

## Вродена дупликатура на хранопровода

М. Тотев<sup>1</sup>, О. Бранков<sup>2</sup>, Р. Дребов<sup>2</sup>, А. Михайлова<sup>1</sup>, Ц. Деливерски<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Клиника по спешна образна диагностика и <sup>2</sup>Клиника по детска гръдна хирургия при НИСМ "Н. И. Пирогов" - София

## Congenital duplication of the esophagus

M. Totev<sup>1</sup>, O. Brankov<sup>2</sup>, R. Drebov<sup>2</sup>, A. Mikhaylova<sup>1</sup>, Tz. Deliversky<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Emergency Imaging Diagnostic Clinic and <sup>2</sup>Childrens Clinic of Chest Surgery, ISM "N. I. Pirogov" - Sofia

**Резюме.** Представяме случай на 7-годишно момче, което от рождение страда от чести рецидивиращи обструктивни бронхити и до 1-годишна възраст има инцидентни повръщания и немотивирано слюноотделяне. От 1 година насам се оплаква от трудно преглъщане на храната, като твърдата храна приема по-добре от течната. При рентгеновото изследване в областта на горната трета на хранопровода по десния му контур се очертава добавъчна линейна сянка, която се разширява дистално и завършва торбовидно в областта на долната трета - комуницираща тръбовидна дупликатура на хранопровода. Находката бе потвърдена от проведеното КТ изследване и верифицирана оперативно и при проведеното хистологично изследване.

**Ключови думи:** ДУПЛИКАТУРА, ХРАНОПРОВОД

**Summary.** A 7-year-old boy suffering of frequently relapsing obstructive bronchitis ever since birth, and episodes of casual vomiting and unmotivated excessive salivation is described. Since one year, the complaints include difficult deglutition, with solid foodstuffs swallowed more easily than liquid ones. X-ray study of the upper third of the esophagus reveals an additional linear shadow along the right esophageal contour, broadening distalwards with sacciform termination in the lower third region - communicating tubelike duplication of the esophagus. The finding is confirmed by CT study, and verified intraoperatively and histologically.

**Key words:** DUPLICATION. ESOPHAGUS.

От всичките вродени заболявания на хранопровода раздвояването на същия се среща изключително рядко - в около 2/9000 аутопсии [1, 2, 3, 4, 7]. Това са около 1/5 от всички удвоявания на гастроинтестиналния тракт [3]. Първата дупликатура на хранопровода е наблюдавана от J. Calder през 1733 г., а първи въвежда този термин W. Ladd през 1937 г. Дупликатурите на храносмилателния тракт включват разнообразие от кисти, дивертикули и тубуларни малформации, които са с еднакъв произход - от първичното черво. Раздвояванията на хранопровода са по-често окръглени, отколкото тубуларни и обикновено се съчетават и с други малформации [5, 7]. Според класификацията на И. Н. Григорович (1980) съществуват три основни разновидности - кистозна, тръбовидна и сегментарно-интрамурална [4]. Изключително рядко (според М.А. Филипкин в не повече от 20 % от случаите) те комуницират с лумена на хранопровода [5, 9]. Caffey и сътр. са наблюдавали само един такъв случай, довел до кървене в храносмилателната система [6]. Обикновено се касае за формации без специфичен рентгенов образ, лежащи в задния медиастинум непосредствено над диафрагмалния купол, напълно отделени от лумена и стена-

та на хранопровода, поради което трудно се диференцират от другите медиастинални тумори и кисти [2, 5, 9]. Клинично са налице симптоми на притискане на съседните органи, но не се наблюдава раздалечаване на ребрата и разрушаване на телата на прешлените, както е при агресивните медиастинални тумори [3, 8]. Дупликатурите рядко компримират хранопровода, но може да го изместят [8]. Най-често са покрити с плосък епител, а когато е налице хетеротопна гастрална лигавица, по-често се среща комбиниране с вертебрални аномалии. Дупликатурите може да са покрити с плосък, цилиарен, гастрален, смесен епител или изобщо да нямат епителен слой, а само гладки мускули и хрущял, като стената може да бъде изградена и само от фиброза [10]. Липсата на мукозен слой се причинява от нарастването на вътрелуменното налягане или от високата киселинност на секрецията, което ликвидира мукозата, оставяйки оголен гладкомускулния слой [6]. Когато по вътрешната повърхност има стомашна лигавица, отделеният стомашен сок може да причини разязвявания, некръза на стената с образуване на фистулни ходове към гръдната клетка и бронхите, при което може да се оформи клиничната картина



Фиг. 1. Началото на изпълването на добавъчната сянка по десния контур



Фиг. 2. Същата на по-късен етап (легнало положение)



Фиг. 3 и 4. Торбовидно разширеният дистален край на хранопровода

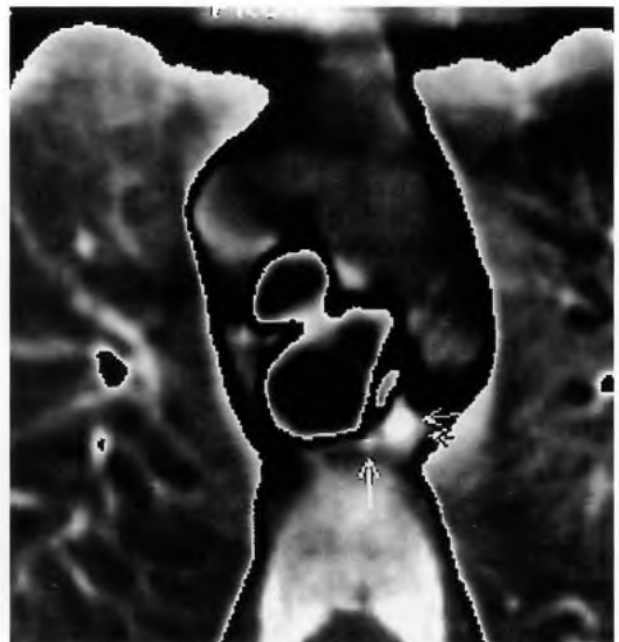
на абсцедираща пневмония [5, 10].

Представяме изключително рядък случай на вродена тръбовидна дупликатура на хранопровода, комуницираща със същия: М.К.К., момче на 7 г., родено от първа нормално протекла бременност чрез патологично раждане с форцепс. Нормално развитие в неонаталния период с чести рецидивирани обструктивни бронхити. До 1-годишна възраст има инцидентни повръщания и немотивирано слюноотделяне. От 1 година насам се оплаква от трудно преглъщане на храната, като твърдата храна приема по-добре от течната. Постъпва в института "Н. И. Пирогов" с висока температура, многократни повръщания и болки в корема, с клинично проявена дисфагия, страх от гълтане и обилна саливация.

Проведено бе контрастно изследване с бариева каша. В областта на горната трета на хранопровода, по десния му контур се откри добавъчна линейна сянка, която се разширява дистално и завършва торбовидно в областта на дисталната трета на хранопровода, над диафрагмата. Хранопроводът е със стеснен лумен и резки очертания, леко избутан от горноописаната формация. Контрастната материя навлезе свободно в стомаха, който е елонгиран и без патологични изменения. Тънкочревният и дебелочревният пасаж не показаха отклонения от нормата. Проведо се и КТ изследване с контраст per os. При него се визуализираха два лумена на хранопровод - по-тесен нормален и по-широк добавъчен, без наличие на друга патология в средостението.

С диагноза вродена аномалия на хранопровода - дупликатура, детето се насочи към Секцията по детска хирургия на института. Интраоперативно се ус-

танови дилатиран хранопровод със задебелена и хиперемизирана мускулна стена. При надлъжното ѝ разрязване се попадна в тубуларна кухина, изпълнена с пенест гноевиден секрет, ограничена между мускулната стена и оформения подобно на цилиндър задебелен мукозен слой. Същият е фиксиран само на тясна основа към задната и предната стена на мус-



Фиг. 5. КТ срез през устата (с една стрелка е посочен истинският хранопровод, а с две стрелки - дупликатурата)

кулния цилиндър и е с протежение от проксималния шиен отдел на хранопровода до дисталната му трета. При огледа на мукозно-субмукозния футляр се установиха три вродени цепковидни отвора, разположени на една продълговата ос - първият високо дистално, а останалите два в средната трета на хранопровода.

Като първи етап се извърши пластично оформяне на хранопровода, но поради инсуфициенция на шевове на втория етап се извърши езофагектомия и шийна езофагостомия и гастростомия.

Хистопатологичното изследване верифицира стена на нормален хранопровод и непосредствено в съседство наличие на втори лумен - дубликатура

със собствен малформативен мускулен слой с признаци на изоставане в развитието, с наличие на митотуби и миоласти и със слабо набелязано разделение на лонгитудинен и на циркулярен слой. Епителната тапицировка на дубликатурата е десквамирана като при улцерозен езофагит, с масивно разрастване на грануляционна тъкан и само на места са запазени островчета многослоен плосък епител. Като се има предвид, че основен морфологичен признак на дубликатурите на ГИТ е наличието на мускулен слой с характерна за дадения орган структура и ориентация, наличието му в представения от нас случай потвърждава поставената диагноза.

### Книгопис

1. *Помаков П.* Хранопровод: Вродени заболявания. В: Рентгенгастроентерология. Мед и физк, София, 1995, 26-29.
2. *Помаков П, Бабуров С.* Удвоявания. В: Детска рентгенгастроентерология. Мед и физк, 1997, 17-18.
3. *Помаков П, Бабуров С.* Двоен хранопровод. В: Детска рентгенгастроентерология. Мед и физк, 1997, 23.
4. *Филипкин МА.* Удвоение или дубликатура на хранопровода. В: Рентгенодиагностика в педиатрия. Медицина, Москва, 1988, 321-322.
5. *Bissler JJ, Klein RL.* Alimentary tract duplications in children: case and literature review. Clin Pediatr, 1988, 27, 3, 152-157.
6. *Caffey J.* Diseases of oesophagus. In: Pediatric x-ray diagnosis. Year book medical publishers incorporated, 1972, 584-595.
7. *Herman TE, Oser AB, McAlister WH.* Tubular communicating duplications of oesophagus and stomach. Pediatr Radiol, 1991, 21, 7, 494-496.
8. *Kirks DR, Laurin S.* Oesophageal duplication. In: Holger Pettersson (ed), The NICER Centennial Book 1995 - A global Textbook of Radiology, The NICER Institute, 1995, 576.
9. *Nobuhara KK, La Ouglia MP, Shamberger RC.* Bronchogenic cysts and esophageal duplications: common origins and treatment. J Ped Surg, 32, 1997, 10, 1408-1413.
10. *Superina RA, Ein SH, Humphreys RP.* Cystic duplications of the esophagus and neurenteric cysts. J Pediatr Surg, 1984, 19, 5, 527-530.

Адрес за кореспонденция: д-р М. Тотев, Клиника по спешна образна диагностика, НИСМ "Н. И. Пирогов", бул. Македония 21, 1606 София

Address for correspondence: Dr. M. Totev, Emergency Imaging Diagnostic Clinic, ISM "N. I. Pirigov", 21, Macedonia Blvd., 1606 Sofia, Bulgaria