

Katarzyna Kozłowska-Petriczko<sup>1</sup>, Katarzyna Pawlak<sup>2</sup>, Anna Wiechowska-Kozłowska<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Oddział Gastroenterologii i Chorób Wewnętrznych, Samodzielny Publiczny Wojewódzki Szpital Zespolony w Szczecinie

<sup>2</sup>Oddział Chorób Wewnętrznych z Pododdziałem Gastroenterologii i Pododdziałem Endokrynologii, Szpital MSWiA w Szczecinie

<sup>3</sup>Pracownia Endoskopii Diagnostycznej i Zabiegowej, Szpital MSWiA w Szczecinie

# Torbiele duplikacyjne przełyku — opis przypadków i przegląd piśmiennictwa

## Esophageal duplication cysts: case report and literature review

### STRESZCZENIE

Torbiele duplikacyjne przełyku są rzadkimi, wrodzonymi anomaliami zlokalizowanymi najczęściej w jego dolnej trzeciej części. Jako zmiany głównie bezobjawowe wykrywa się je przypadkowo w trakcie rutynowej gastrokopii. Na podstawie morfologicznych cech endoskopowych można je zakwalifikować do grupy zmian podnabłonkowych. Torbiele duplikacyjne mogą być uwidocznione w wielu badaniach obrazowych, od najbardziej podstawowych jak zdjęcie rentgenowskie klatki piersiowej, po bardziej zaawansowane jak badanie rezonansu magnetycznego śródpiersia. Jednak jedynym

badaniem różnicującym torbiele duplikacyjne z innymi patologiami podnabłonkowymi, jest endoskopowa ultrasonografia z obrazowaniem dopplerowskim. W niniejszym artykule przedstawiono opisy przypadków dwóch pacjentów zakwalifikowanych do endosonograficznej oceny niespecyficzných zmian podśluzówkowych przełyku oraz przegląd dotychczasowych publikacji dotyczących postępowania diagnostyczno-terapeutycznego w duplikacji przełyku.

**Gastroenterologia Kliniczna 2019, vol. 11, no 4, 138–143**

**Słowa kluczowe: torbiele duplikacyjne przełyku, endoskopowa ultrasonografia, zmiana podśluzówkowa przełyku**

### ABSTRACT

Esophageal duplication cysts (EDCs) are rare, congenital anomalies located most commonly in the lower one third of the esophagus. As mainly asymptomatic lesions, they are usually an incidental finding in routine endoscopy. Based on their morphologic endoscopic features they can be classified as submucosal lesions. Duplication cysts can be visualized with many imaging modalities, from more basic such as a chest x-ray, to more advanced, e.g. mediastinal magnetic resonance imaging. However the only examination

which can differentiate duplication cysts with other submucosal pathologies is an endoscopic ultrasound with duplex Doppler imaging. In this paper we present case reports of two patients qualified for and endosonographic evaluation of unspecific esophageal submucosal lesions, as well as a literature review of the diagnostic and therapeutic process for esophageal duplication.

**Gastroenterologia Kliniczna 2019, tom 11, nr 4, 138–143**

**Key words: esophageal duplication cysts, endoscopic ultrasonography, esophageal submucosal lesion**

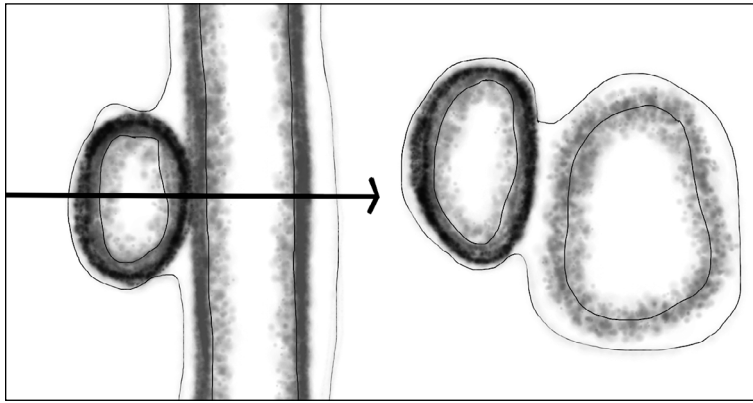
### WSTĘP

Torbiele duplikacyjne przełyku (EDCs, *esophageal duplication cyst*) są wrodzonymi anomaliami powstającymi w trakcie embriogenezy między 3. a 4. tygodniem życia płodowego, w wyniku nieprawidłowego podziału tylnego pierwotnego jelita przedniego [1]. Przełyku

stanowi drugą najczęstszą lokalizację torbieli duplikacyjnych enterogenych tuż za torbielami jelita cienkiego, co stanowi 10–15% wszystkich przypadków [2]. Większość EDCs jest zlokalizowana w dolnej trzeciej części przełyku, w śródpiersiu tylny-dolnym prawym [3]. Morfologia EDCs jest zmienna i obejmuje ich tubularne, cystyczne lub uchyłkowate kształty,

#### Adres do korespondencji:

Katarzyna Kozłowska-Petriczko  
Oddział Gastroenterologii i Chorób  
Wewnętrznych  
Samodzielny Publiczny  
Wojewódzki Szpital Zespolony  
ul. Arkońska 4, 71–455 Szczecin  
tel.: 508 122 811  
e-mail: kasia-petriczko@outlook.com



**Rycina 1.** Torbiele duplikacyjne przełyku

różnych rozmiarów, przy czym typ torbielowaty występuje najczęściej [4]. Istota duplikacji dotyczy zdwojenia warstwy podśluzowej oraz mięśniowej ściany przełyku, nie obejmując nabłonka. Tym samym, EDCs są zbudowane z podwójnej warstwy mięśni gładkich, zaś ich wnętrze wyściela nabłonek, a jego rodzaj zależy od odcinka przewodu pokarmowego, z którego się wywodzą (ryc. 1) [5, 6].

Częstość występowania EDCs u dorosłych jest trudna do określenia z uwagi na ich głównie bezobjawowy charakter, jednak na podstawie przeprowadzonych badań *post-mortem* oszacowano ją na 0,0122% [2]. Pisello i wsp. [7] w swojej pracy stwierdzili, że około 7% torbieli duplikacyjnych przełyku może być przyczyną różnych dolegliwości w grupie dorosłych pacjentów. Rzadkie objawy wynikają przede wszystkim z kompresji okolicznych struktur i zależą od lokalizacji EDCs. Torbiele górnej części przełyku mogą stanowić przyczynę stridoru czy nieproduktywnego kaszlu, natomiast zlokalizowane w środkowej i dolnej części przełyku mogą się objawiać dysfagią, dyskomfortem w nadbrzuszu, bólem w klatce piersiowej oraz wymiotami [2]. Wśród opublikowanych dotychczas powikłań odnotowano zaledwie kilka przypadków zaburzeń rytmu serca, owrzodzenia torbieli, krwawienia lub jej pęknięcia z wtórnym zapaleniem śródpiersia [8, 9]. Również ekstremalnie rzadka jest transformacja złośliwa EDCs, a opisane przypadki dotyczą raka płaskonabłonkowego [10, 11].

Torbiele duplikacyjne przełyku jako bezobjawowe, są wykrywane zwykle przypadkowo w trakcie rutynowej gastroscopii. Na podstawie morfologicznych cech endoskopowych można zakwalifikować je do grupy zmian podnabłon-

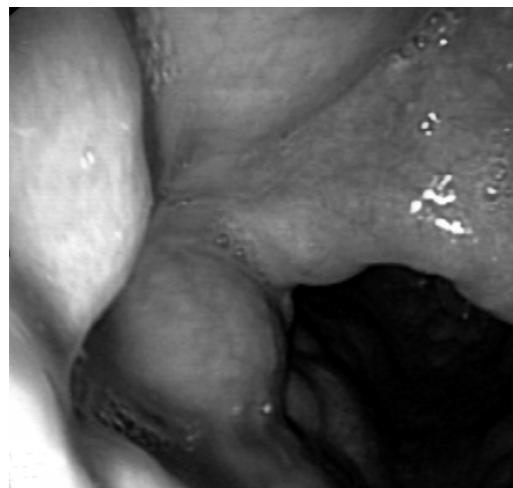
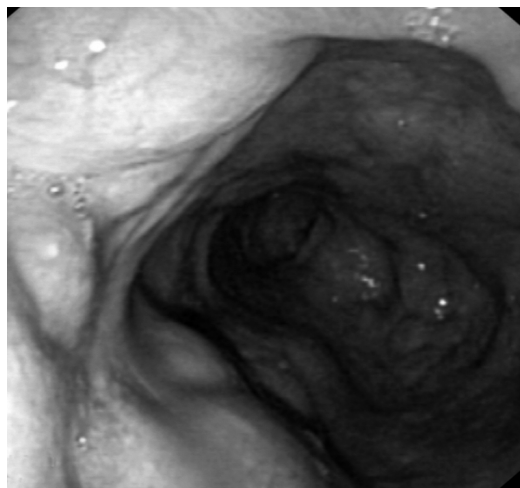
kowych. Inne badania obrazowe uwidaczniające EDCs to: przeglądowe badanie rentgenowskie klatki piersiowej, badanie kontrastowe górnego odcinka przewodu pokarmowego, tomografia komputerowa czy badanie rezonansu magnetycznego śródpiersia [12]. Jednak ostateczna weryfikacja i rozpoznanie EDCs jest możliwe jedynie na podstawie endoskopowej ultrasonografii (EUS). Endosonograficznie EDCs są zmianami bezechowymi lub hipoechogenicznymi, ze ścianą składającą się zwykle z trzech do pięciu warstw [2]. Wewnątrz mogą zawierać gęsty śluzowaty materiał, przegrody, poziomy płyn czy debris [2]. Spotykana sporadycznie cechą różnicującą z torbielami bronchogennymi może być widoczna w ich świetle perystaltyka [2].

Postępowanie w przypadku torbieli duplikacyjnych przełyku zależy od objawów. Jako że są to zmiany incydentalne, najczęściej nie ma wskazań do leczenia chirurgicznego [13, 14]. Natomiast w przypadku uciążliwej, objawowej choroby lub obecności powikłań zalecane jest leczenie chirurgiczne [15].

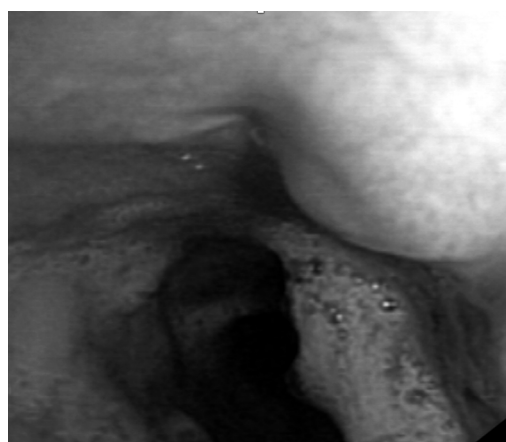
## OPISY PRZYPADKÓW

### Przypadek 1

Sześćdziesięciodwuletni pacjent z ujemnym wywiadem chorób współistniejących przebył, z powodu uciążliwych objawów dyspepsji, ambulatoryjne badanie endoskopowe górnego odcinka przewodu pokarmowego. Z uwagi na nietypowo wyglądające żyłki przełyku (ryc. 2), skierowano go do dalszej diagnostyki szpitalnej w kierunku nadciśnienia wrotnego. Na podstawie wykonanych w trakcie hospitalizacji badań



**Rycina 2.** Przypadek 1 — endoskopowy obraz nietypowo wyglądających żyłaków przełyku



**Rycina 3.** Przypadek 2 — obraz zmiany podśluzówkowej pokrytej prawidłową błoną śluzową, zlokalizowanej w dolnej trzeciej części przełyku

laboratoryjnych i obrazowych wykluczono choroby wątroby oraz nadciśnienie wrotne.

### Przypadek 2

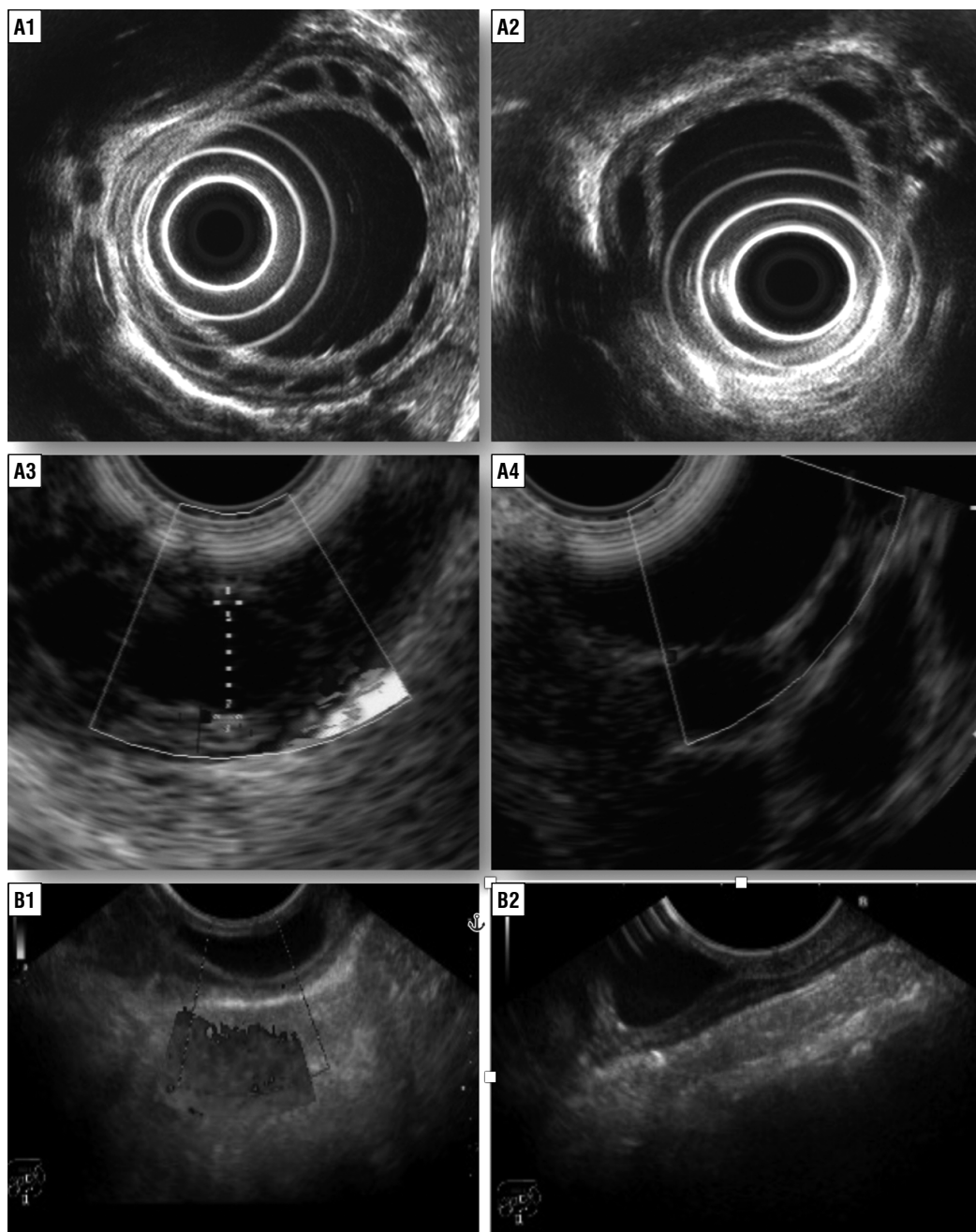
Sześćdziesięcioletni chory, bez chorób współistniejących, z objawową kamicią pęcherzyka żółciowego, został zakwalifikowany do planowej cholecystektomii oraz przedzabiegowej, rutynowej gastroskopii. Poza objawami kamicy pęcherzykowej chory nie zgłaszał żadnych innych dolegliwości. W ambulatoryjnie wykonanej gastroskopii uwidoczniło zmianę podśluzówkową w dolnej trzeciej części przełyku pokrytą prawidłową błoną śluzową (ryc. 3).

Obaj pacjenci zostali zakwalifikowani do endosonograficznej oceny niespecyficznym zmian podśluzówkowych przełyku. Zarówno w pierwszym, jak i drugim przypadku obraz

endosonograficzny z oceną dopplerowską przemawiał za torbielami duplikacyjnymi przełyku (ryc. 4). W pierwszym przypadku, w związku z nietypowym obrazem endosonograficznym wykonano nakłucie zmian pod kontrolą EUS, uzyskując bezbarwny płyn, bez obecności komórek patologicznych w badaniu mikroskopowym. Postawiono rozpoznanie łagodnej wielotorbielowości przełyku. W drugim przypadku, z uwagi na typowy, endosonograficzny obraz zmiany, odstąpiono od wykonywania biopsji pod kontrolą EUS, rozpoznając pojedynczą torbiel duplikacyjną przełyku.

### DYSKUSJA

W obu opisanych przypadkach torbiele duplikacyjne przełyku zostały wykryte w gastroskopii jako zmiany podnabłonkowe, pokryte prawidłową błoną śluzową. Endoskopia górnego odcinka przewodu pokarmowego była wykonywana profilaktycznie lub z powodu dyspepsji, mogącej nie mieć związku z ich występowaniem. Jako że różnicowanie zmian podnabłonkowych nie jest możliwe wyłącznie na podstawie obrazu endoskopowego, chorych zakwalifikowano do endoskopowej ultrasonografii dającej wiele możliwości diagnostycznych. Badaniem EUS przełyku można różnicować zmiany płynowe i lite, wśród których należy uwzględnić między innymi *leiomyoma*, lipoma, guz Abrikosova oraz limfadenopatię [16]. Podobnie, gdy w endoskopii widoczne są zmiany mnogie, mogące przypominać żyłaki przełyku, badanie EUS z opcją Doppler umożliwia weryfikację poprzez uwidocznienie przepływu



**Rycina 4. A** (1–4) — endosonograficzny obraz wielotorbielowości duplikacyjnej u pacjenta nr 1; **B** (1–2) — endosonograficzny obraz pojedynczej torbieli duplikacyjnej u pacjenta nr 2

w naczyniach. Można dokładnie ocenić lokalizację patologii oraz jej stosunek względem otaczających tkanek czy odróżnić torbiele enterogenne od bronchogennych. W przypadku EDCs widoczny jest brak nabłonka rzęskowego, podwójna warstwa mięśniowa oraz łączność ze ścianą przetyku [17]. Endosonografia daje również możliwość wykonania biopsji cienkoigłowej (FNA, *fine-needle aspiration*) zmiany w przypadkach wątpliwych. Obecnie nie ma wytycznych dotyczących postępowania

w EDCs, jednak wykonywanie biopsji wydaje się uzasadnione jedynie w przypadkach zmian chorobowych potencjalnie złośliwych, o nieokreślonym wyglądzie oraz braku typowych endosonograficznych cech torbieli, do których należą: bezechowość lub hipoechogeniczność, gładki obrys zmiany zlokalizowanej podśluzówkowo w ścianie przetyku [18]. Ryzyko powikłań związanych z FNA sięga nawet 14% i może się przyczyniać do zakażenia torbieli, pomimo okołozabiegowej antybiotykoterapii.

Najcięższym opisanym powikłaniem wynikającym z nadkażenia torbieli było wtórne owrzodzenie aorty z jej następową perforacją [19]. Dlatego, jak wynika z dotychczasowych badań oraz własnych obserwacji, biopsja pod kontrolą EUS jest zarezerwowana jedynie dla przypadków niejasnych, trudnych diagnostycznie i zawsze w osłonie antybiotykowej [20].

Leczenie torbieli duplikacyjnych przełyku jest wskazane jedynie, gdy powodują objawy lub powikłania. Wówczas metodą z wyboru jest zabieg chirurgiczny techniką klasycznej torakoskopii czy mniej inwazyjnej wideotorakoskopii [21]. W przypadku torbieli bezobjawowych nie ma bezwzględnych wskazań do ich operacyjnego usunięcia, jednak konieczność dalszego nadzoru EDCs pozostaje wątpliwa [22]. W przypadku pierwszego pacjenta, w kontrolnym badaniu EUS wykonanym po dwóch latach nie stwierdzono progresji zmian. Natomiast drugi pacjent nie zgłaszał żadnych dolegliwości podczas kontrolnych wizyt, w związku z tym odstąpiono od badań kontrolnych. Versleijen i wsp. [23] prowadzili kilkunastoletnią obserwację EDCs, podczas której nie odnotowali progresji w stosunku do badania wyjściowego. Dlatego kontrola EDCs za pomocą endosonografii lub badań obrazowych nie wydaje się konieczna, gdy rozpoznanie jest pewne.

## Piśmiennictwo

- Eichmann D, Engler S, Oldigs HD, et al. Radiological case of the month. Denouement and discussion: congenital esophageal duplication cyst as a rare cause of neonatal progressive stridor. *Arch Pediatr Adolesc Med.* 2001; 155(9): 1067–1068, doi: [10.1001/archpedi.155.9.1067](https://doi.org/10.1001/archpedi.155.9.1067), indexed in Pubmed: [11529812](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/11529812/).
- Whitaker JA, Deffenbaugh LD, Cooke AR. Esophageal duplication cyst. Case report. *Am J Gastroenterol.* 1980; 73(4): 329–332, indexed in Pubmed: [7416128](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/7416128/).
- Bhatia V, Tajika M, Rastogi A. Upper gastrointestinal submucosal lesions--clinical and endosonographic evaluation and management. *Trop Gastroenterol.* 2010; 31(1): 5–29, indexed in Pubmed: [20860221](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/20860221/).
- Sonthalia N, Jain SS, Surude RG, et al. Congenital Esophageal Duplication Cyst: A Rare Cause of Dysphagia in an Adult. *Gastroenterology Res.* 2016; 9(4-5): 79–82, doi: [10.14740/gr711w](https://doi.org/10.14740/gr711w), indexed in Pubmed: [27785331](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/27785331/).
- Mueller D.K. Esophageal Cysts. <http://emedicine.medscape.com/article/426589-overview> (11.05.2015).
- Ringley C, Bochkarev V, Oleynikov D. Esophageal duplication cyst--a guest case in robotic and computer-assisted surgery from the University of Nebraska Medical Center. *MedGenMed.* 2006; 8(4): 25, indexed in Pubmed: [17415307](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/17415307/).
- Pisello F, Geraci G, Arnone E, et al. Acute onset of esophageal duplication cyst in adult. Case report. *G Chir.* 2009; 30(1-2): 17–20, indexed in Pubmed: [19272226](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19272226/).
- Bowton DL, Katz PO. Esophageal cyst as a cause of chronic cough. *Chest.* 1984; 86(1): 150–152, doi: [10.1378/chest.86.1.150](https://doi.org/10.1378/chest.86.1.150), indexed in Pubmed: [6734280](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/6734280/).
- Neo EuL, Watson DI, Bessell JR. Acute ruptured esophageal duplication cyst. *Dis Esophagus.* 2004; 17(1): 109–111, doi: [10.1111/j.1442-2050.2004.00385.x](https://doi.org/10.1111/j.1442-2050.2004.00385.x), indexed in Pubmed: [15209753](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/15209753/).
- Singh S, Lal P, Sikora SS, et al. Squamous cell carcinoma arising from a congenital duplication cyst of the esophagus in a young adult. *Dis Esophagus.* 2001; 14(3-4): 258–261, doi: [10.1046/j.1442-2050.2001.00204.x](https://doi.org/10.1046/j.1442-2050.2001.00204.x), indexed in Pubmed: [11869334](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/11869334/).
- Tapia RH, White VA. Squamous cell carcinoma arising in a duplication cyst of the esophagus. *Am J Gastroenterol.* 1985; 80(5): 325–329, indexed in Pubmed: [3922217](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/3922217/).
- Al-Riyami S, Al-Sawafi Y. True Intramural Esophageal Duplication Cyst. *Oman Med J.* 2015; 30(6): 469–472, doi: [10.5001/omj.2015.91](https://doi.org/10.5001/omj.2015.91), indexed in Pubmed: [26674014](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26674014/).
- Zhang Z, Jin F, Wu H, et al. Double esophageal duplication cysts, with ectopic gastric mucosa: a case report. *J Cardiothorac Surg.* 2013; 8: 221, doi: [10.1186/1749-8090-8-221](https://doi.org/10.1186/1749-8090-8-221), indexed in Pubmed: [24289795](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/24289795/).
- Chaudhary V, Rana SS, Sharma V, et al. Esophageal duplication cyst in an adult masquerading as submucosal tumor. *Endosc Ultrasound.* 2013; 2(3): 165–167, doi: [10.7178/eus.06.0011](https://doi.org/10.7178/eus.06.0011), indexed in Pubmed: [24949388](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/24949388/).
- Takemura M, Yoshida K, Morimura K. Thoracoscopic resection of thoracic esophageal duplication cyst containing ectopic pancreatic tissue in adult. *J Cardiothorac Surg.* 2011; 6: 118, doi: [10.1186/1749-8090-6-118](https://doi.org/10.1186/1749-8090-6-118), indexed in Pubmed: [21943206](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/21943206/).
- Diehl DL, Cheruvattath R, Facktor MA, et al. Infection after endoscopic ultrasound-guided aspiration of mediastinal cysts. *Interact Cardiovasc Thorac Surg.* 2010; 10(2): 338–340, doi: [10.1510/icvts.2009.217067](https://doi.org/10.1510/icvts.2009.217067), indexed in Pubmed: [19917550](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19917550/).
- Klamt A, Di Loreto A, Valle RD, et al. Role of endoscopic ultrasonography in intramural bronchogenic cysts: case reports and review of the literature. *Endosc Ultrasound.* 2012; 1(3): 162–164, doi: [10.7178/eus.03.008](https://doi.org/10.7178/eus.03.008), indexed in Pubmed: [24949355](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/24949355/).
- Eckardt AJ, Jenssen C. Current endoscopic ultrasound-guided approach to incidental subepithelial lesions: optimal or optional? *Ann Gastroenterol.* 2015; 28(2): 160–172, indexed in Pubmed: [25830949](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/25830949/).

19. Cevasco M, Menard MT, Bafford R, et al. Acute infectious pseudoaneurysm of the descending thoracic aorta and review of infectious aortitis. *Vasc Endovascular Surg.* 2010; 44(8): 697–700, doi: [10.1177/1538574410376449](https://doi.org/10.1177/1538574410376449), indexed in Pubmed: [20675309](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/20675309/).
20. Béchade D, Desramé J, Algayres JP. Gastritis cystica profunda in a patient with no history of gastric surgery. *Endoscopy.* 2007; 39 Suppl 1: E80–E81, doi: [10.1055/s-2006-945070](https://doi.org/10.1055/s-2006-945070), indexed in Pubmed: [17440878](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/17440878/).
21. Al-Riyami S, Al-Sawafi Y. True Intramural Esophageal Duplication Cyst. *Oman Med J.* 2015; 30(6): 469–472, doi: [10.5001/omj.2015.91](https://doi.org/10.5001/omj.2015.91), indexed in Pubmed: [26674014](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26674014/).
22. Pisello F, Geraci G, Arnone E, et al. Acute onset of esophageal duplication cyst in adult. Case report. *G Chir.* 2009; 30(1-2): 17–20, indexed in Pubmed: [19272226](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/19272226/).
23. Versleijen MWJ, Drenth JPH, Nagengast FM. A case of esophageal duplication cyst with a 13-year follow-up period. *Endoscopy.* 2005; 37(9): 870–872, doi: [10.1055/s-2005-870219](https://doi.org/10.1055/s-2005-870219), indexed in Pubmed: [16116541](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16116541/).