

Lồng ruột biến chứng tắc ruột ở trẻ do tụy lạc chỗ - nhân một trường hợp hiếm, tổng kết trên y văn

Nguyễn Viết Thu¹, Nguyễn Quỳnh Giang^{2*}, Nguyễn Văn Anh¹

(1) Khoa Chẩn đoán hình ảnh, Hệ thống y tế Vinmec - Hà Nội

(2) Khoa Chẩn đoán hình ảnh, Hệ thống y tế Vinmec - Phú Quốc

Tóm tắt

Đặt vấn đề: Tụy lạc chỗ là một bất thường bẩm sinh với cấu trúc mô tụy nằm ở vị trí bất thường, tách biệt về mặt giải phẫu và mạch máu với mô tụy bình thường. Đây không phải là một bất thường hiếm gặp tuy nhiên chẩn đoán tiền phẫu thường khó khăn, đa số các trường hợp được chẩn đoán bằng mô bệnh học sau phẫu thuật. Tụy lạc chỗ thường gặp nhất là ở đường tiêu hoá trên (gồm dạ dày, tá tràng và hồi tràng), ở hồi tràng hiếm gặp hơn. Các triệu chứng chủ yếu của tụy lạc chỗ ở trẻ gồm chảy máu đường tiêu hoá, nôn, đau bụng tái diễn, lồng ruột. Trong bài này, chúng tôi báo cáo một trường hợp trẻ nữ 4 tuổi được chẩn đoán lồng ruột có biến chứng tắc ruột do tụy lạc chỗ tại hồi tràng, được điều trị bằng phẫu thuật cắt đoạn ruột và phục hồi tốt sau phẫu thuật. **Ca lâm sàng:** Trẻ nữ 4 tuổi có tiền sử lồng ruột nhiều lần, được nhập viện vì đau bụng và nôn nhiều. Trên siêu âm và chụp cắt lớp vi tính ổ bụng cho thấy có hình ảnh khối lồng ruột không tự tháo, biến chứng tắc ruột. Trẻ được phẫu thuật cắt đoạn ruột và được chẩn đoán lồng ruột do mô tụy lạc chỗ trong thành hồi tràng dựa trên kết quả giải phẫu bệnh. Sau phẫu thuật, trẻ phục hồi tốt. **Kết luận:** Tụy lạc chỗ thường gặp ở đường tiêu hoá, khó chẩn đoán trên các phương tiện hình ảnh, đa số được chẩn đoán sau phẫu thuật. Các phương tiện hình ảnh, đặc biệt là siêu âm ổ bụng và cắt lớp vi tính ổ bụng có vai trò quan trọng trong chẩn đoán các biến chứng gây ra do tụy lạc chỗ như lồng ruột, tắc ruột.

Từ khóa: tụy lạc chỗ, lồng ruột tái diễn, tắc ruột.

Abstract

Intussusception causing bowel obstruction in a child due to ectopic pancreas: A rare case report and literature review

Nguyen Viet Thu¹, Nguyen Quynh Giang^{2*}, Nguyen Van Anh¹

(1) Department of Diagnostic Imaging, Vinmec Health System - Hanoi

(2) Department of Diagnostic Imaging, Vinmec Health System - Phu Quoc

Introduction: Ectopic pancreas is a congenital anomaly in which the pancreatic tissue is located abnormally, lacking anatomical continuity with the main pancreas. This is not an uncommon anomaly, however the preoperative diagnosis is difficult and the majority of cases are diagnosed histologically after surgery. Ectopic pancreas is commonly found in the upper gastrointestinal tract (including stomach, duodenum and jejunum); rarer in the ileum. The main symptoms of ectopic pancreas in children include gastrointestinal bleeding, vomiting, recurrent abdominal pain, and intussusception. In this article, we report a case of a 4-year-old girl who was diagnosed with ectopic pancreas causing intussusception complicated by bowel obstruction. The patient was treated by laparotomy and recovered uneventfully. **Case report:** 4-year-old girl with a history of recurrent intussusception admitted with abdominal pain and vomiting. Abdominal ultrasound and computed tomography showed an intussusception complicated by bowel obstruction. The child underwent laparotomy with segmental intestinal resection and was diagnosed with intussusception due to ectopic pancreatic tissue in the ileal wall based on histopathological findings. After surgery, the child recovered uneventfully. **Conclusion:** Ectopic pancreas is common in the gastrointestinal tract, difficult to diagnose by imaging modalities. Most of cases are diagnosed histologically after surgery. Imaging methods, particularly abdominal ultrasound and computed tomography, play an important role in diagnosing the complications of ectopic pancreas such as intussusception and bowel obstruction.

Keywords: ectopic pancreas, recurrent intussusception, bowel obstruction.

1. ĐẶT VẤN ĐỀ

Tụy lạc chỗ được định nghĩa là cấu trúc mô tụy nằm hoàn toàn tách biệt về mặt giải phẫu và mạch máu với mô tụy bình thường, thường gặp nhất là ở phần cao của đường tiêu hoá gồm dạ dày, tá tràng và hồng tràng [1]. Trong nhóm tụy lạc chỗ ở đường tiêu hoá, tụy lạc chỗ ở hồi tràng hiếm gặp hơn. Mặc dù đây không phải là một bất thường bẩm sinh hiếm gặp, đa số các trường hợp tụy lạc chỗ không có triệu chứng và được tìm thấy tình cờ trong khi phẫu thuật bụng. Trong một số trường hợp, tụy lạc chỗ có thể có triệu chứng đến từ các biến chứng như chảy máu ống tiêu hoá, viêm phúc mạc do rò ống tiêu hoá, tắc ruột, lồng ruột hoặc chuyển dạng ác tính [2]. Khi tụy lạc chỗ gây biến chứng, chẩn đoán và điều trị kịp thời là điều kiện tiên quyết giúp giảm nguy cơ cắt đoạn ruột cũng như tỷ lệ tử vong ở trẻ. Chúng tôi báo cáo một trường hợp tụy lạc chỗ tại hồi tràng gây lồng ruột tái diễn và biến chứng tắc ruột ở trẻ nữ 4 tuổi. Bệnh nhân được chẩn đoán tụy lạc chỗ bằng mô bệnh học sau phẫu thuật cắt đoạn ruột. Sau phẫu thuật, trẻ phục hồi tốt và được xuất hiện trong tình trạng ổn định toàn trạng.

2. BÁO CÁO TRƯỜNG HỢP

Trẻ nữ 4 tuổi vào viện vì đau bụng và nôn nhiều. Cách vào viện 4 tiếng, trẻ xuất hiện đau bụng dữ dội, ngắt quãng thành từng cơn kèm theo buồn nôn và nôn nhiều. Trẻ mệt, quấy khóc, đi ngoài bình thường, không sốt. Trẻ có tiền sử lồng ruột ba lần trước đây, các lần lồng ruột đều tự tháo và không phải can thiệp ngoại khoa. Trẻ được chỉ định siêu âm ổ bụng cấp cứu.

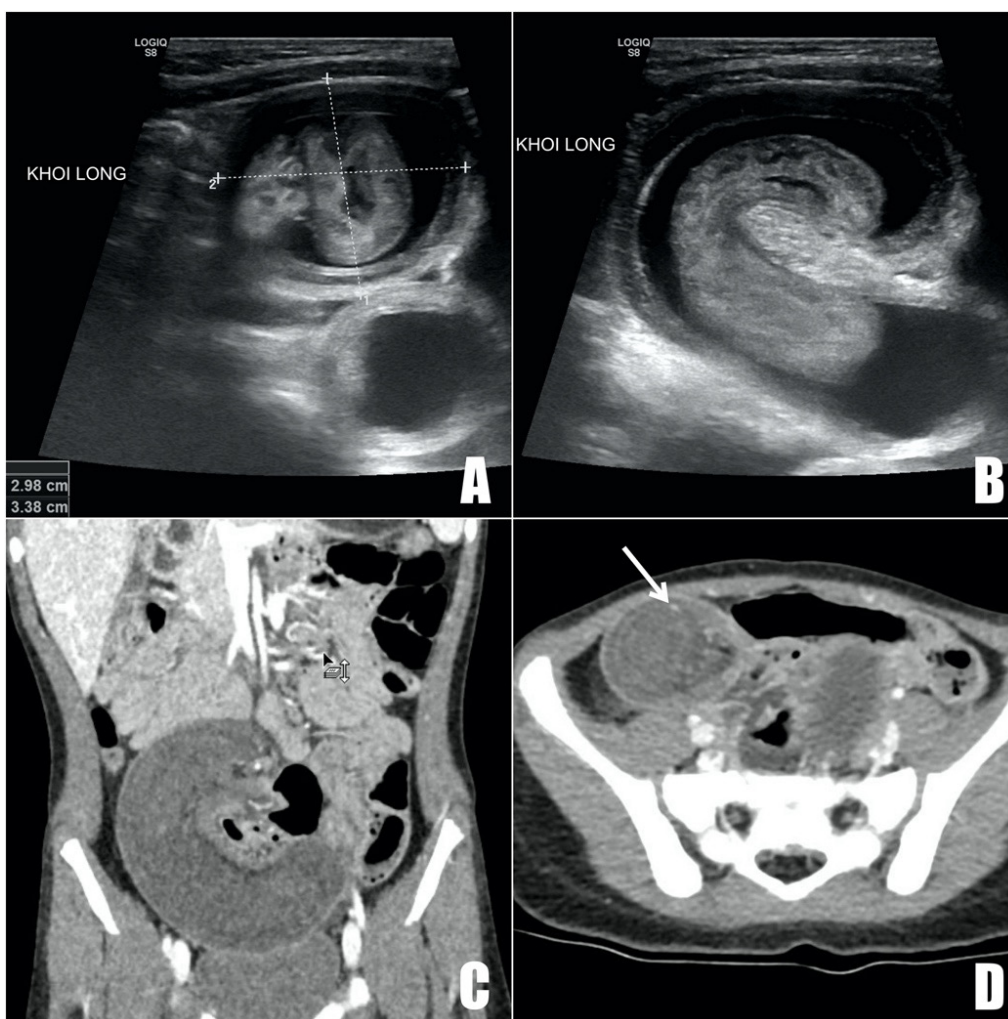
Trên hình ảnh siêu âm, quan sát thấy rõ khối lồng ruột với cấu trúc một quai ruột non kèm mạc treo lồng vào đoạn ruột non kế cận. Kích thước ngang của khối lồng khoảng 30x34 mm, đoạn ruột bị lồng dài khoảng hơn 15 cm. Thành ruột ngoài và trong của khối lồng dày lan toả và phù nề, bề dày thành ruột khoảng 7 mm (Hình 1A,B). Đoạn ruột bị lồng giảm nhu động rõ, không thấy tín hiệu mạch máu trên siêu âm Doppler màu. Bên trong khối lồng

chứa nhiều dịch. Các quai ruột ở thượng lưu tăng nhu động và giãn với đường kính ngang khoảng 2,5 – 3cm. Vì đây là một trường hợp lồng ruột non – ruột non phức tạp với đoạn ruột lồng dài và có dấu hiệu gợi ý nghẹt ruột với nguy cơ nhồi máu ruột, cắt lớp vi tính (CLVT) ổ bụng có tiêm thuốc cản quang tĩnh mạch được chỉ định để đánh giá tình trạng tưới máu ruột cũng như đánh giá đầy đủ các tổn thương trong ổ bụng. Tương ứng với kết quả trên siêu âm, hình ảnh CLVT cho thấy có hình ảnh lồng ruột dài khoảng 15cm, quai ruột lồng cong hình chữ C, bên trong khối lồng gồm quai ruột non, mạc treo và dịch ứ đọng. Trên thì tĩnh mạch cửa, quan sát thấy quai ruột và mạc treo ngấm thuốc kém hơn các quai ruột lân cận tuy nhiên vẫn còn thấy dòng chảy của mạch mạc treo bên trong khối lồng (Hình 1C,D). Do các quai ruột và thành phần trong khối lồng ngấm thuốc kém nên trên phim chụp CLVT ổ bụng không quan sát được các cấu trúc bất thường có thể nguyên nhân gây lồng ruột. Giãn một số quai ruột thương lưu lân cận với đường kính ngang quai lớn nhất khoảng 2,5cm kèm ít dịch tự do giữa các quai ruột. Ngoài ra, các cơ quan và tạng khác trong ổ bụng không phát hiện bất thường bệnh lý.

Kết quả xét nghiệm máu cho thấy trẻ có số lượng bạch cầu (WBC) tăng (23,6 G/L), CRP 1,8 mg/L, các xét nghiệm sinh hoá máu cơ bản khác có kết quả trong giới hạn bình thường.

Trẻ được chẩn đoán lồng ruột có biến chứng tắc ruột và được chỉ định phẫu thuật cấp cứu tháo lồng. Trong phẫu thuật, khối lồng nghẹt không tháo được bằng tay, phẫu thuật viên chuyển phẫu thuật cắt đoạn ruột và nối tận – tận. Phẫu tích đoạn ruột cắt quan sát thấy cấu trúc khối khu trú lõi ra từ thành ruột dạng polyp, kích thước khoảng 3 x 1,5 cm (Hình 2A,B). Trên giải phẫu bệnh cho thấy cấu trúc này phù hợp với khối mô tụy lạc chỗ gồm ưu thể các tế bào acinar, các ống tụy và nang tụy (Hình 2C,D).

Sau một tuần, trẻ được xuất viện với toàn trạng ổn định, không còn đau bụng, đi ngoài bình thường, không sốt.



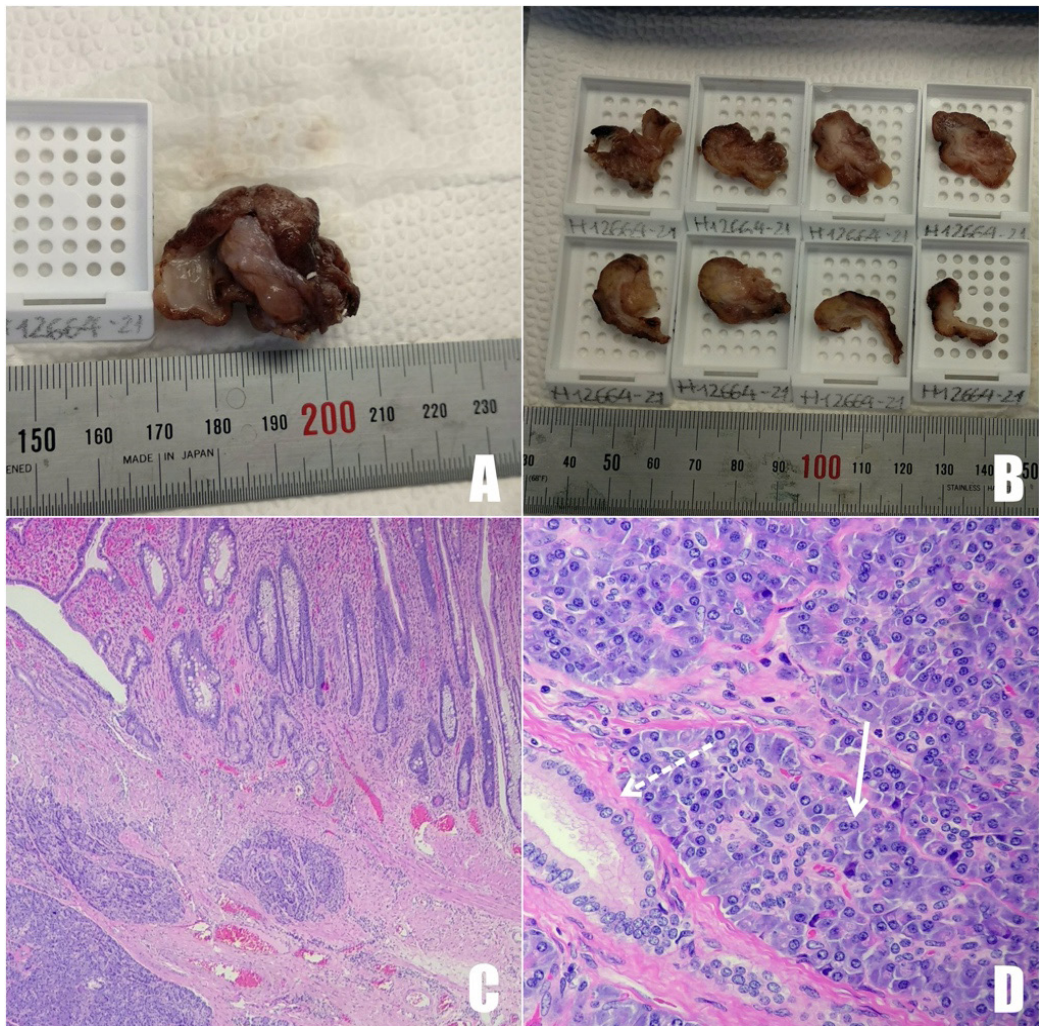
Hình 1. A,B – Hình ảnh siêu âm khối lồng với lát cắt ngang (hình 1a) và lát cắt dọc (hình 1b). Thành ruột giảm âm, dày lan toả. Nội dung khối lồng gồm quai ruột non, mạc treo kèm nhiều dịch ứ đọng. C,D – Hình ảnh chụp CLVT ổ bụng có tiêm thuốc ở thì tĩnh mạch cửa cho thấy khối lồng lớn nằm ở dưới rốn lệch phải, các quai ruột non ngấm thuốc kém tuy nhiên mạc treo trong khối lồng vẫn còn ngấm thuốc (hình mũi tên).

3. BÀN LUẬN

Lồng ruột là tình trạng bệnh lý cấp cứu ngoại khoa, xảy ra khi một đoạn ruột chui vào lồng của đoạn ruột kế cận. Đây là một trong những nguyên nhân hàng đầu gây tắc ruột ở trẻ em [3 -5]. 90% các trường hợp lồng ruột ở trẻ em không tìm thấy nguyên nhân, 10% còn lại gồm những nguyên nhân có thể gặp như: nhiễm khuẩn, bất thường giải phẫu, túi thừa Meckel's, nang ruột đôi, polyp... [6 -8] Trong đó, lồng ruột do tụy lạc chỗ là một nguyên nhân hiếm gặp, thường được chẩn đoán sau phẫu thuật.

Tụy lạc chỗ là một bệnh lý bẩm sinh với đặc

điểm mô tụy nằm ở vị trí bất thường, hoàn toàn tách biệt về mặt giải phẫu và mạch máu với nhu mô tụy bình thường. Tỷ lệ tụy lạc chỗ nói chung rơi vào khoảng 0,5 - 13,7% theo một số các nghiên cứu [9, 10]. Trong đó, tỷ lệ này ở trẻ em gặp khoảng 0,54%, theo một nghiên cứu hồi cứu đơn trung tâm gần đây [11]. Đa số các trường hợp gặp ở đường tiêu hoá trên, chiếm khoảng 70-90%, trong đó ở dạ dày gặp trong 25 - 47%, tá tràng gặp khoảng 11,7 - 36,3%, và hỗng tràng gặp khoảng 15 - 35% các trường hợp [10, 12, 13]. Tụy lạc chỗ trong hồi tràng hiếm gặp hơn, chỉ chiếm khoảng 3,8% [13, 14].



Hình 2. A,B – Hình ảnh đại thể của khối nhu mô tụy lạc chỗ tại thành ruột non. C, D – Hình ảnh vi thể của khối nhu mô tụy lạc chỗ gồm ưu thế các thể bào tụy ngoại tiết acinar (hình mũi tên nét liền) và ống tụy (hình mũi tên nét rời).

Tụy lạc chỗ là kết quả của sự bất thường phát triển thai nhi, xảy ra do các khiếm khuyết trong quá trình di trú. Một số tác giả đã đưa ra hai cơ chế bệnh sinh phổ biến nhằm giải thích cho sự phát triển của mô tụy ở vị trí bất thường. Một là các mảnh mô tụy đã tách khỏi tuyến tụy đang phát triển trong quá trình quay của ruột nguyên thủy, và cơ chế còn lại là do sự chuyển sản thành các tế bào tuyến tụy từ các tế bào gốc đa năng [11]. Phân loại sửa đổi của Gaspar-Fuentes xác định bốn loại tụy lạc chỗ [15]: Loại I là mô tụy điển hình, có ống dẫn, tế bào acinar và tế bào tiểu đảo, tương tự như tuyến tụy bình thường; Loại II (biến thể vi ống) chỉ chứa các ống tuyến tụy; Loại III (tuyến tụy ngoại tiết) chỉ chứa mô acinar; và Loại IV (tuyến tụy nội tiết) chỉ chứa duy nhất các tế bào tiểu đảo. Trong trường hợp của

chúng tôi, hình ảnh mô bệnh học với các ống tụy, nang tụy bên cạnh các tế bào acinar phù hợp với loại III theo Gaspar-Fuentes.

Ở những trẻ có tụy lạc chỗ, các triệu chứng thường xuất hiện gồm: chảy máu đường tiêu hoá, chảy dịch rốn, nôn, đau bụng tái diễn, và lồng ruột [2]. Đau bụng là một trong những triệu chứng phổ biến nhất. Lời giải thích hợp lý nhất cho cơn đau là do sự chế tiết các hormone và enzym gây ra hiện tượng co thắt, kích ứng hóa học và viêm nhiễm các mô xung quanh [10, 16]. Hoạt động chế tiết enzym của các tế bào tụy ngoại tiết lạc chỗ cũng có thể gây ra triệu chứng xuất huyết đường tiêu hoá do tổn thương bào mòn lớp niêm mạc [16]. Các enzym hoạt động của tuyến tụy, chẳng hạn như amylase và trypsin có thể lan dọc theo lòng ruột và gây viêm và

co thắt không chỉ tại chỗ mà còn ở xa vị trí khối tụy lạc chỗ. Các nghiên cứu chỉ ra rằng mức độ nghiêm trọng của triệu chứng phụ thuộc vào kích thước khối tụy lạc chỗ; các tổn thương lớn hơn 1,5 cm thường liên quan đến triệu chứng nặng hơn [16]. Ở trẻ được chúng tôi báo cáo, khối tụy lạc chỗ có kích thước khoảng 3cm có cuống và lồng vào trong lòng ruột. Tắc ruột hay lồng ruột tái diễn có thể xảy ra do khối tụy lạc chỗ dạng polyp hoặc do phù nề các đoạn ruột lân cận do phản ứng viêm; ngoài ra rối loạn chức năng co bóp đoạn ruột tại vị trí khối tụy lạc chỗ cũng được tin là một nguyên nhân gây lồng ruột tái diễn [17]. Trong báo cáo của chúng tôi, biểu hiện lâm sàng của trẻ phù hợp với bệnh cảnh tụy lạc chỗ khi trẻ có tiền sử đau bụng và lồng ruột tái diễn. Tuy nhiên, hai triệu chứng này không phải hiếm gặp ở trẻ em, có thể gặp ở nhiều bệnh cảnh khác và không đặc hiệu cho bệnh lý tụy lạc chỗ. Có đến 90% các trường hợp lồng ruột ở trẻ em không được tìm thấy nguyên nhân. Chính vì vậy, chẩn đoán tụy lạc chỗ trước phẫu thuật là một chẩn đoán khó. Đa số các trường hợp được chẩn đoán qua giải phẫu bệnh sau phẫu thuật, tương tự như báo cáo của chúng tôi.

Về phương diện hình ảnh và nội soi, tụy lạc chỗ có một số đặc trưng. Trong nội soi thực quản dạ dày, tụy lạc chỗ kinh điển là một tổn thương màu vàng dưới niêm mạc, chân rộng, giới hạn rõ, mềm mại; vùng rốn trung tâm có các lỗ của hệ thống ống dẫn. Tuy vậy các tổn thương nhỏ hơn 1,5cm thường không thấy các lỗ này và đôi khi khó phân biệt với các u dưới niêm mạc khác [10]. Về hình ảnh điện quang, như chụp lưu thông ruột có uống chất cản quang barium, hình ảnh điển hình của tụy lạc chỗ là dày các nếp gấp thành ruột không đặc hiệu kèm với

vùng khuyết thuốc hình tròn với vùng lõm trung tâm của các lỗ ống tụy. Tuy nhiên không phải lúc nào các hình ảnh này cũng đầy đủ, gây khó khăn trong phân biệt với các u dưới niêm mạc khác. Trên chụp cắt lớp vi tính cho thấy các tổn thương ưu thế tế bào acinar (ngoại tiết) ngấm thuốc tương tự hoặc ngấm mạnh hơn so với nhu mô tụy bình thường, trong khi đó tổn thương ưu thế dạng ống thường nghèo mạch và ngấm kém hơn so với mô tụy bình thường [18]. Tuy nhiên nhưng hình ảnh này không đặc hiệu. Một vai trò quan trọng hơn của các phương pháp chẩn đoán hình ảnh là để xác định và loại trừ các nguyên nhân gây đau bụng khác, xác định các biến chứng liên quan đến tụy lạc chỗ như lồng ruột, tắc ruột.

Hiện nay, phương pháp phổ biến nhất để quản lý và điều trị tụy lạc chỗ là phẫu thuật cắt bỏ. Một số trường hợp chuyển dạng ác tính từ mô tụy lạc chỗ cũng đã được báo cáo với tỷ lệ rất thấp, chỉ khoảng 0,7 – 1,8% [18]; thường gặp nhất là ung thư biểu mô tuyến ống. Do đó, chuyển dạng ác tính là một chẩn đoán phân biệt cần loại trừ.

4. KẾT LUẬN

Tụy lạc chỗ ở trẻ em là một bất thường bẩm sinh không hiếm gặp tuy nhiên đa số các trường hợp được phát hiện tình cờ và không có triệu chứng. Một số nhỏ các trường hợp có biểu hiện các triệu chứng như chảy máu tiêu hóa, chảy dịch rốn, nôn, đau bụng tái diễn, lồng ruột. Lồng ruột nghẹt dẫn đến tắc ruột do tụy lạc chỗ như trong báo cáo của chúng tôi là một tình huống lâm sàng hiếm gặp, cần được chẩn đoán sớm và chính xác để giảm tỷ lệ biến chứng và tử vong ở trẻ do tình trạng thiếu máu ruột gây ra.

TÀI LIỆU THAM KHẢO

1. Sathyanarayana SA, Deutsch GB, Bajaj J, Friedman B, Bansal R, Molmenti E, et al. Ectopic pancreas: a diagnostic dilemma. *Int J Angiol Off Publ Int Coll Angiol Inc.* 2012 Sep;21(3):177–80.
2. Sulser PS, Azarhoush S, Aronson DC, Tharakan SJ, Zweifel N, Moehrlen U. Atypical presentations of ectopic pancreatic tissue. *J Pediatr Surg Case Rep.* 2020 Jul;58:101450.
3. Jia Y, Fu H, Li N, Kang Q, Sheng J. [Diagnosis and treatment for 46 cases of Peutz-Jeghers syndrome]. *Zhong Nan Da Xue Xue Bao Yi Xue Ban.* 2018 Dec 28;43(12):1323–7.
4. McRae JocelynnE, Quinn HelenE, Saravanas GemmaL, McMinn A, Britton PN, Wood N, et al. Paediatric Active Enhanced Disease Surveillance (PAEDS) annual report 2016: Prospective hospital-based surveillance for serious paediatric conditions. *Commun Dis Intell*

- [Internet]. 2019 Feb 1 [cited 2022 Jun 17];43. Available from: [http://health.gov.au/internet/main/publishing.nsf/ent/8FA6078276359430CA257BF0001A4C42/\\$File/Paediatric_Active_Enhanced_Disease_Surveillance_\(PAEDS\)_annual_report_2016.pdf](http://health.gov.au/internet/main/publishing.nsf/ent/8FA6078276359430CA257BF0001A4C42/$File/Paediatric_Active_Enhanced_Disease_Surveillance_(PAEDS)_annual_report_2016.pdf)
5. Teixeira H, Hauswirth F, Römer N, Muller MK, Baechtold M. An ileo-colic intussusception reaching down to the descending colon - A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2022 Apr;93:107009.
6. Shen G, Liu H, Guan Z, Shang X, Li J, Zhang C, et al. Clinical features and factors leading to early recurrence of intussusception after saline reduction. *JPMA J Pak Med Assoc.* 2020 Oct;70(10):1727–30.
7. Cha PI, Gurland B, Forrester JD. First Reported Case of Intussusception Caused by Escherichia coli O157:H7 in an Adult: Literature Review and Case Report.

Surg Infect. 2019 Jan;20(1):95–9.

8. Bodnár D, Kiss ÁL, Réti G. Modern understanding of intussusception and recent trends in management. *Orv Hetil.* 2020 Aug;161(32):1331–8.

9. Mulholland KC, Wallace WD, Epanomeritakis E, Hall SR. Pseudocyst formation in gastric ectopic pancreas. *JOP J Pancreas.* 2004 Nov 10;5(6):498–501.

10. Bromberg SH, Camilo Neto C, Borges AFA, Franco MIF, França LCM, Yamaguchi N. Heterotopia pancreática: análise clínico-patológica de 18 doentes. *Rev Colégio Bras Cir.* 2010 Dec;37(6):413–9.

11. Persano G, Cantone N, Pani E, Ciardini E, Noccioli B. Heterotopic pancreas in the gastrointestinal tract in children: a single-center experience and a review of the literature. *Ital J Pediatr.* 2019 Dec;45(1):142.

12. Chen HL, Chang WH, Shih SC, Bair MJ, Lin SC. Changing pattern of ectopic pancreas: 22 years of experience in a medical center. *J Formos Med Assoc Taiwan Yi Zhi.* 2008 Dec;107(12):932–6.

13. Chen HL, Lin SC, Chang WH, Yang TL, Chen YJ. Identification of ectopic pancreas in the ileum by capsule endoscopy. *J Formos Med Assoc Taiwan Yi Zhi.* 2007

Mar;106(3):240–3.

14. Monier A, Awad A, Szmigielski W, Muneer M, Alrashid A, Darweesh A, et al. Heterotopic pancreas: a rare cause of ileo-ileal intussusception. *Pol J Radiol.* 2014;79:349–51.

15. Gaspar Fuentes A, Campos Tarrech JM, Fernández Burgui JL, Castells Tejón E, Ruíz Rossello J, Gómez Pérez J, et al. [Pancreatic ectopias]. *Rev Esp Enferm Apar Dig.* 1973 Feb 1;39(3):255–68.

16. Mickuniene R, Stundiene I, Jucaitis T, Valanciene D, Valantinas J. A case of ectopic pancreas in the ileum presenting as obscure gastrointestinal bleeding and abdominal pain. *BMC Gastroenterol.* 2019 Dec;19(1):57.

17. Verma S, Bansal P, Manchanda V, Gupta R. Isolated ileal heterotopic pancreas in a child: A clinically undetected cause of ileoileal intussusception. *Int J Case Rep Images.* 2014;5(2):122.

18. Rezvani M, Menias C, Sandrasegaran K, Olpin JD, Elsayes KM, Shaaban AM. Heterotopic Pancreas: Histopathologic Features, Imaging Findings, and Complications. *Radiogr Rev Publ Radiol Soc N Am Inc.* 2017 Apr;37(2):484–99.