

PREZENTARE DE CAZ

Duplicația chistică a ileonului terminal în regiunea ileo-cecală

Ana Fedoruc^{1,2*}, Eva Gudumac¹, Ina Revenco^{1,2},
Doina Haidarli²

¹Catedra de chirurgie, ortopedie și anesteziologie pediatrică „Natalia Gheorghiu”, Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”, Chișinău, Republica Moldova;

²Centrul Național Științific Practic de Chirurgie Pediatrică „Natalia Gheorghiu”, Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova.

Data primirii manuscrisului: 12.08.2021
Data acceptării spre publicare: 08.09.2021

Autor corespondent:

Ana Fedoruc, medic-rezident
Catedra de chirurgie, ortopedie și anesteziologie pediatrică „Natalia Gheorghiu”
Centrul Național Științific Practic de Chirurgie Pediatrică „Natalia Gheorghiu”
Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova
str. Burebista, nr. 93, Chișinău, Republica Moldova, MD-2032
e-mail: anna.cojocari.28@gmail.com

Ce nu este cunoscut, deocamdată, la subiectul abordat

Nu este cunoscută prezența patologiei, până la apariția unei complicații severe.

Ipoteza de cercetare

Clinica duplicațiilor chistice este imprezvizibilă. Tratatamentul chirurgical este electiv și indicat din cauza complicațiilor severe pe care le pot dezvolta. Diagnosticul este confirmat prin examenul histopatologic.

Noutatea adusă literaturii științifice din domeniu

A fost demonstrat că debutul asimptomatic a patologiei poate duce la complicații severe care pot fi fatale, cum ar fi obstrucția, hemoragia masivă, malignizare la vârsta adultă. Examenul ultrasonografic este metoda electivă pentru diagnosticarea duplicațiilor gastrointestinale. CT și RMN poate fi necesară pentru planificarea abordării chirurgicale. Intervenția chirurgicală rămâne unica metodă de tratament.

Rezumat

Introducere. Chisturile de duplicație enterală (EDC) este o tulburare congenitală rară. Există două tipuri principale de chisturi de duplicație – *chistică* și *tubulară*. Ele pot fi găsite oriunde de-a lungul tractului gastro-intestinal de la gură până la rect. Ultrasonografia este cea mai utilizată metodă imagistică pentru diagnosticare. Tratatamentul este întotdeauna chirurgical.

CASE REPORT

Cystic duplication of the terminal ileum in the ileocecal region: a descriptive study

Ana Fedoruc^{1,2*}, Eva Gudumac¹, Ina Revenco^{1,2},
Doina Haidarli²

¹Chair of pediatric surgery, orthopedics and anesthesiology “Natalia Gheorghiu”, State University of Medicine and Pharmacy “Nicolae Testemițanu”, Chisinau, Republic of Moldova;

²National Scientific and Practical Center “Natalia Gheorghiu” Pediatric Surgery, Mother and Child Institute, Chisinau, Republic of Moldova.

Manuscript received on: 12.08.2021
Accepted for publication: 08.09.2021

Corresponding author:

Fedoruc Ana, resident doctor.
Chair of pediatric surgery, orthopedics and anesthesiology “Natalia Gheorghiu”
National Center for Practical Science Pediatric Surgery “Natalia Gheorghiu”
Institute of Mother and Child, Chisinau, Republic of Moldova
93, Burebista str., Chisinau, Republic of Moldova, MD-2032.
e-mail: anna.cojocari.28@gmail.com

What is not known yet, about the topic

Pathology is not known to be present until a severe complication occurs.

Research hypothesis

The clinic of cystic duplication is unpredictable. Surgical treatment is elective and indicated because of the severe complications they can develop. Diagnosis is confirmed by histopathological examination.

Article’s added novelty on this scientific topic

It has been shown that asymptomatic onset of the pathology can lead to severe complications that can be fatal, such as obstruction, massive hemorrhage, malignancy in adulthood. Ultrasonographic examination is the elective method for diagnosing gastrointestinal duplications. CT and MRI may be required for planning surgical approach. Surgical intervention remains the only method of treatment.

Abstract

Introduction. Enteral duplication cysts (EDC) is a rare congenital disorder. There are two main types of duplication cysts – cystic and tubular. They can be found anywhere along the gastrointestinal tract from the mouth to the rectum. Ultrasonography is the most widely used imaging method for diagnosis. The treatment is always surgical.

Material și metode. Datele anamnestice, clinice și paraclinice au fost prelevate din fișa medicală. Pacientul a fost investigat prin examen ecografic, radiografie cu masă bariatată. A fost studiată literatura de specialitate.

Rezultate. Copilul de 1 lună internat în IMSP IM și C, pe linia AVIASAN cu diagnosticul prezumtiv de ocluzie intestinală, pilorostenoză. La internare mama acuză prezența la copil a vomelor repetate cu conținut gastric, lipsa scaunului mai mult de 24 de ore, neliniste, inapetență, meteorism abdominal. Investigat clinic și paraclinic. Pacientul a fost supus intervenției chirurgicale. În regiunea ileo-cecală se determină, o formațiune chistică, cca 3,5×4,0 cm, de consistență dură, culoare roză, aspect exterior asemănător cu perete intestinal, cu obturarea extrinsecă a lumenului. A fost efectuată enterotomie marginală a formațiunii, rezectată în bloc cu peretele lateral intestinal cu enterorafie în 2 straturi anatomice. Permiabilitatea păstrată, diferențe de lumen nu se determină. Peste 20 de zile de tratament, pacientul s-a recuperat complet.

Concluzii. Comportamentul clinic al EDC este imprevizibil. EDC tind să crească în dimensiuni treptat și pot provoca simptome și complicații importante care ar putea fi fatale, cum ar fi obstrucția, sângerarea masivă, transformare malignă la vârsta adultă. Chirurgia este necesară din cauza complicațiilor severe pe care le pot dezvolta. Diagnosticul este confirmat doar prin examenul histologic.

Cuvinte cheie: chisturile de duplicație enterală.

Introducere

Duplicațiile tractului digestiv (DTD) sunt o serie de anomalii congenitale destul de rare, care pot fi localizate pe tot tractul digestiv, de la esofag până la rect [1]. Cel mai frecvent, acestea se localizează la nivelul ileonului (33%), urmat de esofag (20%) în toate segmentele acestuia, colon (13%), jejun (10%), stomac (7%) și duoden (5%) [2-5]. Incidența este de 1:4.500 nașteri, întâlnite la 0,2% din toți copiii, cu o predominanță la băieți, dar nesemnificativ. Se crede că DTD apar între a 4-a și a 8-a săptămână de dezvoltare embrionară [6]. Etiologia lor este încă necunoscută. Au fost propuse mai multe teorii pentru a explica fiziopatologia lor, dar nici o ipoteză nu poate justifica toate duplicările, localizările și anomaliile asociate. Teoria recanalizării lumenale explică duplicări în acele porțiuni ale tractului digestiv, care au un stadiu solid inițial de dezvoltare, inclusiv esofagul, intestinul subțire și colonul. Cu toate acestea, nu explică duplicări la alte niveluri.

Anomaliile asociate sunt raportate cu o incidență de 16-26%, ca defecte ale coloanei vertebrale, malformații cardiace sau urinare. Alte anomalii digestive sunt prezente în aproximativ 10% din cazuri. Prin urmare, odată găsit un DTD, este necesar un diagnostic și a altor anomalii. Din aspect structural, DTD pot fi chistice sau tubulare. Duplicațiile chistice sunt cele mai frecvente (80%) și de obicei nu comunică cu lumenul adiacent. Duplicațiile tubulare (20%) se desfășoară paralel cu tractul digestiv, fiind prezentă comuniție cu lumenul acestuia

Material and methods. Anamnestic, clinical and paraclinical data were taken from the medical record. The patient was investigated by ultrasound examination, radiography with varied mass. The literature has been studied.

Results. The 1 month-old child hospitalized in Mother and Child Institute, on the AVIASAN line with the presumptive diagnosis of intestinal occlusion, pylorostenosis. At hospitalization, the mother accuses the presence in the child of repeated vomiting with gastric contents, lack of stool for more than 24 hours, restlessness, loss of appetite, abdominal bloating. Clinically and paraclinically investigated. The patient underwent surgery. In the ileo-cecal region, a cystic formation is determined, about 3.5×4.0 cm, of hard consistency, pink color, external appearance similar to the intestinal wall, with extrinsic filling of the lumen. Marginal enterotomy of the formation was performed, resected in block with the lateral intestinal wall with enteroraphy in 2 anatomical layers. Preserved permeability, lumen differences are not determined. Over 20 days of treatment, the patient fully recovered.

Conclusions. The clinical behavior of EDC is unpredictable. EDCs tend to increase in size gradually and can cause important symptoms and complications that could be fatal, such as obstruction, massive bleeding, malignant transformation in adulthood. Surgery is necessary because of the severe complications it can develop. The diagnosis is confirmed only by histological examination.

Key words: enteral duplication cysts.

Introduction

Duplications of the digestive tract (DTD) are a series of rather rare congenital anomalies, which can be located throughout the digestive tract, from the esophagus to the rectum [1]. Most commonly, they are located in the ileum (33%), followed by the esophagus (20%) in all its segments, colon (13%), jejunum (10%), stomach (7%) and duodenum (5%) [2-5]. The incidence is 1:4,500 births, found in 0.2% of all children, with a predominance of boys, but insignificant. DTDs are thought to occur between the 4th and 8th week of embryonic development [6]. Their etiology is still unknown. Several theories have been proposed to explain their pathophysiology, but no hypothesis can justify all the duplications, localizations and associated anomalies. The theory of light recanalization explains duplications in those parts of the digestive tract that have a solid initial stage of development, including the esophagus, small intestine, and colon. However, it does not explain duplications at other levels. Associated abnormalities are reported with an incidence of 16-26%, such as spinal defects, heart or urinary malformations. Other digestive abnormalities are present in about 10% of cases. Therefore, once a DTD is found, a diagnosis of other abnormalities is needed. Structurally, DTDs can be cystic or tubular. Cystic duplications are the most common (80%) and usually do not communicate with the adjacent lumen. The tubular duplications (20%) take place parallel to the digestive tract, being present in communion with its lu-

[7]. Duplicațiile digestive multiple sunt destul de rare (1-7%). Acestea includ mai multe duplicații într-un segment al tractului digestiv sau mai rar în două sau mai multe segmente [8-11].

Aproximativ 70% dintre DTD prezintă simptome în primul an de viață și 85% în cel de-al doilea. EDC pot prezenta greață, vărsături, distensie abdominală sau masă abdominală palpabilă. Durerea abdominală recurentă este una dintre cele mai frecvente forme de prezentare și este de obicei atribuită presiunii ridicate în interiorul chistului din cauza acumulării de secreții. Este posibilă și compresia extrinsecă a intestinului adiacent, care condiționează tabloul clinic de ocluzie intestinală.

Cu toate acestea, cele mai grave complicații sunt produse dacă mucoasa gastrică este prezentă în chist, dezvoltând inflamații, hemoragii, ulceratii și chiar perforații [8, 12-16].

Confirmarea diagnosticului se bazează pe examene imagistice complementare. Ultrasonografia (US) este cea mai utilizată metodă imagistică pentru diagnosticarea DTD abdominale. Rezonanța magnetică (RM) și tomografia computerizată (CT) sunt necesare pentru confirmarea și definitivarea diagnosticului. Tratamentul este întotdeauna chirurgical.

Material și metode

Prezentare de caz clinic

Istoria clinică a unor cazuri este sugestivă în spiritul celor prezentate mai sus.

Copil în vârstă de 1 lună și 25 zile, se prezintă în IMSP IM și C., CNȘP de Chirurgie Pediatrică „Natalia Gheorghiu” cu acuze la vome repetate non-bilioase, crize de neliniște și agitație și distensie abdominală. A fost evaluat de medicul pediatru pe parcursul ultimelor 2 săptămâni pentru acuze sus-numite urmând un tratament simptomatic. Dar cu evoluție nefavorabilă, fapt pentru care a fost direcționat pentru a consulta medicul chirurg-pediatru.

Anamneza perinatală a fost fără particularități. Copilul născut de la S-V N-IV, care a evoluat pe fon de anemie gr. II la mamă, infecție intrauterină, la 38 s/g cu mn = 3500g, fără particularități. Vaccinat la maternitate.

La prezentare în staționar – cu clinica de deshidratare gradul II, dar și semne de ocluzie intestinală joasă. Copilul a fost spitalizat în secviciul terapie intensivă, unde a urmat tratament de corecție metabolică, hidro-electrolitică.

Rezultate

La examenul radiologic abdominal pe gol (Figura 1), au fost prezente niveluri unice hidro-aerice în flancul drept al abdomenului, etajul inferior, cu o reducere a aerației colonului.

Examenul ecografic complex a pus în evidență sub lobul drept hepatic un segment al intestinului dilatată cu conținut solid și lichid, peristaltica haotică; între ansele intestinale puțin lichid – semne concludente de ocluzie. Studiul ecografic a precizat în fosa iliacă dreapta o formațiune de volum cu contur clar, conținut lichidian, fără a fi posibilă localizarea anatomică a acesteia, suspect la mezoul intestinului (Figura 2). În dinamică – în abdomen intestinele mai dilatate, între intestin lichid.

men [7]. Multiple digestive duplications are quite rare (1-7%). These include more duplications in one segment of the digestive tract or less frequently in two or more sections [8-11].

About 70% of DTDs show symptoms in the first year of life and 85% in the second. EDCs may cause nausea, vomiting, bloating, or palpable abdominal mass. Recurrent abdominal pain is one of the most common forms of presentation and is usually attributed to high pressure inside the cyst due to the accumulation of secretions. Extrinsic compression of the adjacent intestine is also possible, which conditions the clinical picture of intestinal occlusion. However, the most serious complications are produced if the gastric mucosa is present in the cyst, developing inflammation, hemorrhage, ulceration and even perforation [8, 12-16].

Confirmation of the diagnosis is based on complementary imaging examinations. Ultrasonography (US) is the most widely used imaging method for diagnosing abdominal DTD. Magnetic resonance imaging (MRI) and computed tomography (CT) are required to confirm and finalize the diagnosis. The treatment is always surgical.

Material and methods

Clinical case presentation

The clinical history of some cases is suggestive in the spirit of those presented above.

A child aged 1 month and 25 days, presents to Institute of Mother and Child, Center of Pediatric Surgery “Natalia Gheorghiu” with accusations of repeated non-biliary vomiting, anxiety attacks and agitation and abdominal distension. He has been evaluated by his pediatrician for the past 2 weeks for the above symptoms following symptomatic treatment. But with an unfavorable evolution, fact for which he was directed to consult the surgeon-pediatrician.

Perinatal anamnesis without peculiarities. The child born from S-V N-IV, who developed on the background of anemia gr. II in the mother, intrauterine infection, at 38 gw with weight at birth = 3500 g, without particularities. Vaccinated at the maternity ward.

At the hospital presentation – with the degree II dehydration clinic, but also signs of low intestinal occlusion. The child was hospitalized in the intensive care unit, where he underwent metabolic correction treatment, hydro-electrolyte.

Results

At the empty abdominal radiological examination (Figure 1), unique hydro-aerial levels were present in the right flank of the abdomen, the lower floor, with a reduction of the colon ventilation.

The complex ultrasound examination revealed: under the right hepatic lobe a segment of the dilated intestine with solid and liquid content, haotic peristalsis; between the intestinal loops a little liquid – conclusive signs of occlusion. The ultrasound study specified in the right iliac fossa a volume formation with a clear contour, liquid content, without being possible its anatomical location, suspicious in the middle of the



Fig. 1 Radiografia abdominală.

Se vizualizează niveluri unice hidroaerice în flancul drept al abdomenului, cu o reducere a aerației colonului.

Fig. 1 Abdominal radiography.

Unique hydroaerial levels are visualized in the right flank of the abdomen, with a reduction in colon ventilation.

Examinarea s-a completat cu administrarea masei de contrast pentru aprecierea tranzitului intestinal.

Persistența vomelor repetate și a semnelor de ocluzie intestinală joasă, a impus intervenția chirurgicală. Intraoperator în cavitatea abdominală s-a depistat lichid liber seros în volum cca 60,0 ml. La revizie, în regiunea ileo-cecală, pe peretele lateral al ileonului, la 1,0 cm de la joncțiunea ileo-cecală o formațiune de volum, 4,0×3,0 cm, de culoare roz-gălbuie, consistență dur-elastică, ultima crea un obstacol extrinsec a lumenului ileonului terminal cu și semne de ocluzie parțială (Figura 7).

În rest, intestinul subțire și gros fără particularități. Mezoul dispus anatomic, elementele de fixare a intestinului corespund variantei anatomice normale. A fost efectuată rezecția în bloc a formațiunii de volum cu peretele intestinului. Intraluminal, se determină prezența peretelui comun mucos (Figura 9). S-a efectuat entero-entero-anastomoza în două planuri anatomice (Figura 8). Apendicectomia dat fiind localizarea acestuia în imediata apropiere de anastomoză, cu vas al mezoului turgescent, cu risc de dezvoltare a aderențelor postoperatorii (Figura 10). Cavitatea abdominală sanată și plaga operatorie suturată în planuri anatomice. Diagnosticul postoperator – duplicație chistică a tractului digestiv – ileonul terminal. La a 3-a zi postoperator la copil s-a reluat tranzitul intestinal. La a 5-a zi postoperator s-a inițiat alimentarea enterală fracționată cu restabilirea treptată a volumului alimentar corespunzător vârstei. La a 8-a zi postoperator plaga cicatrizată – suturile extrase. La 16-a zi postoperator copilul externat în stare satisfăcătoare, cu volumul alimentar deplin, pasaj intestinal adecvat confirmat de prezența scaunelor 1-2 ori pe zi, zilnic. Adaos ponderal la externare – 320 gr.



Fig. 2 Ecografia abdominală.

Ecografia abdominală indică prezența unei formațiuni de volum, cu contur clar, conținut lichid.

Fig. 2 Abdominal ultrasound.

Abdominal ultrasound indicates the presence of a volume formation, with a clear outline, liquid content.

intestine (Figure 2). In dynamics – in the abdomen more dilated intestines, between intestine – liquid.

The study was supplemented with contrast administration to assess intestinal transit as a result of complete mechanical intestinal occlusion.

The persistence of repeated vomiting and signs of low intestinal occlusion required surgery. Intraoperatively, serum free fluid was found in the abdominal cavity in a volume of about 60.0 ml. On revision, in the ileo-cecal region, on the lateral wall of the ileum, 1.0 cm from the ileo-cecal junction, a volume formation, 4.0×3.0 cm, pinkish-yellow, hard-elastic consistency, the latter creates an extrinsic obstruction of the lumen of the terminal ileum with and signs of partial occlusion (Figure 7). Otherwise, the intestine soft and thick without peculiarities. The anatomically arranged mesh, the fixing elements of the intestine correspond to the normal anatomical variant. The bulk resection of the volume formation with the intestinal wall was performed. Intraluminal, the presence of the mucous joint wall is determined (Figure 9). Enteroanastomosis was performed in two anatomical planes (Figure 8). Appendectomy given its location close to the anastomosis, with a turgid meso vessel, with a risk of developing postoperative adhesions (Figure 10). Healthy abdominal cavity and sutured surgical wound in anatomical planes. Postoperative diagnosis – cystic duplication of the digestive tract – the terminal ileum. On the 3rd day postoperatively in the child, the intestinal transit was resumed. On the 5th postoperative day, the fractional enteral feeding was initiated with the gradual restoration of the food volume corresponding to age. On the 8th day postoperatively the wound healed – the sutures extracted. At the 16th postoperative day the discharged child in a satisfactory

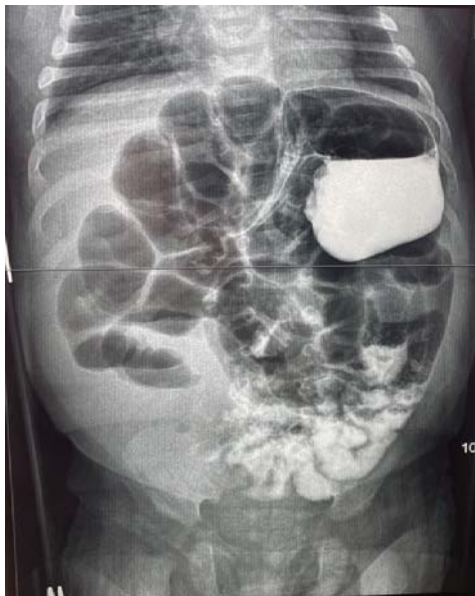


Fig. 3 Radiografie abdominală cu contrast (30 min).

La 30 de minute masa de contrast se vizualizează în proiecția stomacului și a intestinului subțire. Intestinul gros (cu accent colonul ascendent și transvers) este dilatat evident. În proiecția regiunii iliocecale se depistează niveluri hidroaerice.

Fig. 3 Contrast abdominal radiography (30 min).

At 30 minutes the contrast mass is visualized in the projection of the stomach and small intestine. The large intestine (with an ascending and transverse colon accent) is obviously dilated. Hydroaerial levels are detected in the projection of the ileocecal region.



Fig. 4 Radiografie abdominală cu contrast (3 ore).

La 3 ore masa de contrast se menține în lumenul intestinului subțire, care este deplasat spre flancul stîng al abdomenului. Urme de masă de contrast se vizualizează și în stomac.

Fig. 4 Contrast abdominal radiography (3 hours).

At 3 hours the contrast mass is maintained in the lumen of the small intestine, which is displaced to the left flank of the abdomen. Traces of the contrast mass can also be seen in the stomach.



Fig. 5 Radiografie abdominală cu contrast (6 ore).

La 6 ore s-a contrastat pe tot traiectul intestinului subțire și parțial colonul ascendent. Se mențin niveluri hidroaerice în segmentul iliocecal.

Fig. 5 Contrast abdominal radiography (6 hours).

At 6 hours, the ascending colon and partially the ascending colon were contrasted along the entire route. Hydroaeric levels are maintained in the ileocecal segment.



Fig. 6 Radiografie abdominală cu contrast (24 ore).

La 24 ore masa baritată se vizualizează în intestinul colonic, inclusiv în segmentul sigmoid și rect. Intestinul gros (colonul ascendent și transvers) aerat, distensiat. Niveluri hidroaerice și aer liber nu sunt prezente.

Fig. 6 Contrast abdominal radiography (24 hours.)

At 24 hours, the varied mass is visualized in the colonic intestine, including the sigmoid and rectum segments. Large intestine (ascending and transverse colon) aerated, distended. Hydroaeric and outdoor levels are not present.

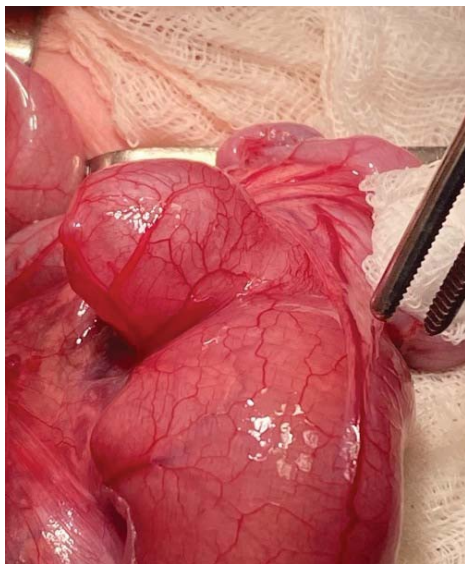


Fig. 7 Aspectul intraoperator al obstacolului extrinsec în regiunea ileonului terminal.
Fig. 7 Intraoperative aspect of the extrinsic obstacle in the terminal ileum region.



Fig. 8 Aspectul macroscopic al duplicației chistice.
Fig. 8 Macroscopic appearance of cystic duplication.

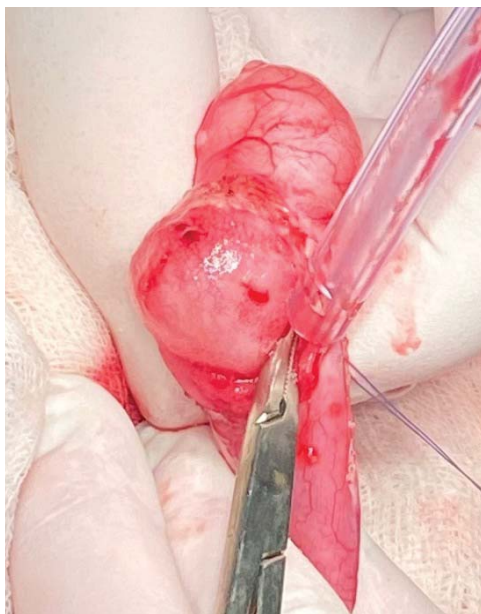


Fig. 9 Rezecția în bloc a formațiunii de volum cu peretele intestinului.
Fig. 9 Block resection of the volume formation with the intestinal wall.

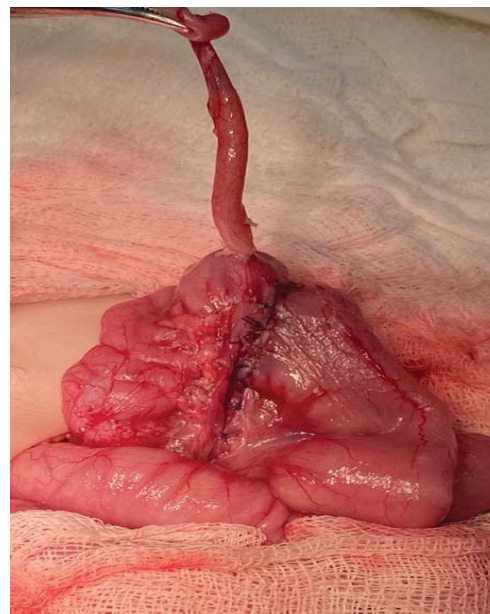


Fig. 10 Efectuarea enteroenteroanastomozei cu apendicectomie.
Fig. 10 Performing enteroanastomosis with appendicectomy.

Examenul histologic al piesei înlăturată – *macroscopic*: Formațiune tisulară fluctuantă, suprafața netedă, dm 3,4×2,5×2 cm. La secționare – aspect chistic, conține lichid transparent ușor gelatinos, suprafața internă e netedă, albicioasă. *Microscopic*: Duplicatura intestinală cu limfangiectazii submucoase.

Discuții

Duplicațiile intestinului subțire la nivelul ileonului prezintă cea mai frecventă zonă implicată în aceasta malformație, fi-

state, with full food volume, adequate intestinal passage confirmed by the presence of stools 1-2 times a day, daily. Weight gain at discharge – 320 gr.

Histological examination of the removed piece – *macroscopic*: fluctuating tissue formation, smooth surface, dm 3.4×2.5×2 cm. *At sectioning* – cystic appearance, contains slightly gelatinous transparent liquid, the inner surface is smooth, whitish. *Microscopic*: Intestinal duplication with submucosal lymphangiectasias.

ind urmată de esofag, colon și stomac. În funcție de localizare, evoluția este variată la fiecare caz aparte, de la asimptomatic, depistat ocazional la examen USG până la manifestări clinice asemănătoare cu ocluzia intestinală. Principalele considerații în gestionarea DTD sunt: starea pacientului, localizarea chistului, indiferent dacă implică una sau mai multe locații anatomice, dacă structura sa este chistică sau tubulară și dacă este comunicată cu lumenul intestinal.

Evoluția clinică a DTD este imprevizibilă în unele cazuri evoluția este trenantă, treptată, de aceea diagnosticul definitiv poate fi efectuat cu întârziere, uneori condiționând complicații mai grave precum volvulus intestinal în zona respectivă, inflamații până la necroză pentru cazurile când este tapetat de mucoasă gastrică. Duplicațiile pot să crească în dimensiuni treptat și provoca simptome și complicații importante ca obstrucția, hemoragii masive sau chiar un risc potențial de transformare malignă la vârsta adultă [13, 14, 17, 18].

USG permite vizualizarea peristaltismului peretelui chistului în rare cazuri prezintă modificare tranzitorie a formei și conturului chistului din cauza unei contracții concentrice a chistului atunci când transductorul rămâne nemișcat pe chist pentru o vreme [3, 19]. CT cât și RMN joacă un rol major în stabilirea relației dintre chist și structurile sale adiacente [11] și în locațiile în care USG prezintă o utilizare limitată [2, 3, 8, 11].

Semnele ultrasonografice sunt raportate în funcție de caracteristicile duplicației:

- Deoarece o duplicație de tract digestiv conține aceeași arhitectură a peretelui cu mai multe straturi cu GT normal, este propus semnul „perete de chist cu cinci straturi”. Corespunde mucoasei hiperecogene cele mai interioare, mucoasei musculare hipocogene, submucoasei hiperecogene, muscularei proprii hipocogene și seroasei hiperecogene cele mai exterioare. Identificarea tuturor celor cinci straturi dintr-un chist este patognomonică în cazul duplicațiilor tractului digestiv. Cu toate acestea, acest semn este dificil de demonstrat și are nevoie de examinare cu ultrasunete de înaltă rezoluție (12-18 MHz). Din acest motiv, utilizarea sondei liniare cu ultrasunete este recomandabilă atunci când se examinează tractul digestiv;
- În cazul duplicațiilor intestinale, acesta împarte peretele cu segmental tractului digestiv adiacent căruia este localizat. Prin urmare, diagnosticul se efectuează dacă este posibil să se demonstreze configurația sonografică „Y” a stratului muscular cauzată de împărțirea *muscularis propria* partajată între chist și bucla adiacentă. Acest semn nu este descris pentru alte chisturi abdominale și reflectă una dintre caracteristicile histologice ale DTD.

DTD complicate prezintă rar clasicul cinci straturi sau semnul cu perete dublu. Restul ectopic al țesutului pancreatic poate produce distrugerea enzimatică a mucoasei cu inflamație, precum și pierderea straturilor, care prezintă un perete gros hiperaemic. În astfel de cazuri, semnul „configurație Y” ajută la stabilirea diagnosticului corect al DTD. Dacă mucoasa ectopiată este cu celule gastrice, se realizează hemoragie și pot fi observate niveluri de lichide sau resturi ecogene în interiorul

Discussion

Duplications of the small intestine in the ileum are the most common area involved in this malformation, followed by the esophagus, colon and stomach. Depending on the location, the evolution is varied in each case, from asymptomatic, occasionally detected at USG examination to clinical manifestations similar to intestinal occlusion. The main considerations in the management of DTD are: the patient's condition, the location of the cyst, regardless of whether it involves one or more anatomical locations, whether its structure is cystic or tubular and whether it is communicated with the intestinal lumen.

The clinical course of DTD is unpredictable in some cases. Duplications can increase in size gradually and cause important symptoms and complications such as obstruction, massive bleeding or even a potential risk of malignant transformation in adulthood [13, 14, 17, 18].

USG allows visualization of cyst wall peristalsis in rare cases shows transient change in cyst shape and contour due to a concentric cyst contraction when the transducer remains motionless on the cyst for a while [3, 19]. Both CT and MRI play a major role in establishing the relationship between the cyst and its adjacent structures [11] and in locations where USG is of limited use [2, 3, 8, 11].

Ultrasonographic signs are reported according to the characteristics of the duplication:

- As a duplication of the digestive tract contains the same multi-layered wall architecture as the normal GT, the sign "five-layered cyst wall" is proposed. It corresponds to the innermost hyperechoic mucosa, the hypoechoic muscular mucosa, the hyperechoic submucosa, the hypoechoic own muscle and the most outer hyperechoic serosa. The identification of all five layers in a cyst is pathognomonic in the case of duplication of the digestive tract. However, this sign is difficult to demonstrate and needs high-resolution (12-18 MHz) ultrasound examination. For this reason, the use of a linear ultrasound probe is recommended when examining the digestive tract;
- In the case of intestinal duplications, it divides the wall with the segment of the digestive tract adjacent to which it is located. Therefore, the diagnosis is made if it is possible to demonstrate the sonographic configuration "Y" of the muscle layer caused by the division of the muscles shared between the cyst and the adjacent loop. This sign is not described for other abdominal cysts and reflects one of the histological features of DTD.

Complicated DTDs rarely show the classic five-layer or double-walled sign. The ectopic rest of the pancreatic tissue can cause enzymatic destruction of the inflamed mucosa, as well as loss of layers, which have a thick hyperemic wall. In such cases, the "Y-configuration" sign helps to establish the correct diagnosis of DTD. If the ectopical mucosa is with gastric cells, bleeding occurs and fluid levels or echogenic debris can be observed inside the cyst. When infection occurs, mucosal ulceration may occur and internal debris may be observed. Transmural extension can cause significant inflammatory

chistului. Când apare infecția, poate apărea ulcerarea mucoasei și pot fi observate resturi interne. Extensia transmurală poate produce modificări inflamatorii importante în grăsimea mezenterului din jur. Duplicațiile cu localizare ileală, în apropierea valvei ileocecale, poate acționa drept cap de invaginare, la ultrasonografie fiind vizualizată ca o masă chistică în interiorul invaginării care necesită tratament chirurgical în mod urgent.

Diagnosticul ultrasonografic prenatal al DTD prezintă aceleași semne ca și examenul postnatal: formațiune chistică cu perete dublu și prezența peristaltismului. Cu toate acestea, în ecografia prenatală, „peretele dublu” nu este întotdeauna văzut sau poate fi parțial și necesită diagnostic diferențial cu alte leziuni chistice, cum ar fi chisturile mezenterice, omentale, ovariene și coledocice. Dacă este posibil să se demonstreze prezența peristaltismului în peretele chistului, se impune originea intestinală. Se sugerează că RMN are o valoare suplimentară în evaluarea chisturilor abdominale fetale.

TC nu se efectuează evolutiv pentru evaluarea DTD datorită radiațiilor și răspunsului relativ limitat al investigațiilor, depășind puțin USG. Prin TC se poate descrie localizarea și extinderea chistului, precum și complicațiile, anomaliile asociate și relația anatomică cu structurile adiacente, ce nu diferă cu mult de USG. La CT, duplicația intestinală se manifestă ca o masă chistică cu un perete subțire și îngroșarea ușoară a peretelui intestinului adiacent. O hiperdensitate intrachistică poate fi observată din cauza hemoragiei sau a materialului proteic acumulat. Un perete îngroșat, bulele de aer în interior și inflamația perichistică pot indica o duplicație intestinală complicată de infecție.

Principal în managementul medico-chirurgical al duplicațiilor tractului digestiv sunt: starea pacientului, localizarea chistului, indiferent dacă implică una sau mai multe regiuni anatomice, dacă structura sa este chistică sau tubulară și dacă comunică cu lumenul intestinal adiacent.

Odată cu disponibilitatea pe scară largă a diagnosticului prenatal, DTD sunt adesea diagnosticate prenatal. Momentul optim pentru efectuarea rezecției la copii cu diagnostic prenatal prestabilit nu este definit. Studii recente relevă necesitatea tratamentului chirurgical – chistectomie la etapele precoce, deci la etape de stabilire diagnosticului, pentru a evita complicațiile în special ocluziile intestinale (învaginate).

Tratamentul DTD asimptomatice rămâne controversat. Comportamentul clinic al duplicațiilor este imprevizibil. Acestea tind să crească în dimensiuni treptat și pot provoca simptome și complicații importante care ar putea fi fatale, cum ar fi obstrucția, hemoragiile masive sau chiar un risc potențial de transformare malignă la vârsta adultă.

Excizia timpurie este asociată cu o morbiditate mai mică și o durată mai mică de spitalizare în comparație cu excizia la pacienții simptomatici. Există morbidități și complicații postoperatorii semnificative după rezecția DTD complicate, comparativ cu intervenția chirurgicală electivă în cazurile asimptomatice.

Excizia chistului solitar poate fi luată în considerare, dar dacă există o comunicare, uneori este necesară o rezecție a intestinului adiacent. Este important asigurarea intraoperatorie

changes in the fat of the surrounding mesentery. Duplications with ileal localization, near the ileocecal valve, can act as an invagination head, with ultrasonography being visualized as a cystic mass inside the invagination that urgently requires surgical treatment.

The prenatal ultrasonographic diagnosis of DTD shows the same signs as the postnatal examination: double-walled cystic formation and the presence of peristalsis. However, in prenatal ultrasound, the “double wall” is not always seen or may be partial and requires differential diagnosis with other cystic lesions, such as mesenteric, omental, ovarian and choledochal cysts. If it is possible to demonstrate the presence of peristalsis in the cyst wall, intestinal origin is required. It is suggested that MRI has additional value in the evaluation of fetal abdominal cysts.

CT is not performed evolutionarily for DTD assessment due to radiation and relatively limited response to investigations, slightly exceeding USG. CT can describe the location and extent of the cyst, as well as complications, associated abnormalities and anatomical relationship with adjacent structures, which do not differ much from USG. On CT, intestinal duplication manifests as a cystic mass with a thin wall and slight thickening of the adjacent intestinal wall. Intracystic hyperdensity may be observed due to bleeding or accumulated protein material. A thickened wall, air bubbles inside, and pericardial inflammation may indicate a complicated intestinal duplication of infection.

Main in the medical-surgical management of duplications of the digestive tract are the patient's condition, the location of the cyst, whether it involves one or more anatomical regions, whether its structure is cystic or tubular and whether it communicates with the adjacent intestinal lumen.

With the widespread availability of prenatal diagnosis, DTDs are often diagnosed prenatally. The optimal time for resection in children with a predetermined prenatal diagnosis is not defined. Recent studies reveal the need for surgical treatment – cystectomy at the early stages, so at the stages of diagnosis, to avoid complications, especially intestinal occlusions (invaginated).

The treatment of asymptomatic DTD remains controversial. The clinical behavior of duplications is unpredictable. They tend to increase in size gradually and can cause important symptoms and complications that could be fatal, such as obstruction, massive bleeding or even a potential risk of malignant transformation in adulthood.

Early excision is associated with a shorter morbidity and a shorter hospital stay compared to excision in symptomatic patients. There are significant postoperative morbidities and complications after complicated DTD resection, compared to elective surgery in asymptomatic cases.

Excision of the solitary cyst may be considered, but if there is communication, sometimes a resection of the adjacent bowel is required. It is important to ensure intraoperatively that the cyst is completely resected, as recurrences or malignant changes may occur [20].

Currently, minimally invasive surgery is becoming the elec-

că chistul este complet rezecat, deoarece pot apărea recurențe sau modificări maligne [20].

În prezent, chirurgia minim invazivă devine abordarea electivă și majoritatea chisturilor pot fi rezecate cu succes, fie toracoscopic, fie laparoscopic, atâta timp cât este disponibil un diagnostic imagistic exhaustiv [21].

Concluzii

DTD sunt anomalii congenitale rare, care sunt localizate pe toate ariile tractului digestiv. Manifestările clinice variază în funcție de localizare. Ileonul prezintă cel mai frecvent implicat, care poate fi diagnosticat prenatal frecvent. Examenul ultrasonografic este metoda electivă pentru diagnosticarea duplicațiilor gastrointestinale. CT și RMN poate fi necesară pentru planificarea abordării chirurgicale complicate. Deși semnele ultrasonografice – perete dublu într-un chist este cel mai tipic pentru diagnosticul duplicației intestinale, constatările semnelor celor cinci straturi sau „configurația Y” a stratului muscular sunt caracteristici mai specifice. Chisturile complicate prezintă constatări imagistice atipice. Tratamentul chirurgical este electiv și indicat din cauza complicațiilor severe pe care le pot dezvolta. Diagnosticul este confirmat prin examenul histopatologic.

Declarația de conflict de interese

Autorii declară lipsa conflictului de natură financiară sau nonfinanciară, în legătură cu cercetarea sau publicația în cauză.

Contribuția autorilor

CB a avut o contribuție intelectuală semnificativă în interpretarea datelor și discutarea rezultatelor. Toți autorii au citit și aprobat versiunea finală a manuscrisului.

Mulțumiri

Prezentarea cazului clinic a fost posibilă datorită diagnosticului corect și intervenirea chirurgicală la timp.

Referințe / references

- Bhatti Z., Anderson M., Wasnik A. Complete gastric duplication in an adult with associated anomalies. *Clin. Imag.*, 2016; pp. 244-246.
- Hur J., Yoon C., Kim M., Kim O. Imaging features of gastrointestinal tract duplications in infants and children: from esophagus to rectum. *Pediatr. Radiol.*, 2007; 37: 691-699.
- Berrocal T., Hidalgo P., Gutiérrez J., De Pablo L., Rodríguez-Lemos R. Imagen radiológica de las duplicaciones del tubo digestivo. *Radiología*, 2004; 46: 282-292.
- Sharma S., Yadav A., Mandal A., Zaheer S., Yadav D., Samie A. Enteric duplication cysts in children: a clinicopathological dilemma. *J. Clin. Diagn. Res.*, 2015; 9: 8-11.
- Macpherson R. Gastrointestinal tract duplications: clinical, pathologic, etiologic, and radiologic considerations. *Radiographics*, 1993; 13: 1063-1080.
- Qi B., Beasley S., Williams A. Evidence of a common pathogenesis for foregut duplications and esophageal atresia with tracheo-esophageal fistula. *Anat. Rec.*, 2001; 264: 93-100.
- Ildstad S., Tollerud D., Weiss R., Ryan D., et al. Duplications of the alimentary tract. Clinical characteristics, preferred treatment, and associated malformations. *Ann. Surg.*, 1988; 208 (2).
- Okur M., Arslan M., Arslan S. et al. Gastrointestinal tract duplications in children. *Eur. Rev. Med. Pharmacol.*, 2014; 18: 1507-1512.
- Palacios A., De Vera M., Martínez-Escoriza J. Prenatal sonographic findings of duodenal duplication: case report. *J. Clin. Ultrasound*, 2013; 41: 1-4.
- Udiya A., Shetty G., Chauhan., Singhal S., Prabhu S. Multiple isolated enteric duplication cysts in an infant—a diagnostic dilemma. *J. Clin. Diagn. Res.*, 2016; 10: 15-16.

tive approach and most cysts can be successfully resected, either thoracoscopically or laparoscopically, as long as an exhaustive imaging diagnosis is available [21].

Conclusions

DTDs are rare birth defects that are located in all areas of the digestive tract. Clinical manifestations vary by location. The ileum presents the most frequently involved, which can be diagnosed prenatally frequently. Ultrasonographic examination is the elective method for diagnosing gastrointestinal duplications. CT and MRI may be required to plan the complicated surgical approach. Although ultrasonographic signs – double wall in a cyst is the most typical for the diagnosis of intestinal duplication, the findings of the sign of the five layers or the “Y configuration” of the muscle layer are more specific features. Complicated cysts have atypical imaging findings. Surgical treatment is elective and indicated because of the severe complications it can develop. The diagnosis is confirmed by histopathological examination.

Declaration of conflict of interest

Authors declare lack of any financial or non-financial conflict.

Authors' contribution

CB had a significant intellectual contribution in data interpretation and discussion of the results. All authors have read and approved the final version of the manuscript.

Acknowledgment

The presentation of the clinical case was possible thanks to the correct diagnosis and timely surgical intervention.

11. Rasool N., Safdar C., Ahmad A., Kanwal S. Enteric duplication in children: clinical presentation and outcome. *Singapore Med. J.*, 2013; 54: 343-346.
12. Letelier AM, Barría CM, Beltrán MS, Marcelo A, Moreno C. Duplicación intestinal: Diagnóstico y treatment de una condición inusual. *Rev. Chil. Cir.*, 2009; 61: 171-175.
13. Erginel B., Soysal F., Ozbey H. *et al.* Chisturi de duplicare enterică la copii: o serie cu o singură instituție, cu patruzeci de pacienți în douăzeci și șase de ani. *World J. Surg.*, 2017; 41: 620-624.
14. Górecki W., Bogusz B., Zajac A., Soltysiak P. Rezecția asistată laparoscopic și laparoscopie a chisturilor de duplicare enterică la copii. *J. Laparoendosc. Adv. Surg. Tech. A*, 2015; 25: 838-840.
15. Di Serafino M., Mercogliano C., Vallone G. Evaluarea cu ultrasunete a chistului de duplicare enterică: semnătura intestinală. *J. Ultrasunete*, 2016; 19: 131-133.
16. Tong S., Pitman M., Anupindi S. Chist de duplicare enterică ileocecală: corelație radiologic-patologică. *Radiografie*, 2002; 22: 1217-1222.
17. Olajide A., Yisau A., Abdurasees N., Kashim I., Olaniyi A., Morohunfade A. Duplicații gastrointestinale: experiență la șapte copii și o recenzie a literaturii. *Saudi J. Gastroenterol.*, 2010; 16: 105-109.
18. Ribaux C., Meyer P. Adenocarcinom într-o duplicare ileală. *Ann Pathol*, 1995; 15: 443-445.
19. Liu R., Adler D. Chisturi de duplicare: diagnostic, management și rolul ultrasunetelor endoscopice. *Ultrasunete Endosc.*, 2014; 3: 152-160.
20. Patiño M., Bettolli M. Duplicări ale tractului alimentar la nou-născuți și copii: aspecte diagnostice și rolul tratamentului laparoscopic. *World J. Gastroenterol.*, 2014; 20: 14263-14271.
21. Scarpa A., Ram A., Soccorso G., Singh M., Parikh D. Experiență chirurgicală și puncte de învățare în gestionarea chisturilor de duplicare a foregutului. *Eur. J. Pediatr. Surg.*, 2017.