

doi: 10.3978/j.issn.2095-6959.2018.10.035

View this article at: <http://dx.doi.org/10.3978/j.issn.2095-6959.2018.10.035>

· 临床病例讨论 ·

## 十二指肠腺腺瘤致十二指肠肠套叠 1 例并文献复习

王斐倩<sup>1</sup>, 阮骊韬<sup>1</sup>, 杜永浩<sup>2</sup>

(西安交通大学第一附属医院 1. 超声影像科; 2. 医学影像科, 西安 710061)

**[摘要]** 患者, 女, 32岁, 因“慢性间断性上腹痛”于西安交通大学第一附属医院就诊, 先后进行胃镜、超声、全消化道造影、CT等检查, 手术病理诊断为罕见的“十二指肠腺腺瘤所致肠套叠”。本文详细介绍了该病例的诊断过程, 就该病特点予以综述, 旨在提高影像和临床医生对该少见病的认识和诊断水平。

**[关键词]** 肠套叠; 腺瘤; 十二指肠

## Duodenal intussusception caused by Brunner's gland adenoma: A case report and literature review

WANG Feiqian<sup>1</sup>, RUAN Litao<sup>1</sup>, DU Yonghao<sup>2</sup>

(1. Department of Ultrasound; 2. Department of Radiology, First Affiliated Hospital of Xi'an Jiaotong University, Xi'an Shaanxi 710061)

**Abstract** A 32-year-old female patient with intermittent upper abdominal pain was admitted to the hospital. Gastroscopy, sonography, gastrointestinal contrast, CT scan and other examinations were performed successively. The pathological diagnosis of surgical resection sample was “duodenal intussusception caused by duodenal adenoma”. Here we detailed the diagnosing process of this case, and came up with a characteristic summary of the disease, aiming at improving the awareness and diagnosing capacity among radiologists and clinicians for this rare disease.

**Keywords** intussusception; adenoma; duodenum

十二指肠腺腺瘤所致的肠套叠在临床上十分少见, 患者症状不典型, 术前检查容易误诊漏诊。笔者报告1例十二指肠腺腺瘤肠套叠患者完整的病史、诊治资料, 并对该病的特征进行总结, 对其诊断难点进行分析。

### 1 临床资料

患者, 女, 32岁, 以“间断上腹部疼痛不适3个月”入院。患者于2013年10月无明显诱因出现上腹部疼痛不适, 症状轻微, 不向肩背部放射,

收稿日期 (Date of reception): 2018-07-14

通信作者 (Corresponding author): 王斐倩, Email: wangfeiqian@126.com

基金项目 (Foundation item): 中央高校基本科研业务费专项基金 (1191329732)。This work was supported by the Fundamental Research Funds for the Central Universities, China (1191329732).

伴有恶心、呕吐、返酸、烧心等不适,无发热、寒战,无皮肤及巩膜黄染,无尿频、尿急。自发病以来,体重减轻4 kg。一般查体无异常。专科检查示:腹部柔软,无压痛、反跳痛。上腹部可触及一大大小约4 cm×4 cm×3 cm的质韧包块,边界尚清,无明显压痛。实验室检查示:血红蛋白78 g/L,凝血、大便常规阴性。

电子胃镜示:反流性食管炎,幽门前区改变,十二指肠球部变形,扩大,表面黏膜光软,于球至降部见一巨大隆起套入十二指肠,其顶部黏膜红肿,轻度糜烂,提示十二指肠病变,考虑为巨大息肉。胃镜病理活检提示:十二指肠降段小块黏膜慢性炎(图1)。

腹部超声示:脾下方探及一大大小约46 mm×59 mm的实性包块,左缘边界清,右缘与肠管分界不清,其内可探及从肠系膜进入的丰富的分支状血流信号。该包块右侧十二直肠水平部管腔内可探及套入的肠管回声,呈明显“靶环”征。饮水后,胰头左侧十二指肠降部内可探及较多液性暗区,蠕动活跃。超声诊断示:左季肋区肠源性实性占位继发十二指肠肠套叠(图2)。

全消化道造影示:十二指肠及空肠上段黏膜粗大、紊乱,十二指肠降段及水平段外压性改

变。1个月前行全消化道造影示:1)十二指肠近段为一盲端,未见明确十二指肠球结构,胃与十二指肠水平段侧壁相通,多考虑发育异常可能;十二指肠升段、空肠上段走行迂曲。2)空肠上段较大不规则充盈缺损,局部黏膜皱襞消失,考虑实性占位(图3)。

上腹部增强CT示:十二指肠及空肠上段普遍扩张,十二指肠降段及水平段内横行黏膜皱襞,考虑肠套叠(图4)。

手术所见:大网膜与胃窦、十二指肠粘连;屈氏韧带远端之空肠以及十二指肠整体明显扩张,直径约7 cm,肠腔内可触及一活动性肿块,大小约6 cm×5 cm×4 cm,质地中等,可在空肠近端、十二指肠腔内自由移动。肿块蒂部位于十二指肠球部,由于肿块牵拉致胃窦部、十二指肠球部轻度逆时针旋转,活动度很大,并时而套入十二指肠降部、水平部、升部及空肠近端,时而松解(将肿块还纳至十二指肠球部,并于十二指肠球前壁纵向打开进入肠腔,将肿块完全翻出)。可见肿瘤蒂部位于十二指肠球部上后壁,基底短、直径约1.2 cm(图5A)。病理诊断:十二指肠球部十二指肠腺腺瘤(图5B)。

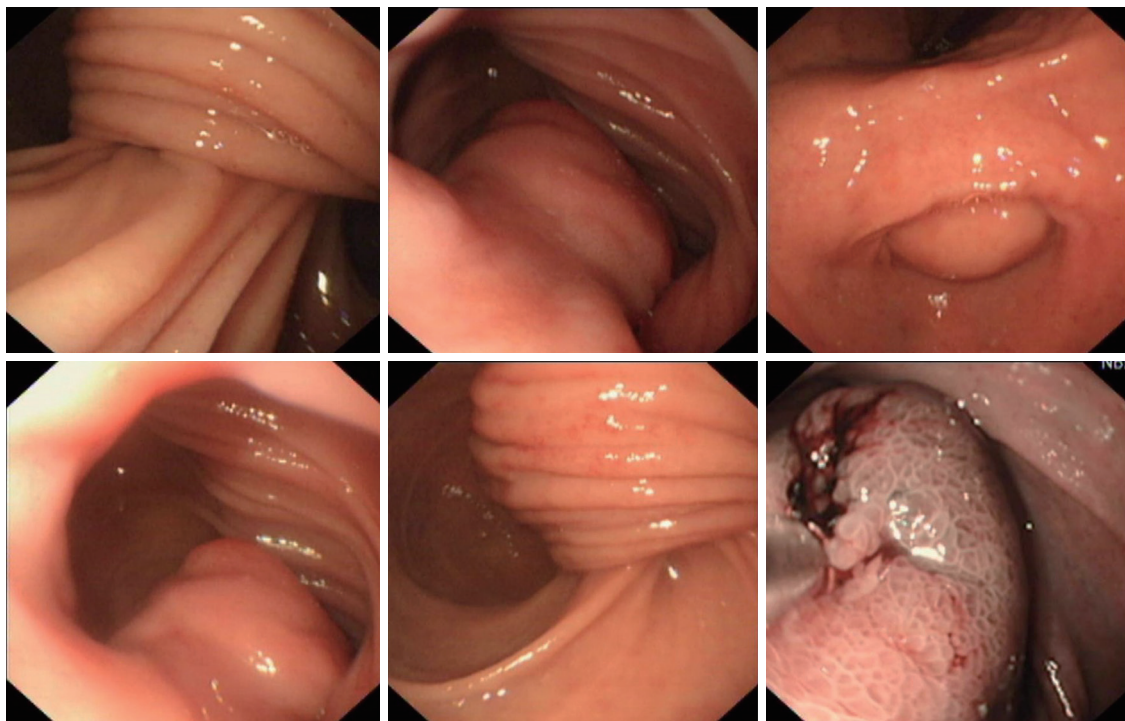


图1 电子胃镜检查

Figure 1 Electronic gastroscope

手术方式：十二指肠腺瘤切除、十二指肠修补、肠粘连松解术。术后患者情况：术后 9 d 出院。出院时，血红蛋白 107 g/L，腹痛、腹部包块

消失。出院 3 个月后电话随访：体重增加 4 kg，恢复到起病前体重，血红蛋白 115 g/L。未再有腹痛发作。

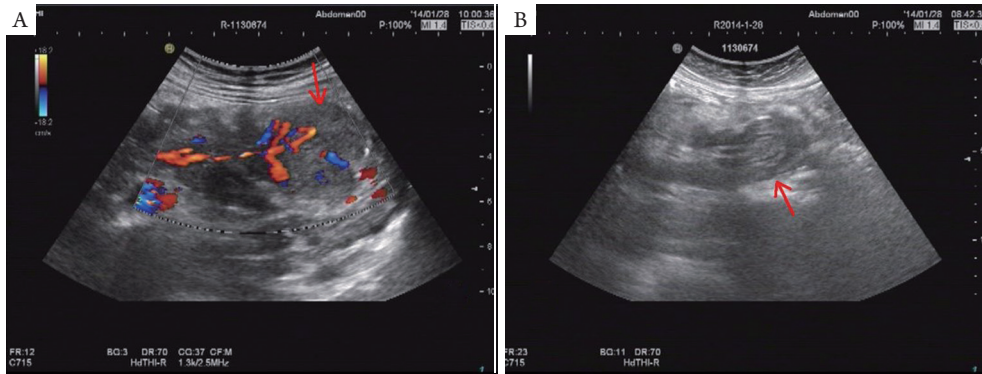


图2 腹部超声，箭头示实性包块

Figure 2 Abdominal ultrasonography and arrows showed solid mass

(A)彩色多普勒超声：包块内可见较丰富的树枝状肠系膜血供；(B)套叠部的“套筒”征，外部为双层肠管组成的套鞘，内部为套入的为高回声的十二指肠系膜及稍低回声的包块。

(A) Color Doppler ultrasound showed abundant blood flow from the mesenteric vessels in the mass; (B) “Sleeve” sign of the intussusception had internal and external components. The exterior was intussusceptions with double-layered intestine, while the interior was comprised of a high echo region composed of duodenal mesentery and a slightly hypoechoic mass.

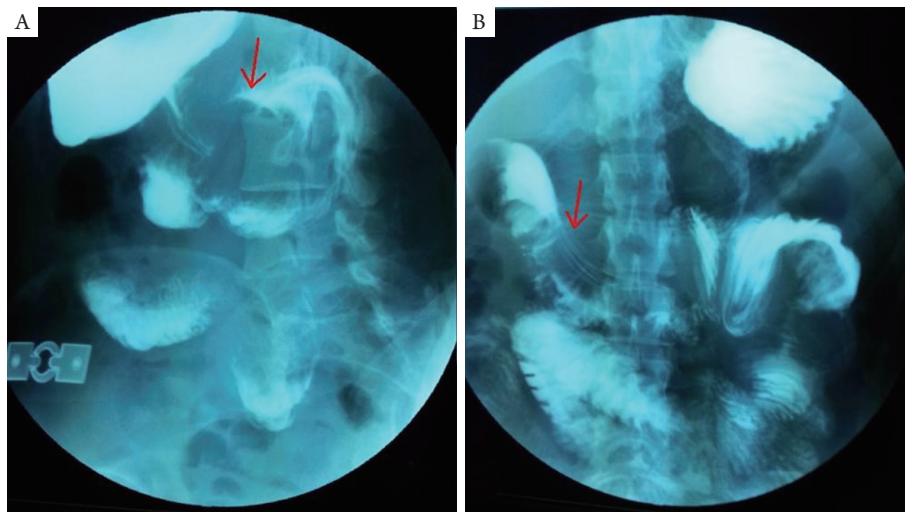


图3 全消化道造影

Figure 3 Full gastrointestinal contrast

(A)箭头示圆形、均质、边缘光滑的充盈缺损；(B)箭头示十二指肠“C”型弧度消失，可见胃幽门管套入十二指肠。

(A) Arrow shows a round, homogeneous, smooth-margins filling defect; (B) Arrow shows the “C” type curvature of the duodenum disappeared, and gastric pyloric tube inserted into the duodenum.

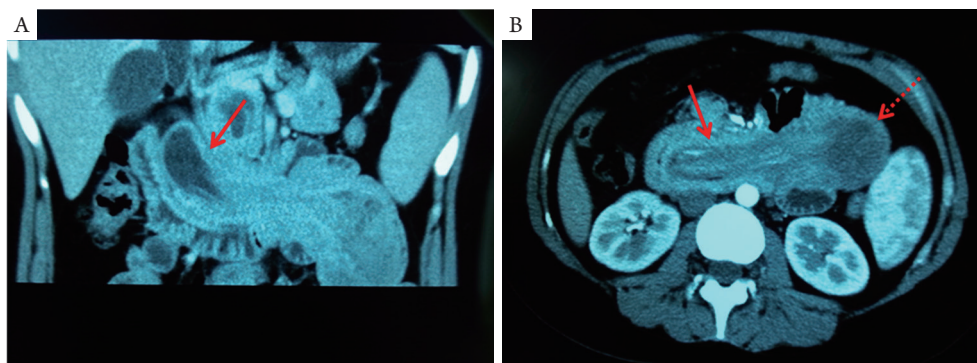


图4 上腹部增强CT

Figure 4 Spiral CT epigastric enhancement scanning

(A)冠状位; (B)动脉期轴位。实线箭头: 套入部; 虚线箭头: 轻度强化的包块为十二指肠腺瘤。

(A) Coronal imaging; (B) Axial position of the arterial phase. Solid arrow: intussusceptum; dotted arrow: Brunner's adenoma with a slightly fortified mass.

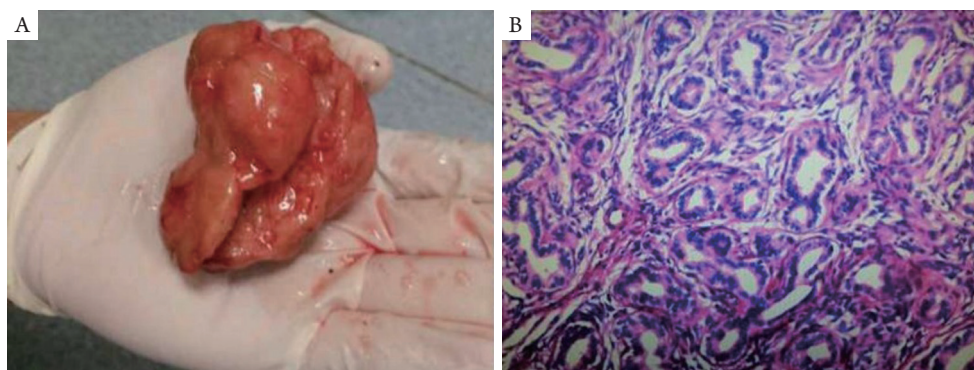


图5 肿块大体标本和镜下特征

Figure 5 Macroscopic description of the mass and microscopic features

(A)瘤结表面附黏膜组织, 呈灰粉色, 光滑, 切面呈灰粉色, 分叶状, 质软; (B)镜下见十二指肠腺腺体呈小叶状增生, 并有纤维分隔, 肿瘤细胞呈腺管状排列(HE,  $\times 10$ )。

(A) The surface of the mass was covered with mucosal tissue, which was grayish pink and smooth, and the cut surface was grayish pink, lobulated, and soft; (B) Microscopically, lobular hyperplasia of duodenal gland was separated by fibrous septa. The tumor cells were arranged in a glandular tube (HE,  $\times 10$ ).

### 3 讨论

十二指肠腺瘤, 又称“Brunner腺瘤(Brunner gland adenoma)”“布氏腺错构瘤(Brunner's gland hamartoma)”, 1935年由Curveiheir首次报道<sup>[1]</sup>。在英文文献报道的200多例Brunner腺瘤及综述中, 其特点如下。1)产生机制: 十二指肠腺主要分布在十二指肠球部和近端十二指肠。因这些部位离胃窦部较近, 容易受到胃酸的侵蚀。但十二指肠腺的Brunner's腺体受植物性神经和激素的刺激, 能分泌出一种黏液物质来对抗胃酸侵蚀十二指肠黏膜<sup>[2]</sup>。十二指肠Brunner腺瘤是由于机体的胃酸过

度分泌引起的机体保护性增生, 是一种罕见的原发性十二指肠良性肿瘤或瘤样增生。尚未检索到该疾病的恶变报道。2)形态及流行病学: 肿瘤体积较小, 通常小于2 cm, 无蒂或由黏膜和黏膜下组织形成蒂, 无明显包膜, 呈息肉状突向肠腔。像本例这样6 cm $\times$ 5 cm $\times$ 4 cm的大腺瘤罕见。肿瘤好发于中老年, 无性别倾向。有家族性腺瘤息肉病的人群高发<sup>[3]</sup>。3)临床症状及诊断方法: 该病的临床表现缺乏特征性、并发症多样, 实验室检查容易误、漏诊。患者可有非特异性上腹部不适, 胃肠道出血或幽门梗阻等症状。但许多病例无任何症状。Siow等<sup>[4]</sup>认为因为该病症状不典型, 术前难以

同壶腹周围癌鉴别。本例患者的症状亦不明显, 表现为上腹部隐痛, 可完全缓解, 不影响正常工作、睡眠。该病(尤其是巨大腺瘤)的并发症多样, 有肠腔梗阻<sup>[2]</sup>、胃出口梗阻<sup>[5]</sup>和肠源性急性胰腺炎<sup>[6]</sup>、胆汁淤<sup>[7]</sup>。术前常用检查方法包括内窥镜、超声、消化道造影和CT。由于肿块表面背覆完整黏膜, 且活检的取材深度比较表浅, 内窥镜时的活检难以达到黏膜下层的肿瘤组织<sup>[8]</sup>, 故内窥镜检查常难以筛查出Brunner腺瘤, 而以胃炎、胃溃疡或十二指肠球部炎误诊。患者多因经过抑酸治疗后症状时好时转、时而反复而再次就诊<sup>[9]</sup>。4)治疗: 有症状的患者, 需要外科手术切除。手术过程无复杂性及难度, 尚未检索到术后再发的报道。但对于无明显症状的十二指肠腺腺瘤是否需要手术还有争议<sup>[10]</sup>。

因十二指肠固定在后腹膜, 移动性小, 故十二指肠较少发生肠套叠。十二指肠肠套叠常为单发, 分为原发性和继发性。肿瘤是原发性十二指肠肠套叠的主要原因, 但十二指肠腺腺瘤引起的肠套叠极其罕见。十二指肠套叠的发病机制可能为炎症刺激引起肠功能紊乱, 炎症刺激和十二指肠悬韧带松弛诱发肠管运动失调<sup>[3]</sup>。

在总结了十二指肠腺腺瘤和十二指肠肠套叠的特点后, 以下几点诊断过程中的疑问可以得到部分解释: 1)术前未明确诊断的原因。因为十二指肠腺腺瘤和十二指肠肠套叠均为少见病, 两者同时出现更为罕见, 而且患者临床症状轻, 是导致本病术前所有影像学方法均未确诊的主要原因。2)患者消化道症状不明显的原因。小肠的肠套叠部位较高, 对大便的影响较小, 所以该患者无排便习惯和性状的改变。3)短时间内2次全消化道造影结果不同的原因(首次诊断为十二指肠外压性改变, 1个月后诊断为发育不良及占位)。自发病到手术, 病程4个月, 但手术中并没有发现套叠部的十二指肠、胃窦部有明显的缺血、坏死征象, 术中发现套叠较松, 时而套入、时而自行松解, 充分说明患者为可逆性慢性套叠。因此考虑在不同的观察时间, 可能会观察到套叠或松解的不同肠道表现。4)患者贫血

的原因(血红蛋白78 g/L)。手术后患者贫血情况得到改善, 故考虑贫血是由本病造成。B超检查发现饮水后胰头左侧十二指肠降部内有较多液性暗区聚集, 蠕动活跃。手术中发现肿块牵拉胃窦部轻度扭转, 均提示胃出口梗阻。考虑是巨大十二指肠腺腺瘤导致胃出口梗阻, 造成慢性胃出血。

## 参考文献

1. Brookes MJ, Manjunatha S, Allen CA, et al. Malignant potential in a Brunner's gland hamartoma[J]. *Postgrad Med J*, 2003, 79(933): 416-417.
2. Rocco A, Borriello P, Compare D, et al. Large Brunner's gland adenoma: case report and literature review[J]. *World J Gastroenterol*, 2006, 12(12): 1966-1968.
3. Neogi P, Misra A, Agrawal R. Duodenal adenoma presenting as duodenojejunal intussusception[J]. *Acta Biomed*, 2008, 79(2): 137-139.
4. Siow SL, Sim NK. Chronic rectal bleeding in Proteus syndrome[J]. *Med J Malaysia*, 2010, 65(4): 313-314.
5. Pandey A, Chandra A, Wahal A. Brunneroma with duodenojejunal intussusception: a rare cause of gastric outlet obstruction[J]. *BMJ Case Rep*, 2013: 2013.
6. Watanabe F, Noda H, Okamura J, et al. Acute pancreatitis secondary to duodenojejunal intussusception in duodenal adenoma[J]. *Case Rep Gastroenterol*, 2012, 6(1): 143-149.
7. Hedges AR. Hamartoma of Brunner's gland causing pyloric obstruction and a biliary fistula. Case report[J]. *Acta Chir Scand*, 1988, 154(7/8): 475-476.
8. Gourtsoyiannis NC, Zarifi M, Gallis P, et al. Radiologic appearances of Brunner's gland adenoma: a case report[J]. *Eur J Radiol*, 1990, 11(3): 188-190.
9. Gao YP, Zhu JS, Zheng WJ. Brunner's gland adenoma of duodenum: a case report and literature review[J]. *World J Gastroenterol*, 2004, 10(17): 2616-2617.
10. Iusco D, Roncoroni L, Violi V, et al. Brunner's gland hamartoma: "over-treatment" of a voluminous mass simulating a malignancy of the pancreatic-duodenal area[J]. *JOP*, 2005, 6(4): 348-353.

本文引用: 王斐倩, 阮骊韬, 杜永浩. 十二指肠腺腺瘤致十二指肠肠套叠1例并文献复习[J]. *临床与病理杂志*, 2018, 38(10): 2265-2269. doi: 10.3978/j.issn.2095-6959.2018.10.035

Cite this article as: WANG Feiqian, RUAN Litao, DU Yonghao. Duodenal intussusception caused by Brunner's gland adenoma: A case report and literature review[J]. *Journal of Clinical and Pathological Research*, 2018, 38(10): 2265-2269. doi: 10.3978/j.issn.2095-6959.2018.10.035