

Brunneroma — rzadka przyczyna niedrożności i krwawienia do przewodu pokarmowego — opis przypadku

Ireneusz Pierzankowski, Tomasz Maj, Tomasz Olesiński

Guzy hamartomatyczne gruczołów Brunnera występują niezwykle rzadko, stanowiąc zaledwie około 5% guzów dwunastnicy. Lokalizują się przede wszystkim w początkowym jej odcinku i rozpoznawane są przypadkowo w trakcie badań endoskopowych oraz obrazowych jamy brzusznej. Część z nich jest przyczyną wtórnych patologii układu pokarmowego, takich jak ostre i przewlekłe krwawienie (37%) lub wysoka niedrożność mechaniczna przewodu pokarmowego (37%), czy też rzadziej występujących, jak ostre zapalenie trzustki czy żółtaczka mechaniczna. Prezentujemy opis przypadku leczonej w naszym ośrodku 53-letniej chorej z nawracającymi epizodami krwawień do górnego odcinka przewodu pokarmowego, prowadzącymi do głębokiej anemizacji, których przyczynę rozpoznano z opóźnieniem. Chora w trakcie diagnostyki wymagała przetoczenia łącznie 14 j. koncentratu krwinek czerwonych.

Brunneroma: a rare cause of obstruction and bleeding of the digestive tract. Case report

Hamartomatic tumours of Brunner's glands are very rare and account for only 5% of tumours of the duodenum. Brunneromas are often diagnosed unexpectedly during endoscopic or radiological investigation. They may be the reason for digestive tract bleeding or duodenal obstruction. Brunneroma is an aetiological factor for acute pancreatitis and jaundice. We present the case of a 53-year old woman who had repeated episodes of digestive tract bleeding which cause secondary anemia. The cause of the bleeding was recognised when the patient was being given 14 units of packed red cells.

NOWOTWORY Journal of Oncology 2015; 65, 2: 132–134

Słowa kluczowe: hamartoma, gruczoły Brunnera, krwawienie, niedrożność

Key words: hamartoma, Brunner's gland, duodenal bleeding, duodenal obstruction

Wstęp

Krwawienie do przewodu pokarmowego jest jednym z najczęstszych oraz najistotniejszych objawów patologii układu pokarmowego. W zdecydowanej większości (około 95%) jego przyczynę udaje się ustalić względnie łatwo, podczas badania endoskopowego [1, 2]. W pozostałych przypadkach diagnostyka jest z reguły trudna, zważywszy, że poszukiwana patologia lokalizuje się najczęściej w jelicie cienkim, poza możliwościami diagnostycznymi podstawowych badań endoskopowych. Pozostaje pewien niesprecyzowany odsetek chorych, u których nie stwierdzono przyczyny krwawienia lub rozpoznano ją niewłaściwie pomimo faktu, że do ustalenia rozpoznania niewymagane były wy-

soce specjalistyczne procedury. Najczęściej powodem tego stanu rzeczy jest „stygmatyzacja” chorego określonym rozpoznaniem i brak jego weryfikacji pomimo nieskuteczności leczenia. Inną przyczyną jest niestosowanie się chorego do zaleceń, na przykład wykonania kontrolnego badania endoskopowego w trakcie lub po zakończeniu leczenia. Często brak właściwego rozpoznania wynika również z niedokończenia postępowania diagnostycznego i braku weryfikacji histopatologicznej widocznych makroskopowo patologii.

Guzy hamartomatyczne gruczołów Brunnera są niezwykle rzadkie. Stanowią około 5% wszystkich guzów dwunastnicy [3–5]. Rozpoznajemy je najczęściej pomiędzy 50 a 70 rokiem życia, u obu płci z tą samą częstotliwością [6]. Po raz pierwszy

zostały co prawda opisane w 1835 roku przez Jean Cruveilhiera [1], wybitnego francuskiego anatomopatologa, jednak do końca XX wieku w piśmiennictwie notuje się zaledwie około 150 przypadków tej patologii. Stanowią one zaledwie 5 do 10% wszystkich guzów jelita cienkiego. Zważywszy, że zachorowalność na te ostatnie wynosi 0,3/100 000, to szansa na spotkanie się z tego typu patologią w codziennej praktyce chirurgicznej jest znikoma [7]. Brunneroma lokalizują się w zdecydowanej większości w opuszcze i okolicy górnego zagięcia dwunastnicy (70%). Część zstępująca jest miejscem występowania 26%, a część III i IV dwunastnicy zaledwie 4% [8]. Poza więzadłem Treitza Brunneroma lokalizują się sporadycznie. Powyższy rozkład występowania zmian zależny jest od gęstości występowania gruczołów Brunnera.

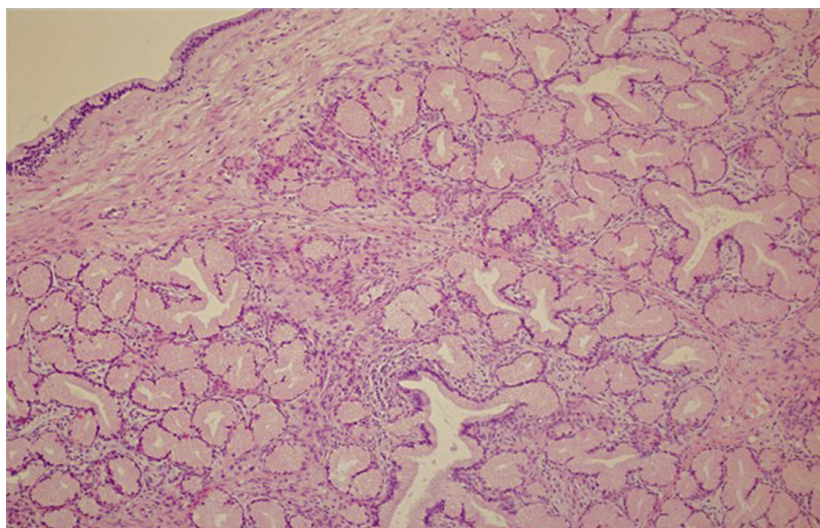
Przebieg choroby może być bezobjawowy, jakkolwiek w większości przypadków występują: krwawienie do przewodu pokarmowego (37%) oraz niedrożność przewodu pokarmowego z powodu zatkania (37%), często w mechanizmie wgłębienia. Sporadycznie Brunneroma mogą być czynnikiem etiologicznym ostrego zapalenia trzustki oraz żółtaczki zaporowej [8]. Guzy bezobjawowe rozpoznawane są najczęściej w trakcie badań endoskopowych górnego odcinka przewodu pokarmowego oraz badań obrazowych (CT, MR). Zmiany te morfologicznie mają charakter polipów zarówno przysadzystych, jak i uszypułowanych. Brunneroma są zmianami łagodnymi i nie wykazują tendencji do złośliwienia, jednakże Brooks i współpracownicy opisali przypadek usuniętego endoskopowo guza, w którym w badaniu histopatologicznym stwierdzono obecność licznych ognisk dysplazji [9].

Opis przypadku

Chora, lat 53, została przyjęta do Kliniki Nowotworów Górnego Odcinka Przewodu Pokarmowego Centrum Onkologii — Instytutu w trybie planowym w celu leczenia operacyjnego

guza dwunastnicy. Pierwotnie hospitalizowana w szpitalu właściwym dla miejsca zamieszkania. Przyczyną hospitalizacji była niedokrwistość oraz pogarszający się stan ogólny.

W trakcie diagnostyki stwierdzono niedokrwistość normobarwliwą, stężenie hemoglobiny wynosiło 6,1 g/dl, przy prawidłowych wartościach stężeń witaminy B12 oraz żelaza. W badaniu endoskopowym rozpoznano obecność resztkowego owrzodzenia tylnej ściany dwunastnicy. Włączono leczenie przyczynowe, zlecono eradykację *Helicobacter pylori*, przetoczono 3 jednostki koncentratu krwinek czerwonych. Chora została wypisana do domu z zaleceniem kontrolnej gastroskopii po upływie miesiąca. Na badanie kontrolne nie zgłosiła się. Po dwóch miesiącach ponownie hospitalizowana z objawami anemizacji (wartość stężenia hemoglobiny: 4,7 g/dl) oraz niewydolności nerek (wartość stężenia kreatyniny; 3,2 mg/dl). Chorą leczono objawowo, w tym przetaczano koncentrat krwinek czerwonych. Nie pogłębiało diagnostyki. Po uzyskaniu poprawy chorą wypisano do domu. Po miesiącu chora była ponownie hospitalizowana z powodu niedokrwistości (wartość stężenia hemoglobiny; 3,3 g/dl) oraz uporczywych wymiotów. W badaniu TK w części zstępującej dwunastnicy oraz w części poziomej stwierdzono obecność masy patologicznej z możliwością nacieku głowy trzustki. Wykonana tym razem gastroskopia potwierdziła powyższe spostrzeżenia. Pobrano materiał do badania histopatologicznego, rozpoznając polip metaplastyczny. Chora skierowana została do dalszego leczenia w Centrum Onkologii, gdzie była operowana. Wykonano gastroduodenotomię, stwierdzono obecność uszypułowanego polipa, który wycięto u podstawy. Następnie wykonano pyloroplastykę sposobem Heineke-Mikulicza. Przebieg pooperacyjny bez powikłań. Chora w 8 dobie po operacji wypisana do domu. W badaniu histopatologicznym guz hammartomatyczny gruczołów Brunnera (ryc. 1).



Rycina 1. Przekrój poprzeczny resekowanego guza

Dyskusja

Guzy hamartomatyczne gruczołów Brunnera nie stanowią, w ujęciu epidemiologicznym, istotnego problemu medycznego. Także ich łagodny charakter i z reguły brak skłonności do zezłośliwienia powodują, że wiedza o tej patologii nie jest szeroko rozpowszechniona w świecie medycznym. Tym bardziej każde zetknięcie się z tak rzadką chorobą staje się bodźcem do wymiany doświadczeń na jej temat.

Etiologia Brunneroma nie jest poznana. Rzadkość występowania tej patologii daje powód do przypuszczeń, że czynniki środowiskowe nie odgrywają decydującej roli w powstaniu tej choroby. Jej obraz kliniczny nie jest charakterystyczny, natomiast wyraża się na ogół dwoma typowymi objawami klinicznymi; krwawieniem do przewodu pokarmowego, zarówno ostrym, jak i przewlekłym, oraz utrudnieniem pasażu treści przewodu pokarmowego, mogącym prowadzić do jego wysokiej niedrożności [7]. Zarówno żółtaczką mechaniczną, jak i ostre zapalenie trzustki, których czynnikiem etiologicznym jest guz hamartomatyczny gruczołów Brunnera, należą do kazuistyki. Wystąpienie któregoś z powyższych objawów (niedrożność, krwawienie, żółtaczką) obliuguje do wykonania diagnostyki endoskopowej przewodu pokarmowego oraz obrazowej jamy brzusznej. Opisany przypadek przypomina nam, że izolowane działania diagnostyczne mogą prowadzić do błędnych wniosków, w szczególności, gdy uda się odnaleźć inną, potencjalną przyczynę wystąpienia konkretnego objawu (w tym przypadku chorobę wrzodową dwunastnicy). Należy też pamiętać, że utrzymywanie się objawów chorobowych (w tym wypadku postępująca anemizacja, pogarszanie się stanu ogólnego, ostra niewydolność nerek) pomimo zastosowanego leczenia powinno być w pierwszym rzędzie sygnałem do weryfikacji rozpoznania, a nie terapii. Wskazane jest też dążenie do potwierdzenia histopatologicznego każdej rozpoznanej makroskopowo w badaniu endoskopowym patologii. Zarówno obraz endoskopowy, jak i uzyskiwany w badaniach obrazowych nie są swoiste. Ponieważ w diagnostyce różnicowej należy brać pod uwagę tak różne choroby, jak: polipy gruczolakowe, chłoniaki, guzy neuroendokrynne, GIST, mięsaki i mięśniaki, a także gruczolakoraka, weryfikacja histopatologiczna choroby, poza jej lokalizacją oraz stanem ogólnym chorego, jest najistotniejszą determinantą wyboru sposobu leczenia.

W piśmiennictwie preferowanym sposobem usunięcia Brunneroma jest endoskopowa polipektomia. Zalecane jest wykonanie EUS poprzedzającego zabieg endoskopowy w celu weryfikacji możliwości leczenia endoskopowego. Jeśli jest to niemożliwe (duża zmiana, szeroka podstawa polipa, trudna lokalizacja, na przykład poza więzadłem Treitz), można wyciąć zmianę miejscowo, zarówno technikami małoinwazyjnymi, jak i tradycyjnymi [10]. Nie opisywano do

tej pory konieczności wykonania dużych operacji resekcyjnych z powodu powyższej choroby.

Wnioski

Powyższy przypadek potwierdza, że łagodna i względnie łatwo poddająca się terapii choroba może stać się przyczyną bezpośredniego zagrożenia życia, o ile nie jest prawidłowo zdiagnozowana i leczona. Przypomina nam również, że należy bezwzględnie weryfikować wcześniej postawione rozpoznania, zwłaszcza gdy pomimo zastosowania właściwego leczenia jego efekty są inne od oczekiwanych. Należy podkreślić, jak ważna jest w tej mierze współpraca z chorym i jego zaangażowanie w proces terapeutyczny, chociażby poprzez skrupulatne stosowanie się do zaleceń. Wymaga zauważenia również fakt, że często, także z przyczyn ekonomicznych, ogranicza się działania diagnostyczne, zapominając, że niejednokrotnie postawienie prawidłowego rozpoznania wymaga badań komplementarnych, w szczególności weryfikacji histopatologicznej choroby. Wreszcie musimy pamiętać, że leczymy tylko te choroby, które znamy, tak więc poszerzanie wiedzy, także o rzadkie przyczyny częstych objawów, wydaje się być ja najbardziej uzasadnione.

Konflikt interesów: nie zgłoszono

Lek. Ireneusz Pierzankowski

Oddział Zabiegowy

Klinika Gastroenterologii Onkologicznej

Centrum Onkologii — Instytut im. Marii Skłodowskiej-Curie

ul. Roentgena 5, 02-781 Warszawa

e-mail: i.pierzankowski@gmail.com

Otrzymano: 9 grudnia 2014 r.

Przyjęto do druku: 9 lutego 2015 r.

Piśmiennictwo

1. Stermer E, Elias N, Keren D i wsp. Acute pancreatitis and upper gastrointestinal bleeding as presenting symptoms of a duodenal Brunner's gland hamartoma. *Can J Gastroenterology* 2006; 20: 541–542.
2. Sosada K, Żurawiński W, Makarska J i wsp. Trudności diagnostyczne w rzadkich przyczynach krwawienia z przewodu pokarmowego. *Wiad Lek* 2005; 58: 134–136.
3. Park BJ, Kim MJ, Lee JH i wsp. Cystic Brunner's gland hamartoma in the duodenum: a case report. *World J Gastroenterol* 2009; 15: 4980–4983.
4. Botsford TW, Crowe P, Crocker DW. Tumors of the small intestine. A review of experience with 115 cases including a report of a rare case of malignant hemangio-endothelioma. *Am J Surg* 1962; 103: 358–365.
5. Ghazi A, Ferstenberg H, Shinya H. Endoscopic gastroduodenal polypectomy. *Ann Surg* 1984; 200: 175–180.
6. Peison B, Benisch B. Brunner's gland adenoma of the duodenal bulb. *Am J Gastroenterol* 1982; 77: 276–278.
7. Bell RH, Smith CD. Small bowel tumors. W: Cameron L. J. (red.) *Current surgical therapy*. Wyd. 5. St Louis: Mosby; 1995, 114–119.
8. Levine JA, Burgart LJ, Batts KI i wsp. Brunner's gland hamartomas: clinical presentation and pathological features of 27 cases. *Am J Gastroenterol* 1995; 90: 290–294.
9. Brookes MJ, Manjunatha S, Allen C i wsp. Malignant potential in a Brunner's gland hamartoma. *Postgrad Med J* 2003; 79: 416–417.
10. Rocco A, Borriello P, Compare D i wsp. Large Brunner's gland adenoma: case report and literature review. *World J Gastroenterol* 2006; 12: 1966–1968.