

İnvajinasyona neden olan ileal adenomiyom*

Ileal adenomyoma causing invagination

Canan TANIK*, Gamze SAYGILI*, Havva Elif ÖĞÜT*, Damlanur SAKIZ*
Fevziye KABUKÇUOĞLU*, Nihat SEVER**, Didem BASKIN**

* Şişli Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi Patoloji Laboratuvarı

** Şişli Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi Çocuk Cerrahisi Kliniği

ÖZET

Adenomyomlar gastrointestinal sistemde nadir görülür. En sık midede daha az sıklıkla duodenumda tanımlanmıştır, ince barsakta ise çok daha nadirdir. Nodüler görünümdeki bu benign lezyonlar ekzokrin tip duktardan ve hipertrofik düz kas liflerinden meydana gelirler. Çalışmada 5 aylık bir erkek çocukta invajinasyona neden olan ileum yerleşimli adenomyom sunulmuştur. Küçük çocuklarda obstrüksiyona neden olabilen, büyük yaşlarda ise adenokarsinomlarla karışabilen bu nadir lezyonların ayırıcı tanıda akılda tutulması gerekmektedir.

Anahtar kelimeler: Adenomyom, ileum, invajinasyon

SUMMARY

Adenomyomas are rare in the gastrointestinal system. They are more commonly seen in the stomach, than in the duodenum. Ileal adenomyomas are much less common. These nodular, benign lesions are composed of exocrin ducts and hypertrophic smooth muscle bundles. In this study, an ileal adenomyoma, causing intussusception, in a 5 month old boy is described. Ileal adenomyomas may lead to obstruction in children and may be confused with adenocarcinoma in old patients. So these rare tumors should be considered in differential diagnosis of such clinic presentations.

Key words: adenomyoma, ileum, invagination

GİRİŞ

İnce barsağın adenomyomları ekzokrin tip duktardan ve hipertrofik düz kas liflerinden meydana gelen, nodüler görünümlü oldukça nadir görülen tümör benzeri lezyonlardır (1, 8, 11, 12). İlk kez Alsleben tarafından 1903'de midede tanımlanmışlardır. Genellikle mide pilorunda daha nadir olarak da duodenumda görülürler (8,11). Daha distalde yerleşim gösteren adenomyomlar çok daha nadirdir. Genellikle yetişkinlerde, nadiren de çocuklarda saptanmıştır (11).

OLGU SUNUMU

5 aylık erkek çocuk, karın ağrısı, bulantı kusma klinik tablosu ile çocuk cerrahisi kliniğine başvurdu. Hastanın çekilen direkt batin gra-

Yazışma Adresi:

Canan TANIK
Şişli Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi
Patoloji Laboratuvarı İstanbul
Tel: 0212 231 22 09 / 1340 / 1348
e-mail: canantanik@yahoo.com

finde hava sıvı seviyeleri görüldü. Bu bulgularla invajinasyon düşünülerek acilen opere edildi. Obstrükte segment kırmızı mor ve ödemli görüldüğünden rezeke edildi. Operasyon sırasında başka bir anomali saptanmadı. Patoloji laboratuvarına 2 cm çapında 40 cm uzunluğunda ileum rezeksiyon materyali gönderildi. ileum dokusu genel olarak kırmızı mor renkli ve ödemli görünümde idi. Bir cerrahi sınırdan 1,5 cm uzaklıkta submukozal yerleşimli, en geniş çapı 1 cm. olan, kesit yüzü krem beyaz renkte sert kıvamda nodüler lezyon tüm duvar kalınlığını tutup, submukozadan musküler tabakaya doğru uzanmakta idi. Diğer alanda belirgin divertikül veya benzeri lezyon saptanmadı. Lezyonun üzerine gelen mukozada ülserasyon ve hemorajik odaklar mevcuttu. Olgunun ameliyat sonrası çekilen tomografisinde başka bir anatomik anomali saptanmadı.

Lezyonun tamamı parafin takibe alınıp H&E ile boyalı kesitler incelendi. Mikroskopik olarak ileum dokusu içinde musküler tabakada yerleşim gösteren düzensiz, yer yer kistik hal almış kolumnar ve kuboidal epitelle döşeli bez yapıları ve bunların arasında düz kas liflerinden meydana gelen lezyon izlendi. Bu lezyonun

* 17. Ulusal Patoloji Sempozyumunda poster olarak sunulmuştur.

Tablo 1: İnce barsak adenomyomlarının klinikopatolojik bulguları (7,11,12)

Çalışma	Yaş/Cinsiyet	Boyut	Yerleşim	Bulgular
Clarke(1)	15 y/E	2,5x2x1,5	Meckel div.Sm	İntussepsiyon
Rosenmann ve ark.(2)	64 y/E	1x1x1	Jejunum Mp ve Ss	Nekropsi, insid.
Gal ve ark.(3)	2 gün/K	bilinmiyor	İleum Sm İntes.	Obs.
Olmsted ve ark.(4)	82 y/K	2x2x2	İleum Sm	İntussepsiyon
	Bilinmiyor	bilinmiyor	Jejunum	Bilinmiyor
	Bilinmiyor	bilinmiyor	Jejunum	Bilinmiyor
	Bilinmiyor	bilinmiyor	İleum	Bilinmiyor
Kim ve ark.(5)	7 y/E	4x2,5	İleum Sm	İntussepsiyon
Gal ve ark.(6)	9 ay/E	1,2x1x1	İleum Sm ve Mp	İntussepsiyon
	79 y/E	0,6x0,6x0,5	İleum Sm	MideCa, insidental
Serour ve ark.(7)	4 y/E	2x2x1,5	İleum Sm	İntussepsiyon
Chan ve ark.(8)	5 ay/K	0,8	İleum Sm	İntussepsiyon
	3 y/E	0,8	İleum Sm	Kistiklenfanjiom,ins
Montgomery ve ark.(9)	bilinmiyor	bilinmiyor	İleum	İntussepsiyon
	Bilinmiyor	bilinmiyor	İleum	İntussepsiyon
	Bilinmiyor	bilinmiyor	İleum	İntussepsiyon
	Bilinmiyor	bilinmiyor	İleum	İntussepsiyon
Yao JL ve ark.(10)	22 ay/E	bilinmiyor	Meckel div.	İntussepsiyon
Park ve ark.(11)	7 ay/E	1,2x0,8x0,6	İleum Sm ve Mp	İntussepsiyon
	63 y/E	1,3x0,8x0,8	Jejunum Sm ve Mp	Kolon Ca.insid.
Mouravas ve ark.(12)	18 y/E	1,5x1	İleum	İntussepsiyon

Sm: submukoza Mp: muskularis propria Ss: subseroza

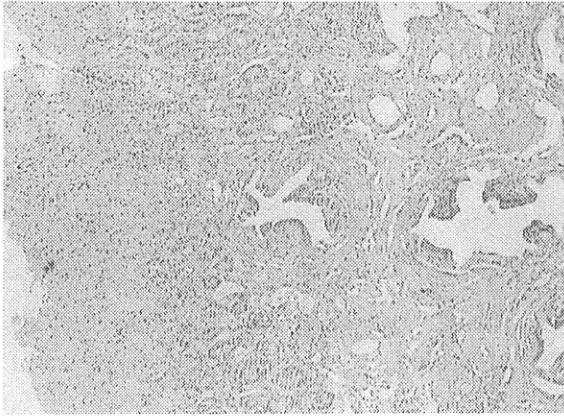
çevresindeki ileum dokusunda hemorajik infarktüs bulguları, yüzeyinde mukozal ülserasyon görüldü, bu alanda yoğun aktif-kronik iltihabi hücre infiltrasyonu izlendi. Bezleri oluşturan epitel hücreleri normal görünümde olup nükleusların kromatin yapısı özellik içermekte idi. Lezyonun tamamı incelendiğinde anaplazi ve pleomorfizm görülmedi. Bu bulgularla vakaya Adenomyom tanısı konuldu.

TARTIŞMA

Adenomyomlar gastrointestinal sistemde nadir görülen lezyonlardır. Çoğu midede pilorda, duodenumda özellikle ampulla vateride, biliyer kanallarda ve daha ender olarak da duodenum'un distal kısımlarında jejunum ve ileum'da görülürler (6, 7). Bu bölgelerde yerleşim gösteren adenomyomlara ait literatürde 21 vaka tanımlanmıştır. Bu vakaların 15 tanesi ileum'da 4

tanesi jejunum'da 2 tanesi de Meckel divertikülündedir (tablo). Vakaların çoğu ya ileri yaşlarda ya da hayatın ilk aylarında görülmektedir. Lezyonların boyutu 0,5 cm ile 4 cm arasında değişmektedir, çoğu submukozal yerleşimlidir (1,2). Midede yerleşen adenomyomlar çoğunlukla bulgu vermezken ince barsak yerleşimli adenomyomlar sıklıkla invajinasyona neden olur (5, 7, 9, 11).

Adenomyomların patogenezi henüz tam olarak anlaşılamamıştır. Genellikle ya pankreatik heterotopi ya da myoepitelyal hamartom olarak kabul görmüşlerdir (1, 11, 12). Geniş duktuslar, Brunner bezleri ve belirgin düz kas liflerinden meydana gelen bu lezyonlar morfolojik görüntüleriyle pankreas dokusunu andırdıklarından bazı otörler tarafından pankreatik heterotopi olarak yorumlanmışlardır (5). Ortotopik pankreasta görülebilecek pankreatit, (nöro) endokrin tümörler ve adenokarsinom gibi patolojilerin

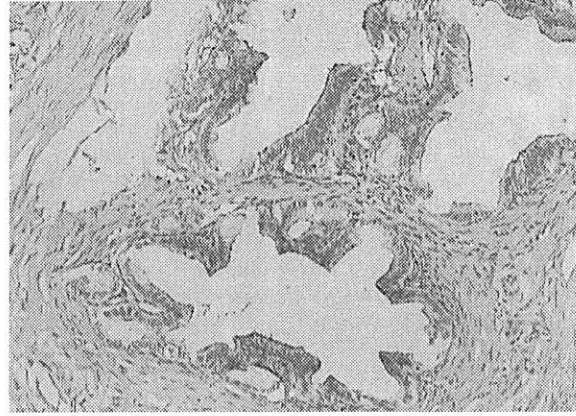


Resim 1: Submukozada Düz kas bantları arasında dilate glandüler yapılar (HE, X40)

adenomyomlarda da görülebilmesi bunu desteklemektedir (11). Terminolojik olarak hamartom herhangi bir dokunun normal olarak bulunması gereken lokalizasyonda aşırı ancak fokal proliferasyondur (2, 3, 5). Heterotopi ise mikroskopik olarak normal ancak lokalizasyon olarak anormal yerleşimli dokulardır. Bu açıdan bakılacak olursa myoepitelyal hamartom ya da adenomyom terimi pankreatik asinus ve adalarını içermeyen sadece düz kas ve ekzokrin tip duktuslardan meydana gelen lezyonlar için kullanılmalı; düz kas ve duktuslar yanısıra pankreatik asinus ve adaları içeren lezyonlar ise pankreatik heterotopi olarak kabul edilmelidir (2, 3, 5).

KAYNAKLAR

1. Clarke BE. Myoepithelial hamartoma of the gastrointestinal tract. A report of eight cases with comment concerning genesis and nomenclature. Arch Pathol 1940; 30: 143-52
2. Rosenmann E, Maayan C, Lernau O. Leiomyomatous hamartosis with congenital jejuno ileal atresia. Isr J Med Sci 1980; 16: 775-79
3. Gal R, Kolkow Z, Nobel M. Adenomyomatosis hamartoma of the small intestine: a rare cause of intussusception in an adult. Am. J Gastroenterol 1986; 12: 1209-11
4. Olmsted WW, Ros PR, Hjermstad BM, McCarthy MJ, Dachman AH. Tumors of the small intestine with little or no malignant predisposition. A review of the literature and report of 56 cases. Gastrointest Radiol 1987; 12: 231-39
5. Kim CJ, Choe GY, Chi JG. Foregut choristoma of the ileum (adenomyoma)-a case report. Pediatr Pathol 1990; 10: 799-805
6. Gal R, Rath -Wolfson L, Ginzburg M, Kessler E. Adenomyomas of the small intestine. Histopathology 1991; 18: 369-71
7. Serour F, Gorenstein A, Lipnitzky V, Zaidel L. Adenomyoma of the small bowel: a rare cause of intussusception in childhood. J Pediatr Gastroenterol Nutr 1994; 18: 247-49
8. Chan YF, Roche D. Adenomyoma of the small intestine in children. J Pediatr Surg 1994; 29: 1611-12
9. Montgomery E, Popek E. Intussusception, adenovirus and children. A brief reaffirmation. Hum Pathol 1994; 25: 169-174
10. Yao JL, Zhou H, Roche K, Bangaru BS, Ginsburg H, Greco MA. Adenomyoma arising in a meckel diverticulum: case report and review of the literature. Pediatr Dev Pathol 2000; 3: 497-500
11. Park HS, Lee SO, Lee JM, Kang MJ, Lee DG, Chung MJ. Adenomyoma of the small intestine: report of two cases and review of the literature. Pathol International 2003; 53: 111-114
12. Mouravas V, Koutsoumis G, Patoulis J, Kostopoulos I, Kottakidou R, Kallergis K. Adenomyoma of the small intestine in children: a rare cause of intussusception- a case report. Turkish J of Pediatrics 2003; 45: 345-347.



Resim 2: Tek sıralı kolumnar epitelle döşeli gland yapıları ve düz kas bantları (HE, X100)

Ayırıcı tanıda enteritis kistika profunda, pnönotosis sistoides intestinalis, Peutz Jegher sendromunun hamartomatoz polipi, duplikasyon kisti ve özellikle obstrüksiyon bulgusu olan yaşlı hastalarda adenokarsinom yer alır (4, 7, 12). Adenomyom antitesinin akılda tutulması özellikle adenokarsinomun ayırıcı tanısında oldukça önemlidir. Literatürdeki intestinal adenomyomların bu denli az olması pekçok vakanın rapor edilmemesi veya yanlış tanı konmasından dolayıdır. Adenokarsinom ayırıcı tanısında bile bu lezyonların her zaman akılda tutulması gerekir (1, 3, 4).