

Клинический случай

© КОЛЛЕКТИВ АВТОРОВ, 2022

УДК 617-089.844

Лохматов М.М.^{1,2}, Солоднина Е.Н.^{3,4}, Дьяконова Е.Ю.¹, Королев Г.А.¹, Будкина Т.Н.¹, Олдаковский В.И.¹, Тупыленко А.В.¹, Ефременков А.М.³, Куликов К.А.¹

Эндоскопическая энуклеация хористомы желудка у ребёнка

¹ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр здоровья детей» Минздрава России, 119991, Москва, Россия;

²ФГАОУ ВО «Первый Московский государственный медицинский университет им. И.М. Сеченова» Минздрава России (Сеченовский Университет), 119991, Москва, Россия;

³ФГБУ «Центральная клиническая больница с поликлиникой» Управления делами Президента РФ, 121359, Москва, Россия;

⁴ФГБОУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Минздрава России, 125993, Москва, Россия

Введение. Доброкачественные опухоли желудка у детей часто представлены округлыми подслизистыми образованиями, покрытыми интактной слизистой оболочкой.

Цель: представить опыт эндоскопической подслизистой диссекции и энуклеации хористомы у ребёнка.

Клинический случай. Девочка 14 лет поступила на стационарное лечение с жалобами на длительный абдоминальный синдром (2 года) и объёмное образование антрального отдела желудка. По данным компьютерной томографии выявлено объёмное мягкотканное образование размерами $8 \times 7 \times 12$ мм в антральном отделе желудка, не накапливающее контрастное вещество. При выполнении ЭГДС и эндосонографии визуализировано подслизистое образование препилорического отдела желудка размером 7×10 мм. Макроскопическая картина опухоли соответствовала лейомиоме желудка. Был сформулирован диагноз: объёмное образование желудка: лейомиома, хористома? Выполнены эндоскопическая подслизистая диссекция и энуклеация образования. По данным морфологического исследования установлено наличие эктопированной ткани поджелудочной железы. Диагноз — хористома желудка.

Заключение. Хористома не всегда имеет «классический» вид с втяжением в центре, а клиническая картина имеет большое значение в верификации образования. Эндоскопическое подслизистое удаление хористомы желудка — малоинвазивный и эффективный метод хирургического лечения, который может применяться у детей.

Ключевые слова: хористома; дети; эндосонография; туннельная энуклеация

Для цитирования: Лохматов М.М., Солоднина Е.Н., Дьяконова Е.Ю., Королев Г.А., Будкина Т.Н., Олдаковский В.И., Тупыленко А.В., Ефременков А.М., Куликов К.А. Эндоскопическая энуклеация хористомы желудка у ребёнка. *Российский педиатрический журнал*. 2022; 25(5): 369–372. <https://doi.org/10.46563/1560-9561-2022-25-5-369-372>

Для корреспонденции: Королев Григорий Алексеевич, науч. сотр. отд-ния эндоскопических исследований ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России, korolevg.a@yandex.ru

Участие авторов: Лохматов М.М., Солоднина Е.Н., Дьяконова Е.Ю. — концепция и дизайн исследования; Королев Г.А., Будкина Т.Н., Олдаковский В.И., Тупыленко А.В., Ефременков А.М. — сбор и обработка материала, написание текста, редактирование текста. Все соавторы — утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Финансирование. Исследование не имело финансовой поддержки.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Поступила 19.08.2022
Принята к печати 20.09.2022
Опубликована 31.10.2022

Maksim M. Lokhmatov^{1,2}, Elena N. Solodina^{3,4}, Elena Yu. Dyakonova¹, Grigoriy A. Korolev¹, Tatyana N. Budkina¹, Vladislav I. Oldakovskiy¹, Artem V. Tupylenko¹, Artem M. Efremenko³, Kirill A. Kulikov¹

Endoscopic enucleation of gastric choristoma in a child

¹National Medical Research Center for Children's Health, Moscow, 119991, Russian Federation;

²First Moscow State Medical University named after I.M. Sechenov (Sechenov University), Moscow, 119991, Russian Federation;

³Central Clinical Hospital with a Polyclinic of the Directorate of the President of the Russian Federation, Moscow, 121359, Russian Federation;

⁴"Russian Medical Academy of Continuous Professional Education" of the Ministry of Healthcare of the Russian Federation, Moscow, 125993, Russian Federation

Introduction. In pediatric practice, one may encounter various volumetric formations of the stomach, both benign and malignant. The verification and localization of the neoplasma is the most difficult issue in everyday work. Most often, benign tumors are represented by a rounded submucosal formation, covered with an intact mucous membrane. The most common formations that can be found in a child are leiomyomas.

Objective is to present the first experience of endoscopic submucosal dissection and enucleation of the choristoma in a child.

Clinical observation. The girl was admitted for inpatient treatment with complaints of prolonged (2 years) abdominal syndrome and mass formation of the antrum of the stomach. According to CT data, a voluminous soft tissue formation $8 \times 7 \times 12$ mm in size

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

was revealed in the antrum of the stomach, which does not accumulate a contrast agent. When performing esophagogastroduodenoscopy and endosonography, a submucosal formation of the prepyloric stomach was visualized, with dimensions of 7×10 mm. The macroscopic picture of the tumor corresponded to gastric leiomyoma. However, given the clinical picture, it was impossible to exclude the choroid stomach. Thus, the diagnosis was formulated: volumetric formation of the stomach. Leiomyoma? Choristoma? In the course of further treatment, surgical treatment was performed, in the amount of submucosal enucleation of the formation. According to the morphological study, the remote formation corresponded to the ectopic pancreatic tissue.

Conclusion. Choristoma does not always have a “classic” appearance with retraction in the center, and the clinical picture is of great importance in the verification of neoplasma. Endoscopic submucosal removal of gastric choristoma is a minimally invasive and effective method of surgical treatment that can be used in children.

Keywords: *choristoma; children; endosonography; tunnel enucleation*

For citation: Lokhmatov M.M., Solodina E.N., Dyakonova E.Yu., Korolev G.A., Budkina T.N., Oldakovskiy V.I., Tupylenko A.V., Efremkov A.M., Kulikov K.A. Endoscopic enucleation of gastric choristoma in a child. *Rossiyskiy Pediatricheskiy Zhurnal (Russian Pediatric Journal)*. 2022; 25(5): 369–372. (In Russian). <https://doi.org/10.46563/1560-9561-2022-25-5-369-372>

For correspondence: **Grigory A. Korolev**, Researcher, Department of Endoscopy, National Medical Research Center for Children's Health, Moscow, 119991, Russian Federation korolevg.a@yandex.ru

Contribution: Lokhmatov M.M., Solodina E.N., Dyakonova E.Yu. — the concept and design of the study; Korolev G.A., Budkina T.N., Oldakovskiy V.I., Tupylenko A.V., Efremkov A.M. — collection and processing of material, writing the text, editing the text. All co-authors — approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

The study protocol was approved by the local ethics committee. The patients' parents gave written voluntary informed consent to participate in the study.

Information about the authors:

Lokhmatov M.M., <https://orcid.org/0000-0002-8305-7592>
Solodina E.N., <https://orcid.org/0000-0002-5462-2388>
Dyakonova E.Yu., <https://orcid.org/0000-0002-8563-6002>
Korolev G.A., <https://orcid.org/0000-0001-5730-3684>
Budkina T.N., <https://orcid.org/0000-0002-7379-7298>

Oldakovskiy V.I., <https://orcid.org/0000-0002-8805-8164>
Tupylenko A.V., <https://orcid.org/0000-0003-4299-3269>
Efremkov A.M., <https://orcid.org/0000-0002-5394-0165>
Kulikov K.A., <https://orcid.org/0000-0002-1107-8693>

Acknowledgment. The study had no sponsorship.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Received: August 19, 2022
Accepted: September 20, 2022
Published: October 31, 2022

Среди доброкачественных опухолей у детей встречаются лейомиомы (мезенхимальные гладкомышечные образования), липомы (мезенхимальные образования, берущие начало из адипоцитов), эктопированная ткань поджелудочной железы (ПЖ) — хористомы. Злокачественные новообразования чаще представлены гастроинтерстициальными опухолями мезенхимального происхождения, лейосаркомами (мезенхимальное образование, развивающееся из адипоцитов) [1, 2]. Сложным вопросом в повседневной работе являются верификация и локализация новообразования. Чаще всего доброкачественные опухоли представлены округлыми подслизистыми образованиями, покрытыми интактной слизистой оболочкой с бессимптомным течением. Реже клиническая картина неспецифична: отмечаются изъязвление и кровотечение, хроническая боль в животе, чувство тяжести, периодическая рвота, однако данная картина может развиваться и на фоне сопутствующих заболеваний, таких как гастроэзофагеальный рефлюкс, эрозивный гастродуоденит и др. [3–6]. В педиатрической практике большинство новообразований желудка являются случайной находкой. Опухоли обнаруживаются при рентгеноконтрастных исследованиях или при выполнении эзофагогастродуоденоскопии (ЭГДС). Обычно лейомиомы и хористомы имеют ряд особенностей и трудности при дифференциальной диагностике не возникают. Одним из эффективных методов диагностики, позволяющим определить слой, из которого образование берет начало и где располагается, является эндоскопическое ультразвуковое исследование (эндосонография). В повседневной практике также широко применяются компьютерная томография и магнитно-резонансная томография [6–8].

В детском возрасте две трети доброкачественных образований пищевода и желудка — лейомиомы, которые относятся к медленно растущим мезенхимальным опухолям с низким злокачественным потенциалом [1, 7]. Аберрантная ПЖ (хористомы) считается редким пороком развития [5]. Хористомы представляют собой узел хорошо дифференцированной ткани ПЖ, не имеющей сообщения с самой железой. Эктопированная ПЖ может располагаться под слизистой оболочкой или брать свое начало из гладкомышечного слоя. Чаще всего её можно обнаружить в желудке или в дивертикуле Меккеля, она может присутствовать и в пищеводе, тонкой кишке, аппендиксе. У детей данная аномалия практически всегда протекает бессимптомно, но встречается болевая форма, которая сопровождается хроническим абдоминальным синдромом и требует оперативного лечения [6–9]. Как правило, лейомиомы и хористомы имеют ряд макроскопических особенностей, и обычно трудностей при дифференциальной диагностике не возникает. Так, лейомиома представляет собой округлое плотное образование, покрытое интактной слизистой оболочкой, хористомы же чаще всего выглядят как округлые полиповидные образования с втяжением в центре [6, 7]. Хористомы небольших размеров, не дающих клинической симптоматики, не подлежат удалению и наблюдаются в динамике. Предпочтение отдаётся лапаротомическому или лапароскопическому удалению. Однако всё чаще стали публиковаться работы с данными эндоскопической туннельной энуклеации опухоли [6, 7]. В связи с этим **цель** нашей работы — представить опыт эндоскопической подслизистой диссекции и энуклеации хористомы у ребёнка.

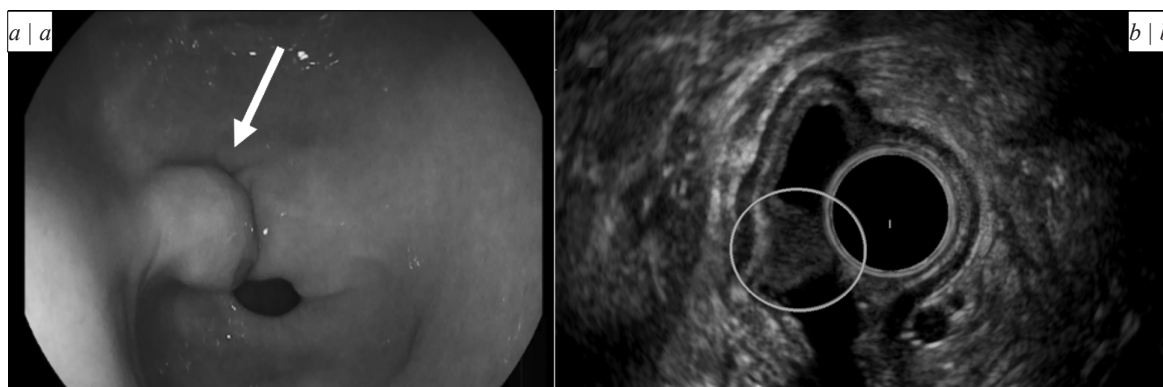


Рис. 1. Эндоскопическая и эндосонографическая картина образования желудка.

a — эндоскопическая картина объёмного образования антрального отдела желудка диаметром до 1 см, покрытого интактной слизистой оболочкой; *b* — эндосонографическая картина гипоехогенного образования с чёткими контурами.

Fig. 1. Endoscopic and endosonographic picture of the formation of the stomach.

a — endoscopic image of a volumetric formation of the antrum of the stomach with a diameter of up to 1 cm, covered with an intact mucous membrane; *b* — endosonographic image of a hypoechoic formation with clear contours.

Описание клинического случая

Девочка 14 лет находилась на стационарном лечении с жалобами на периодическую тошноту, боли в животе и снижение аппетита. Из анамнеза установлено, что в 2019 г. она находилась на лечении по месту жительства с описанными выше жалобами. При выполнении ЭГДС выявлено полиповидное образование антрального отдела желудка, хронический *H. pylori*-ассоциированный гастрит. Получала эрадикационную терапию с незначительным положительным эффектом. В августе 2021 г. была выполнена мультиспиральная компьютерная томография с внутривенным контрастированием, по данным которой накопления контрастного вещества в образовании не было. Для определения дальнейшей тактики лечения девочка была госпитализирована в мае 2022 г. в НМИЦ здоровья детей Минздрава РФ.

При осмотре общее состояние средней тяжести. Масса тела 58,7 кг. Рост стоя 167 см. Состояние питания соответствует возрасту. Кожные покровы обычной окраски, умеренной влажности. *Acne vulgaris* на лице, груди, спине. Слизистые оболочки чистые. Подкожная клетчатка развития удовлетворительно, распределена равномерно. Периферические лимфатические узлы не увеличены. Костная система: выраженных деформаций нет. Органы дыхания: носовое дыхание свободное. В лёгких дыхание везикулярное, проводится во все отделы, хрипов нет. ЧД — 18 в минуту. SpO₂ — 98%. Органы кровообращения: область сердца визуально не изменена. Тоны сердца звучные, ритмичные. ЧСС 77 уд/мин, АД 112/70 мм рт. ст. Органы пищеварения: живот не вздут, при пальпации мягкий, умеренно болезненный в эпигастрии. Печень у края рёберной дуги. Селезёнка не пальпируется. Стул регулярный, оформленный. Мочеполовая система: наружные половые органы сформированы по женскому типу; мочится регулярно, моча светлая. Нервная система: менингеальных знаков нет; органы чувств: без видимой патологии.

Девочке было проведено комплексное обследование. Данные лабораторных анализов — в пределах референсных значений. Выполнена компьютерная томография с внутривенным контрастированием. Выявлено объёмное

мягкотканное образование размером 8 × 7 × 12 мм в антральном отделе желудка, не накапливающее контрастное вещество.

Девочке проведена ЭГДС. При осмотре желудка слизистая оболочка во всех отделах — розовая. В препилорическом отделе на 5 мм от привратника по передней стенке визуализируется подслизистое (субэпителиальное) образование полушаровидной формы, слизистая оболочка на его поверхности не отличается от окружающей слизистой с гиперемией и эрозией (до 3 мм) на верхушке. При эндосонографии визуализировалось гипоехогенное образование с неоднородной структурой, с ровным, чётким контуром, округлой формы размером 7 × 10 мм, предположительно исходящее из II (собственная мышечная пластинка слизистой оболочки) или III (подслизистая основа) слоёв, растущее в просвет. Заключение по данным ЭГДС: подслизистое образование препилорического отдела желудка, размеры 7 × 10 мм, эрозированное (лейомиома?, хористома?), умеренно деформирующее препилорический отдел. Дистальный катаральный эзофагит. Незначительно утолщённая складка в кардиоэзофагеальном переходе. Маленькие очаги гетеротопии слизистой оболочки желудка в верхней трети пищевода (**рис. 1**).

Эндоскопическая и эндосонографическая картина образования соответствовала картине лейомиомы антрального отдела желудка. Однако мезенхимальное образование таких размеров крайне редко вызывает болевой синдром. Учитывая длительный анамнез и клиническую картину, образование, возможно, является aberrантной ПЖ антрального отдела желудка. Исходя из данных обследования и клинической картины был сформулирован диагноз: доброкачественное неverified объёмное образование антрального отдела желудка. Лейомиома антрального отдела желудка? Эктопированная ткань ПЖ в антральном отделе желудка?

Далее было принято решение о хирургическом лечении. Больной были выполнены эндоскопическая туннельная диссекция и энуклеация новообразования в пределах здоровых тканей. В послеоперационном периоде пациентка получала антибактериальную, антисекреторную и инфузионную терапию. Послеоперационный

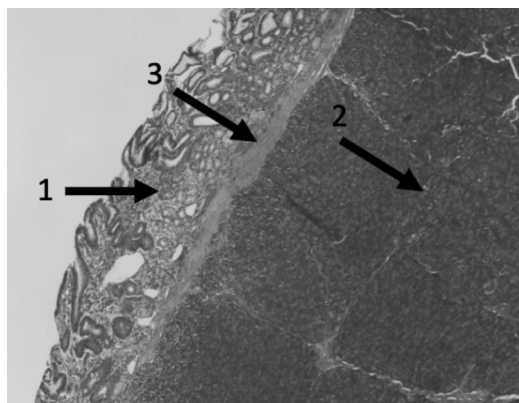


Рис. 2. Морфологическая картина эктопированной ткани ПЖ антрального отдела желудка.

1 — слизистая оболочка желудка; 2 — эктопированная ткань ПЖ; 3 — подслизистый слой.

Fig. 2. Morphological picture of ectopic pancreatic tissue of the gastric antrum.

1 — mucous membrane of the stomach; 2 — ectopic tissue of the pancreas; 3 — submucosal layer.

период протекал без осложнений, и на 5-е сутки после удаления опухоли больная была выписана.

По данным морфологического исследования в подслизистой основе стенки желудка выявлена ткань ПЖ. В собственной пластинке слизистой оболочки — лимфо-плазмочитарная инфильтрация с лимфатическими фолликулами. Данное заключение подтвердило диагноз — гетеротопированная ПЖ (рис. 2).

Обсуждение

Несмотря на то что эндоскопическая и эндосонографическая картина новообразования у девочки больше соответствовала лейомиоме желудка, клиническая картина и длительный абдоминальный синдром не соответствовали данному диагнозу. Эндосонографически хористомы представляет собой гетерогенное образование, часто пониженной или смешанной эхогенности с мелкими гиперэхогенными включениями (может напоминать структуру паренхимы ПЖ по типу «соли с перцем»). Иногда может определяться анэхогенная протоковая структура в основании образования [10].

Лейомиома эндосонографически представляет собой гипоехогенное образование с ровным контуром, исходящее из II или IV эхослоев. Имеет однородную эхоструктуру, редко визуализируются кальцинаты [11]. Следует отметить, что эндоскопически хористомы не всегда имеют классический вид. В связи с этим пришлось проводить дифференциальную диагностику между лейомиомой и хористомой. Окончательный диагноз можно установить только после проведения морфологического исследования.

Наш опыт свидетельствует о том, что эндоскопическая внутрислизистая диссекция и энуклеация новообразования — эффективный малоинвазивный метод удаления опухолей желудка у детей. Данный метод может применяться у детей с симптоматическими хористомами. Эндоскопическое удаление исключает необходимость вскрытия брюшной полости, тем самым минимизирует послеоперационные осложнения и уменьшает срок пребывания пациента в стационаре.

Литература

(п.п. 1–4; 6–11 см. References)

5. Сварич В.Г., Лисицын Д.А., Ислентьев Р.Н., Перевозчиков Е.Г., Каганцов И.М. Особенности диагностики и лечения хористомы желудка у детей. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2018; 8(2): 70–4. <https://doi.org/10.30946/2219-4061-2018-8-2-70-74>

References

1. Okanou S., Iwamuro M., Tanaka T., Satomi T., Hamada K., Sakae H., et al. Scoring systems for differentiating gastrointestinal stromal tumors and schwannomas from leiomyomas in the stomach. *Medicine (Baltimore)*. 2021; 100(40): e27520. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000027520>
2. Kohli D.R., Faigel D.O. Esophageal leiomyomas: Making mole hills out of mole hills? *Gastrointest. Endosc.* 2018; 87(2): 378–9. <https://doi.org/10.1016/j.gie.2017.08.028>
3. Federici S., Ceccarelli P.L., Bernardi F., Tassinari D., Zanetti G., Tani G., et al. Esophageal leiomyomatosis in children: report of a case and review of the literature. *Eur. J. Pediatr. Surg.* 1998; 8(6): 358–63. <https://doi.org/10.1055/s-2008-1071233>
4. Prenzel K.L., Schäfer E., Stippel D., Beckurts K.T., Hölscher A.H. Multiple giant leiomyomas of the esophagus and stomach. *Dis. Esophagus*. 2006; 19(6): 504–8. <https://doi.org/10.1111/j.1442-2050.2006.00612.x>
5. Svarich V.G., Lisitsyn D.A., Islent'ev R.N., Perevozchikov E.G., Kagantsov I.M. Features of diagnosis and treatment of gastric horistoma in children. *Rossiyskiy vestnik detskoy khirurgii, anesteziologii i reanimatologii*. 2018; 8(2): 70–4. <https://doi.org/10.30946/2219-4061-2018-8-2-70-74> (in Russian)
6. Seddon K., Stringer M.D. Gastric heterotopic pancreas in children: A prospective endoscopic study. *J. Pediatr. Surg.* 2020; 55(10): 2154–8. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2019.10.053>
7. Mathew G., Osueni A., Carter Y.M. Esophageal Leiomyoma. *StatPearls*. 2022. Available at: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK459298>
8. Ogata H., Oshio T., Ishibashi H., Takano S., Yagi M. Heterotopic pancreas in children: review of the literature and report of 12 cases. *Pediatr. Surg. Int.* 2008; 24(3): 271–5. <https://doi.org/10.1007/s00383-007-2098-0>
9. 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; 45(1): 142. <https://doi.org/10.1186/s13052-019-0738-3>
10. Flores A., Papafragkakis C., Uberoi A.S., Thaiudom S., Bhutani M.S. EUS of an atypical ectopic pancreas. *Endosc. Ultrasound*. 2018; 7(3): 216–7. <https://doi.org/10.4103/eus.eus.111.17>
11. Xu G.Q., Zhang B.L., Li Y.M., Chen L.H., Ji F., Chen W.X., et al. Diagnostic value of endoscopic ultrasonography for gastrointestinal leiomyoma. *World J. Gastroenterol.* 2003; 9(9): 2088–91. <https://doi.org/10.3748/wjg.v9.i9.2088>

Сведения об авторах:

Лохматов Максим Михайлович, доктор мед. наук, зав. отд-нием эндоскопических исследований ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России; проф. каф. детской хирургии, урологии и уроандрологии ФГАУ ВО «Первый МГМУ им. И.М. Сеченова» Минздрава России (Сеченовский Университет), lokhmatov@mail.ru; **Солоднин Елена Николаевна**, доктор мед. наук, зав. эндоскопическим отд-нием ФГБУ «ЦКБ с поликлиникой» УДП РФ, solodninina@gmail.com; **Дьяконова Елена Юрьевна**, доктор мед. наук, гл. науч. сотр., врач – детский хирург хирургического отд-ния неотложной и плановой помощи ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России, Doctor-help03@yandex.ru; **Будкина Татьяна Николаевна**, канд. мед. наук, врач-эндоскопист, ст. науч. сотр. отд-ния эндоскопических исследований ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России, tatyana-budkina@mail.ru; **Олдаковский Владислав Игоревич**, врач-эндоскопист отд-ния эндоскопических исследований ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России, oldakovskiy@nczd.ru; **Тупыленко Артём Викторович**, канд. мед. наук, ст. науч. сотр. отд-ния эндоскопических исследований ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России, tupylenko.av@nczd.ru; **Ефремов Артём Михайлович**, канд. мед. наук, зав. отд-нием детской хирургии ФГБУ «ЦКБ с поликлиникой» УДП РФ, ассистент каф. детской хирургии им. акад. С.Я. Долецкого ФГБОУ ДПО РМАНПО Минздрава России, efremart@yandex.ru; **Куликов Кирилл Алексеевич**, зав. патологоанатомическим отд-нием, врач-патологоанатом ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России, 04qwer@mail.ru