

Хирургические аспекты целиакии

А.Р. Шакирова^{1,2}, А.А. Камалова³, Р.Я. Яфясов¹, Р.А. Низамова¹¹ГАУЗ «Детская республиканская клиническая больница» Минздрава Республики Татарстан, г. Казань, Россия;²Казанская государственная медицинская академия – филиал ФГОУ ДПО РМАНПО Минздрава России, г. Казань, Россия;³ФГБОУ ВО «Казанский государственный медицинский университет» Минздрава РФ, г. Казань, Россия

Surgical Aspects of Celiac Disease

A.R. Shakirova^{1,2}, A.A. Kamalova³, R.Ya. Yafasov¹, R.A. Nizamova¹¹Children's Republican Clinical Hospital of Tatarstan Republic, Kazan, Russia;²Kazan State Medical Academy – branch of the Russian Medical Academy of Post-Graduate Education, Kazan, Russia;³Kazan State Medical University, Kazan, Russia

В доступной литературе имеются публикации, касающиеся ассоциации целиакии с инвагинацией и кишечной непроходимостью у взрослых. Хотя инвагинация является наиболее распространенной причиной непроходимости кишечника у детей, она редко рассматривается в связи с целиакией. Представлены клинические случаи редкой манифестации целиакии острой хирургической патологией – острой кишечной непроходимостью, обусловленной инвагинацией кишечника, и обтурационной непроходимостью кишечника. Дети с инвагинацией без установленной этиологии должны быть обследованы на предмет целиакии, особенно когда у них имеются соответствующие симптомы – замедление роста, анемия, вздутие живота, увеличение уровня трансаминаз и другие проявления целиакии, а также, если возраст ребенка не совсем характерен для манифестации инвагинации.

Ключевые слова: дети, целиакия, инвагинация, острая кишечная непроходимость.

Для цитирования: Шакирова А.Р., Камалова А.А., Яфясов Р.Я., Низамова Р.А. Хирургические аспекты целиакии. Рос вестн перинатол и педиатр 2018; 63:(5): 188–191. DOI: 10.21508/1027–4065–2018–63–5–188–191

There are publications on the association of celiac disease with intussusception and intestinal obstruction in adults. Although intussusception is the most common cause of intestinal obstruction in children, it is rarely considered in association with celiac disease. The article presents clinical cases of a rare manifestation of celiac disease with acute surgical pathology – acute intestinal obstruction due to the intestinal intussusception and obstruction. Children with intussusception with non-established etiology should be examined for celiac disease, especially when they have the appropriate symptoms – growth retardation, anemia, bloating, increased transaminase levels and other manifestations of celiac disease, and in case the child's age is not entirely characteristic of the intussusception.

Key words: children, celiac disease, intussusception, acute intestinal obstruction.

For citation: Shakirova A.R., Kamalova A.A., Yafasov R.Ya., Nizamova R.A. Surgical Aspects of Celiac Disease. Ros Vestn Perinatol i Peditr 2018; 63:(5): 188–191 (in Russ). DOI: 10.21508/1027–4065–2018–63–5–188–191

Целиакия (глютеновая энтеропатия) – иммуноопосредованное системное заболевание, возникающее в ответ на употребление белков клейковины (пшеницы, ржи, ячменя) у генетически предрасположенных индивидуумов. Для целиакии характерно наличие широкой комбинации глютенозависимых клинических проявлений, специфических антител к тканевой трансглутаминазе (tTG), антител к эндомизию (EMA), антител к деамидированным пептидам

глиадина (DGP), HLA-DQ2 или HLA-DQ8 гаплогрупп и энтеропатии [1, 2]. По данным Всемирной ассоциации гастроэнтерологов, частота глютеновой энтеропатии в различных популяциях колеблется от 1:100 до 1:300. Соотношение между диагностированными и недиагностированными случаями может достигать 1:5–1:13 [3, 4]. В настоящее время преобладают малосимптомные и атипичные формы заболевания, что существенно затрудняет своевременную постановку диагноза.

Инвагинация кишечника – самый частый вид острой кишечной непроходимости у детей. Она может возникать в любом возрасте. В 85–90% случаев инвагинация встречается в возрасте от 4 до 9 мес. Причиной инвагинации кишечника обычно является функциональное нарушение координации кишечной моторики с преобладанием сокращений циркулярного мышечного слоя кишечной стенки. К дисмоторике кишки могут привести изменения режима питания, введение прикорма, воспалительные заболевания кишечника. У детей старше года причиной инвагинации часто являются полипы, дивертикулы, опухоли кишечной стенки [5, 6].

© Коллектив авторов, 2018

Адрес для корреспонденции: Шакирова Алмазия Раисовна – заведующая педиатрическим отделением №5 Детской республиканской клинической больницы, асс. кафедры педиатрии с курсом поликлинической педиатрии Казанской государственной медицинской академии, ORCID: 0000-0001-9975-3632

420012 Казань, ул. Муштары, д. 11

Камалова Аэлига Асхатовна – д.м.н., проф. кафедры госпитальной педиатрии с курсом поликлинической педиатрии Казанского государственного медицинского университета, ORCID 0000-0002-2957-680X

420012 Казань, ул. Бутлерова, д. 49

Яфясов Ринат Явветович – к.м.н., зав. хирургическим отделением Детской республиканской клинической больницы

Низамова Раиля Альбертовна – зав. диагностическим отделением Детской республиканской клинической больницы, врач-педиатр, гастроэнтеролог

420011 Казань, ул. Оренбургский тракт, д. 140

Острая кишечная непроходимость, в том числе обусловленная инвагинацией, не относится к широко распространенным осложнениям целиакии. Впервые взаимосвязь целиакии и инвагинации кишечника у взрослых пациентов описали М. Ruoff и соавт. в 1968 г. [7]. В доступной литературе имеются публикации, касающиеся ассоциации целиакии с инвагинацией и другой хирургической патологией у взрослых [8–11] и детей [5, 12–20]. В отечественной литературе мы не встретили ни одной публикации по данному вопросу.

Клинический случай 1.

Девочка А., 1,5 года. Жалобы при первом обращении к гастроэнтерологу на вздутие живота, кашицеобразный, «непереваренный», обильный стул.

Из анамнеза жизни известно, что ребенок от второй нормально протекавшей беременности, своевременных родов. Масса при рождении 3400 г. С 1 мес жизни девочка была переведена на искусственное вскармливание, прикормы вводились согласно Национальной программе оптимизации вскармливания детей первого года жизни, с 6 мес жизни ребенку начали давать сушки и сухари. Психомоторное развитие соответствовало возрасту. Масса ребенка в 1 год жизни – 10,7 кг, длина тела – 76 см. В возрасте 1 года 3 мес масса ребенка – 12 кг.

Анамнез заболевания. Со слов матери, 1,5 нед назад ребенок был выписан из хирургического отделения, куда поступил с подозрением на острую хирургическую патологию с жалобами на схваткообразные боли в животе, многократную рвоту и увеличение размеров живота. В условиях хирургического отделения были проведены лабораторные исследования. В общем анализе крови наблюдалась гипохромная анемия легкой степени, общий анализ мочи – без патологии. В биохимическом анализе крови: общий белок – 60,7 г/л (норма 64–83 г/л), аланинаминотрансфераза – 26 Е/л (норма 4–40 Е/л), аспартатаминотрансфераза – 46 Е/л (норма 4–40 Е/л), холестерин – 2,35 ммоль/л (норма 3,2–5,2 ммоль/л), ОЖСС* 74 мкмоль/л (норма 45–76 мкмоль/л), сывороточное железо – 6,2 мкмоль/л (норма 9,5–21,5 мкмоль/л), щелочная фосфатаза – 211 Ед (норма 400 Е), кальций – 2,51 ммоль/л (норма 2,15–2,57 ммоль/л), фосфор – 1,87 Е/л (норма 1–1,8 ммоль/л). При ультразвуковом исследовании (УЗИ) органов брюшной полости выявлен ультразвуковой признак инвагинации кишечника – симптом «мишени» – наличие на поперечном срезе двух колец низкой эхоплотности, разделенных гиперэхогенным кольцом. Диагностическая ценность УЗИ при подозрении на инвагинацию кишечника у детей подтверждена в многоцентровых контролируемых исследованиях [21, 22]. Ребенку была выполнена лапароскопия, в ходе которой выявлена тонко-тонкокишечная инва-

гинация и проведена дезинвагинация кишечника. Так как в послеоперационном периоде сохранялись жалобы на вздутие живота, хирургом была рекомендована консультация гастроэнтеролога.

Состояние при осмотре средней тяжести за счет диспепсии. Масса – 10,2 кг, длина тела – 79 см. Вялая, настроена негативно, плаксива. Кожные покровы бледные, сухие. Подкожный-жировой слой недостаточно развит. Тоны сердца ясные, ритмичные. Дыхание везикулярное. Живот мягкий, безболезненный, доступен пальпации, вздут. Печень и селезенка не увеличены. Учитывая вышеизложенное, ребенок был обследован на предмет целиакии. Обнаружен высокий уровень антител IgA к тканевой трансглутаминазе и к деамидированным пептидам глиадина (более чем 10-кратное превышение референсных значений). По данным эзофагогастродуоденоскопии (ЭГДС), выявлены: резкое укорочение ворсинок, удлинение крипт, соотношение ворсинка/крипта 1:2; выраженная лимфоплазмоцитарная инфильтрация собственной пластинки; лимфоидно-клеточная инфильтрация эпителия – 110 межэпителиальных лимфоцитов на 100 эпителиоцитов. Кроме того, в общем анализе крови сохранялись признаки анемии легкой степени, в биохимическом анализе крови отмечалось 1,5-кратное повышение уровня трансаминаз.

На основании анамнестических, клинических, лабораторных и инструментальных данных поставлен окончательный диагноз: целиакия, типичная форма. Рекомендована безглютеновая диета, на фоне которой отмечалось клиническое улучшение в виде нормализации стула, прибавки в массе и уменьшения вздутия живота.

Клинический случай 2.

Девочка 6 лет 7 мес. Жалобы на плохую прибавку массы и роста, непостоянные боли в животе, склонность к запорам, периодически вздутие живота.

Из анамнеза известно, что в возрасте 4,5 лет обращалась с аналогичными жалобами к гастроэнтерологу. В связи с подозрением на наличие у ребенка целиакии было проведено исследование в крови уровня IgA и IgG к тканевой трансглутаминазе. IgA к тканевой трансглутаминазе составили более 200 отн. Е/мл (норма 20 отн. Е/мл). Для окончательной верификации диагноза атипичной формы целиакии была рекомендована эзофагогастродуоденоскопия (ЭГДС) с биопсией слизистой двенадцатиперстной кишки. В этот период ЭГДС не была проведена. Через неделю после обращения к гастроэнтерологу у ребенка ухудшилось состояние – усилились боли в животе и вздутие, отмечалась рвота желудочным содержимым. С подозрением на острую хирургическую патологию девочка была госпитализирована, в ходе рентгенографического исследования выявлены множественные уровни жидкости в верхнем этаже брюшной области. Выполнена лапароскопия. Серозная оболочка червеобразного отростка

* ОЖСС – общая железосвязывающая способность сыворотки

была умеренно гиперемирована, отечная. При ревизии 100 см тонкой кишки в просвете терминального отдела тонкой кишки отмечалось скопление непереваренных пищевых масс. Пройдимость была восстановлена механическим путем. Заключение: обтурационная кишечная непроходимость; вторичный катаральный аппендицит. В течение 2 лет после операции ребенку не провели ЭГДС с биопсией, соответственно диагноз целиакии не ставился и диета не соблюдалась.

В настоящее обращение у ребенка вновь исследовали уровень специфических антител: обнаружено более чем 10-кратное повышение уровня IgA к тканевой трансаминазе и высокие показатели антител к дезамидированным пептидам глиадина. Морфологическое исследование биоптатов слизистой двенадцатиперстной кишки выявило отсутствие ворсин, глубокие крипты, увеличение количества межэпителиальных лимфоцитов и обильную лимфоплазматическую инфильтрацию собственной пластинки. Полученные данные позволили поставить окончательный диагноз атипичной формы целиакии.

Обсуждение

Хотя инвагинация является наиболее распространенной причиной непроходимости кишечника у детей [23], а целиакия – нередкой причиной энтеропатии, эти состояния редко рассматриваются во взаимосвязи [5]. Диффузное воспаление и утолщение кишечной стенки при целиакии приводят к гиперперистальтике и расширению тонкой кишки, что в свою очередь может привести к инвагинации, которая развивается однократно или может рецидивировать, саморазрешается или требует оперативного вмешательства. Большинство работ по этому вопросу представляет собой описание случаев или серии случаев, отсутствуют исследования типа случай–контроль и рандомизированные клинические исследования. Так, R. Germann и соавт. [12] и S. Al Furaikh и соавт. выделили целиакию как необычную причину рецидивирующей инвагинации у детей [12,24]. По данным T. Gonda и соавт., распространенность инвагинации среди когорты пациентов с целиакией составила 14 на 880 пациентов (возраст $47 \pm 17,5$ лет, 50% женщин). Инвагинация была первым проявлением целиакии у 57% (у 8 из 14) пациентов и манифестировала болью в животе [9]. N. Reilly и соавт. [5] также обнаружили, что распространенность инвагинации среди детей с нелеченой целиакией гораздо выше, чем в детской популяции в целом. Среди 254 детей с целиакией 1,2% перенесли инвагинацию менее чем за 9 мес до постановки диагно-

ноза по сравнению с 0,07% всех детей, госпитализированных в клинику за тот же период. В другом исследовании значимая связь целиакии и инвагинации не была выявлена [8]. Тем не менее при использовании проспективного когортного подхода было обнаружено, что у 12 из 29 060 человек с целиакией развилась инвагинация после дебюта заболевания; выявлено умеренное, но значимое увеличение риска инвагинации после постановки диагноза целиакии (отношение рисков, OR = 1,95, доверительный интервал 95%, CI = 1,01–3,77; P = 0,046). В этом исследовании пациенты с бессимптомной целиакией не были обследованы, что, возможно, уменьшило абсолютное число пациентов с субклинической инвагинацией.

Поскольку инвагинация у пациентов с целиакией может быть хронической и безболезненной, вероятно, ее частота недооценивается. По данным литературы, инвагинация у пациентов с целиакией может разрешаться без оперативного вмешательства, в том числе и у детей [13, 17, 20]. V. Vorkar и соавт. (2018) исследовали частоту и естественное течение инвагинации кишечника у 150 детей с впервые выявленной целиакией [20]. УЗИ брюшной полости проводилось до начала безглютеновой диеты и повторно у пациентов с диагностированной инвагинацией на 3-й день, а затем еженедельно до разрешения инвагинации. Средний возраст детей составил 72 мес (16–204 мес), 53% из них – мальчики. В 79% случаев диарея была ведущим симптомом. У 37 (25%) детей обнаружено 45 случаев инвагинаций. Из них 95% были тонко-тонкокишечными. У всех детей, за исключением одного, была бессимптомная инвагинация. На фоне соблюдения безглютеновой диеты инвагинация разрешалась спонтанно в течение 7 дней у 65%, в течение 14 дней – у 84% и в течение 28 дней – у 92%, и ни в одном случае не потребовалось хирургической или гидростатической дезинвагинации. На основании полученных результатов исследователями был сделан смелый вывод о том, что дети с целиакией и бессимптомной инвагинацией не должны подвергаться хирургическому или радиологическому вмешательству.

Таким образом, в настоящее время показано, что инвагинация и кишечная непроходимость могут быть связаны с целиакией. Дети с инвагинацией кишечника без установленной этиологии должны быть обследованы на предмет целиакии, особенно если у них имеются сопутствующие симптомы – замедление роста, анемия, вздутие живота, увеличение уровня трансаминаз и другие проявления целиакии и если возраст ребенка не совсем характерен для манифестации инвагинации.

ЛИТЕРАТУРА (REFERENCES)

1. Husby S., Koletzko S., Korponay-Szabo I.R., Mearin M.L., Phillips A., Shamir R. et al. European Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology, and Nutrition Guidelines for the Diagnosis of Coeliac Disease. For the

ESPGHAN Working Group on Coeliac Disease Diagnosis, on behalf of the ESPGHAN Gastroenterology committee. JPGN 2012; 54(1): 136–160. DOI: 10.1097/MPG.0b013e31821a23d0

2. Боровик Т.И., Захарова И.Н., Потапов А.С., Бельмер С.В., Хавкин А.И., Ревнова М.О. и др. Федеральные клинические рекомендации по оказанию медицинской помощи детям с целиакией. М 2015; 22. [Borovik T.I., Zakharova I.N., Potapov A.S., Belmer S.V., Khavkin A.I., Reznova M.O. et al. Federal clinical guidelines for the provision of medical care to children with celiac disease. Moscow 2015; 22. (in Russ)]
3. Bai J., Zeballos E., Fried M., Corazza G.R., Schuppan D., Farthing M.J.G. et al. WGO-OMGE Practice Guideline Celiac Disease, http://www1.lf1.cuni.cz/~kocna/ginet/texty/g_coeli.pdf
4. Парфенов А.И., Маев И.В., Баранов А.А., Бакулин И.Г., Сабельникова Е.А., Крумс Л.М. и др. Всероссийский консенсус по диагностике и лечению целиакии у детей и взрослых. Альманах клинической медицины 2016; 44(6): 661–688. [Parfenov A.I., Maev I.V., Baranov A.A., Bakulin I.G., Sabelnikova E.A., Krums L.M. et al. All-Russian Consensus on Diagnosis and Treatment of Celiac Disease in Children and Adults. Al'manakh klinicheskoy meditsiny 2016; 44(6): 661–688. (in Russ)]
5. Reilly N.R., Agilar K.M., Green P.F. Should child invagination be screened for celiac disease? J Pediatr Gastroenterol Nutr 2013; 56: 56–59. DOI: 10.1097/MPG.0b013e31826a1099
6. Российская ассоциация детских хирургов. Клинические рекомендации: Инвагинация кишечника у детей. М 2016; 30. [Russian Association of Pediatric Surgeons Clinical recommendations: Invagination of the intestines in children. Moscow 2016; 30. (in Russ)]
7. Ruoff M., Lindner A.E., Marshack R.H. Intussusception in sprue. Am J Rentgenol Radium Ther Nucl Med 1968; 104: 525–528.
8. Ludvigsson J.F., Nordenskjöld A., Murray J.A., Olén O. A large nationwide population-based case-control study of the association between intussusception and later celiac disease. BMC Gastroenterol 2013; 13: 89. DOI: 10.1186/1471-230X-13-89
9. Gonda T.A., Khan S.U., Cheng J., Lewis S.K., Rubin M., Green P.H. Association of intussusception and celiac disease in adults. Dig Dis Sci 2010; 55: 2899–2903. DOI: 10.1007/s10620-009-1086-8
10. Thompson J.S., Thompson D.S., Meyer A. Surgical aspects of celiac disease Am Surg 2015; 81(2): 157–160.
11. Горгун Ю.В., Портыанко А.С., Киселева Е.П., Михайлопуло К.И., Мараховский Ю.Х. Целиакия у взрослых: клиническая презентация и факторы риска. <http://lech-delo.by/archiv/zhurnal-lechebnoe-delo-4-za-2011-god.html> [Gorgun Yu.V. Portyanko A.S., Kiseleva E.P., Mikhaylopulo K.I., Marakhovskiy Yu.Kh. Celiac disease in adults: clinical presentation and risk factors <http://lech-delo.by/archiv/zhurnal-lechebnoe-delo-4-za-2011-god.html> (in Russ)]
12. Germann R., Kuch M., Prinz K., Ebbing A., Schindera F. Celiac disease: an uncommon cause of recurrent intussusception. J Pediatr Gastroenterol Nutr 1997; 25: 415–416.
13. Mushtaq N., Marven S., Walker J., Puntis J.W., Rudolf M., Stringer M.D. Small bowel intussusception in celiac disease. J Pediatr Surg 1999; 34: 1833–1835.
14. Hizal G., Gürakan F., Balamtekin N., Uslu Kizilkan N. Celiac disease presenting with intestinal obstruction: report of two cases. Turk J Gastroenterol 2012; 23: 416–417. DOI: 10.4318/tjg.2012.0481
15. Fishman D.S., Chumpitazi B.P., Ngo P.D., Kim H.B., Lightdale J.R. Small bowel intussusception in celiac disease: revisiting a classic association. J Pediatr Gastroenterol Nutr 2010; 50(3): 237. DOI: 10.1097/MPG.0b013e3181c15f19
16. Gheibi S. Association between Celiac Disease and Intussusceptions in Children: Two Case Reports and Literature Review. Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr 2013; 16(4): 269–272. DOI: 10.5223/pghn.2013.16.4.269
17. Fernandes V.P.I., Lomazi E.A., Bellomo-Brandão M.A. A rare association of intussusception and celiac disease in a child. Sao Paulo Med J 2016; 134(5): 457–460. DOI: 10.1590/1516-3180.2016.0092220616
18. Martinez G., Israel N.R., White J.J. Celiac disease presenting as entero-enteral intussusception. Pediatr Surg Int 2001; 17: 68–70. DOI: 10.1007/s003830000395
19. Lastennet F., Piloquet H., Camby C., Moussally F., Siret D. Acute intestinal invagination revealing celiac disease in a 9-month-old infant. Arch Pediatr 2002; 9: 151–154. DOI: 10.1016/S0929-693X(01)00724-2
20. Borkar V.V., Poddar U., Thakral A., Agarwal J., Srivastava A., Yachha S.K. et al. Intussusception in celiac disease: Is it a common feature in children? J Gastroenterol Hepatol 2018; 33(2): 380–384. DOI: 10.1111/jgh.13865
21. Ko H.S., Schenk J.P., Tröger J., Rohrschneider W.K. Current radiological management of intussusception in children. Eur Radiol 2007; 17(9): 2411–2421. DOI: 10.1007/s00330-007-0589-y
22. Hryhoreczuk A.L., Strouse P.J. Validation of US as a first-line diagnostic test for assessment of pediatric ileocolic intussusception. Pediatr Radiol 2009; 39(10): 1075–1079. DOI: 10.1007/s00247-009-1353-z
23. Kennedy M., Liacouras C.A. Intussusception. In: Nelson textbook of pediatrics. R.M. Kliegman, W.E. Nelson (eds). 19th ed. Philadelphia: Elsevier Saunders, 2011; 1087–1089.
24. Al Furaikh S., Al Zaben A.A. Recurrent small bowel intussusceptions: an uncommon presentation of celiac disease in an Arab child. Trop Gastroenterol 2005; 26: 38–39.
25. Grados A., Bernard F., Coquet-Reinier B., Rossi P., Bagneres D., Demoux A.L., et al. Acute bowel intussusception revealing celiac disease: a new case and literature review. Rev Med Interne 2011; 32: 628–632. DOI: 10.1016/j.revmed.2011.03.334
26. Wong C.W., Chan I.H., Chung P.H., Lan L.C., Lam W.W., Wong K.K., Tam P.K. Childhood intussusception: 17-year experience at a tertiary referral centre in Hong Kong. Hong Kong Med J 2015; 21(6): 518–523. DOI: 10.12809/hkmj144456
27. Altaf M.A., Grunow J.E. Atypical presentations of celiac disease: recurrent intussusception and pneumatosis intestinalis. Clin Pediatr (Phila) 2008; 47: 289–292. DOI: 10.1177/0009922807307922

Поступила 27.07.18

Received on 2018.07.27

Конфликт интересов:

Авторы данной статьи подтвердили отсутствие конфликта интересов и финансовой поддержки, о которых необходимо сообщить.

Conflict of interest:

The authors of this article confirmed the lack of conflict of interest and financial support, which should be reported.