. Histology of gastric heterotopy. The site of heterotopy, represented by the cells of the fundus of the stomach (red arrow). Normal rectal mucosa (black arrow). Hematoxylin and eosin staining, $\times 11$ increase

Ребенку проведена низкая передняя резекция прямой кишки с формированием аппаратного циркулярного анастомоза на высоте 3 см от зубчатой линии с интраоперационной ректороманоскопией для определения дистальной зоны резекции, без формирования превентивной кишечной стомы.

Согласно гистологическому заключению в полученных биоптатах удаленного препарата определяются фрагменты слизистой оболочки желудка фундального типа. Собственная пластинка слизистой оболочки отёчна, со слабовыраженной лимфоплазмочитарной инфильтрацией с примесью эозинофилов (Рис. 3).

Послеоперационный период протекал гладко, без хирургических осложнений. Самостоятельный стул с 4 суток. На 10 послеоперационные сутки ребенок в стабильном состоянии выписан домой. При катанестическом наблюдении через 1 месяц состояние ребенка удовлетворительное. В течение 1,5 месяцев после операции отмечался синдром низкой передней резекции в виде учащения стула до 4–5 раз в сутки. При контрольной ректороманоскопии через 2 месяца слизистая прямой кишки и зона аппаратного анастомоза не изменены.

Несмотря на редкость данного заболевания, гетеротопию следует вносить в дифференциально-диагностический поиск при обследовании ребенка

с клиникой желудочно-кишечного кровотечения, безусловно, после исключения других более распространенных в детском возрасте заболеваний. Данное клиническое наблюдение демонстрирует тяжелый путь поиска окончательного диагноза и выбора тактики лечения ребенка с чрезвычайно редкой врожденной аномалией. Тем не менее, подобные, достаточно редкие и казуистические клинические случаи, диктуют необходимость внедрения в практику детских хирургов новых оперативных навыков для улучшения качества медицинской помощи детям.

УЧАСТИЕ АВТОРОВ

Концепция и дизайн исследования: Щербакова О.В., Хабибуллина Л.Р.

Сбор и обработка материала: Хабибуллина Л.Р.

Написание текста: Хабибуллина Л.Р.

Редактирование: Щербакова О.В.

AUTHORS CONTRIBUTION

Concept and design of the study: Olga V. Shcherbakova, Linara R. Khabibullina

Collection and processing of the material: Linara R. Khabibullina

Writing of the text: Linara R. Khabibullina

Editing: Olga V. Shcherbakova

СВЕДЕНИЯ ОБ АВТОРАХ (ORCID)

Щербакова Ольга Вячеславовна — к.м.н., врач-детский хирург, колопроктолог. Заведующая хирургическим отделением №1 (колопроктология) РДКБ ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова МЗ РФ; ORCID 0000-0002-8514-3080.

Хабибуллина Линара Радиковна — врач-детский хирург РДКБ ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова МЗ РФ; ORCID 0000-0002-1515-0699

INFORMATION ABOUT THE AUTHORS (ORCID)

Olga V. Shcherbakova — pediatric surgeon, chief 1th surgery department Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov of the Ministry of Health of Russia; ORCID 0000-0002-8514-3080.

Linara R. Khabibullina — pediatric surgeon, Russian Children Clinical Hospital Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov of the Ministry of Health of Russia; ORCID 0000-0002-1515-0699

ЛИТЕРАТУРА

1. Keese D, Rolle U, Gfroerer S. et al. Symptomatic Meckel's Diverticulum in Pediatric Patients—Case Reports and Systematic Review of the Literature. *Front Pediatr.* 2019;7:267. DOI: 10.3389/fped.2019.00267

2. Kim S-H, Cho Y-H, Kim H-Y. Alimentary tract duplication in pediatric patients: its distinct clinical features and managements. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2020;23(5):423–429. DOI: 10.5223/pghn.2020.23.5.423

3. Dinarvand P, Vareedayah AA, Phillips NJ, Hachem C, et al. Gastric heterotopia in rectum: A literature review and its diagnostic pitfall. *SAGE Open Med Case Rep.* 2017; 5. DOI: 10.1177/2050313X17693968
4. Linden AF, Rajji MT, Azzam R, et al. Bile duct obstruction secondary to heterotopic gastric mucosa. *Journal of Pediatric Surgery, Case Reports.* 2020.
5. Rousseff T, Matthyssens L, Van Renterghem K. Rectal red blood loss in a healthy toddler is not always a juvenile polyp. *Acta Gastroenterol Belg.* 2017;80(1):67–70.
6. Al-Hussaini A, Lone K, Al-Sofyani M, et al. Gastric heterotopia of rectum in a child: a mimicker of solitary rectal ulcer syndrome. *Ann Saudi Med.* 2014;34(3):245–9. DOI: 10.5144/0256-4947.2014.245
7. Kokil G, Pulimood A, Mathai J. A rare case of a rectal polyp with gastric heterotopia. *Indian J Pathol Microbiol.* 2011;54(4):848–9. DOI: 10.4103/0377-4929.91521
8. Soares J, Ferreira C, Marques M. Endoscopic mucosectomy in a child presenting with gastric heterotopia of the rectum. *GE Port J Gastroenterol.* 2017;24:288–291. DOI: 10.1159/000478939
9. Fernandes S, Safavi A, Tessier-Cloutier B, et al. Heterotopic gastric mucosa in the rectum. *Journal of Pediatric Surgery Case Reports.* 2020. DOI: 10.1016/j.epsc.2020.101673
10. Iacopini F, Gotoda T, Elisei W. et al. Heterotopic gastric mucosa in the anus and rectum: first case report of endoscopic submucosal dissection and systematic review. *Gastroenterology Report.* 2016;4(3):196–205. DOI: 10.1093/gastro/gow006
11. Yu L, Yang Y, Cui L et al. Heterotopic gastric mucosa of the gastrointestinal tract: prevalence, histological features, and clinical characteristics. *Scandinavian Journal of Gastroenterology.* 2014;49:138–144.

REFERENCES

1. Keese D, Rolle U, Gfroerer S. et al. Symptomatic Meckel's Diverticulum in Pediatric Patients—Case Reports and Systematic Review of the Literature. *Front Pediatr.* 2019;7:267. DOI: 10.3389/fped.2019.00267
2. Kim S-H, Cho Y-H, Kim H-Y. Alimentary tract duplication in pediatric patients: its distinct clinical features and managements. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2020;23(5):423–429. DOI: 10.5223/pghn.2020.23.5.423
3. Dinarvand P, Vareedayah AA, Phillips NJ, Hachem C, et al. Gastric heterotopia in rectum: A literature review and its diagnostic pitfall. *SAGE Open Med Case Rep.* 2017; 5. DOI: 10.1177/2050313X17693968
4. Linden AF, Rajji MT, Azzam R, et al. Bile duct obstruction secondary to heterotopic gastric mucosa. *Journal of Pediatric Surgery, Case Reports.* 2020.
5. Rousseff T, Matthyssens L, Van Renterghem K. Rectal red blood loss in a healthy toddler is not always a juvenile polyp. *Acta Gastroenterol Belg.* 2017;80(1):67–70.
6. Al-Hussaini A, Lone K, Al-Sofyani M, et al. Gastric heterotopia of rectum in a child: a mimicker of solitary rectal ulcer syndrome. *Ann Saudi Med.* 2014;34(3):245–9. DOI: 10.5144/0256-4947.2014.245
7. Kokil G, Pulimood A, Mathai J. A rare case of a rectal polyp with gastric heterotopia. *Indian J Pathol Microbiol.* 2011;54(4):848–9. DOI: 10.4103/0377-4929.91521
8. Soares J, Ferreira C, Marques M. Endoscopic mucosectomy in a child presenting with gastric heterotopia of the rectum. *GE Port J Gastroenterol.* 2017;24:288–291. DOI: 10.1159/000478939
9. Fernandes S, Safavi A, Tessier-Cloutier B, et al. Heterotopic gastric mucosa in the rectum. *Journal of Pediatric Surgery Case Reports.* 2020. DOI: 10.1016/j.epsc.2020.101673
10. Iacopini F, Gotoda T, Elisei W. et al. Heterotopic gastric mucosa in the anus and rectum: first case report of endoscopic submucosal dissection and systematic review. *Gastroenterology Report.* 2016;4(3):196–205. DOI: 10.1093/gastro/gow006
11. Yu L, Yang Y, Cui L et al. Heterotopic gastric mucosa of the gastrointestinal tract: prevalence, histological features, and clinical characteristics. *Scandinavian Journal of Gastroenterology.* 2014;49:138–144.