






Çölyak Hastalığının Nadir Bir Bulgusu: İnvajinasyon

A Rare Symptom of Celiac Disease: Invagination

Nafiye Urgancı , Sinem Polat , Banu Yılmaz 

Şişli Hamidiye Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Kliniği, İstanbul, Türkiye

Cite this article as: Urgancı N, Polat S, Yılmaz B. A Rare Symptom of Celiac Disease: Invagination. JAREM 2018; 8: 56-8.

ÖZ

Çölyak ve invajinasyon birlikteliği erişkinlerde görülmekle birlikte literatürde az sayıda çocuk olguda bildirilmiştir. Bu olgu ile çocukluk çağında invajinasyon ve çölyak birlikteliğini tartışmak istedik.

Anahtar kelimeler: Çölyak hastalığı, invajinasyon, çocukluk çağı

ABSTRACT

Association between celiac disease and invagination is common in adults, but there are few cases have been reported in pediatric patients as well. In this case we would like to discuss the correlation between celiac disease and invagination.

Keywords: Celiac disease, invagination, childhood

ORCID IDs of the authors: N.U. 0000-0003-4854-507X; S.P. 0000-0001-7107-5489; B.Y. 0000-0002-3540-4772

GİRİŞ

Çocuklarda görülen gastrointestinal tıkanıklığın en sık nedenlerinden biri invajinasyondur. Üç ay ile 5 yaş arasındaki çocuklarda 22-56/100,000 sıklığında ince barsak tıkanıklığı görülmektedir. İnvajinasyonun klinik bulgusu bulantı, kusma ve karın ağrısı olup genellikle kendiliğinden iyileşmektedir (1, 2).

Bununla birlikte son yıllarda invajinasyonunun tedavi uygulanmayan çölyak olgularında hastalığın nadir bir klinik bulgusu olarak görüldüğü bildirilmektedir (3). Çölyak hastalığı ile invajinasyon birlikteliği ilk kez 1968 yılında erişkin çölyaklı bir olguda tanımlanırken (4), çocuklarda çölyak ile invajinasyon birlikteliği az sayıda olguda bildirilmiştir (5-10).

Bu makalede karın ağrısı, kusma yakınması ile getirilen ve invajinasyon tanısı ile izlenirken çölyak hastalığı tanısı alan bir olgu irdelenmiştir.

OLGU SUNUMU

Dört buçuk yaşında kız hasta, şiddetli karın ağrısı ve kusma yakınması ile çocuk acil polikliniğimize başvurdu. Anne babası 1. derece kuzen evliliği olan, takipsiz gebelik sonucu miadında 3100 gr olarak normal spontan vaginal yol ile doğan bebeğin, postnatal döneminde özellik saptanmadı. Öyküsünde bir yıldan beri aralıklı karın ağrısının yanı sıra kabızlık ve ishal ataklarının olduğu, defalarca başvurdukları doktorlar tarafından verilen antibiyotik ve anti parazitozları kullandıkları, ancak son birkaç günden beri aniden başlayan ve kendiliğinden gerileyen karın ağrılarının sıklığının giderek arttığı ve kusma ile birlikte kilo kaybettiği öğrenildi.

Fizik muayenesinde vücut ağırlığı 12 kg ve boyu 96 cm³ persentilin altında olan olgunun genel durumu orta, kaşektik ve düşkün görünümlü, göz küreleri hafif çökük idi. Solunum sistemi muayenesi doğal, kardiyovasküler sistemde KTA:130 /dk ritmik, apekte 1/6 şiddetinde sistolik üfürüm saptandı. Batını ileri derecede distandü olduğundan organomegali palpe edilemedi. Laboratuvar incelemelerinde Hb:10 gr /dL, Hct: %31, lökosit sayısı: 9380/mm³, trombosit sayısı: 544 000/mm³ idi. AST: 56 U/L, ALT: 49 U/L, GGT 20U/L, ALP 279 U/L, total protein 5,4 gr/dL, albumin 2,9 gr/dL, üre 28 mg/dL, kreatinin 0,17 mg/dL, demir 30 ng/dL, demir bağlama kapasitesi 406 ng/dL, ferritin: 10 ng/dL, vitamin B12: 189 pg/mL, folik asit 7 ng/mL, IgA 208 mg/dL, IgG 686 mg/dL, IgM 49 mg/dL idi. Periferik yaymasında mikrositer anemi tespit edildi. Batın ultrasonografisinde (Siemens, Germany) batın ileri derecede distandü, yoğun gaz görünümü ve kalınlaşmış hipoekoik barsak duvarının içerisinde, invajine olmuş barsak segmentlerine ait konsantrik lamelli ekojen yapı ve invajinasyon ile uyumlu 40 mm target lezyon izlendi (Resim 1). Çocuk cerrahisi tarafından invajinasyon tanısı ile takibe alınan olgunun izleminde invajinasyon görünümü spontan olarak düzeldi. Bu arada büyüme geriliği nedeni ile incelenen çölyak antikorlarından anti endomisyum antikor; EMA IgA ve EMA IgG pozitif saptandı. Üst GIS'in endoskopik incelemesinde duodenumda taraksı görünüm dışında patoloji saptanmadı. Biyopsi örneklerinin histopatolojik incelemesinde total villus atrofi, intraepitelyal lenfosit sayısında artma ve kript hiperplazisi gözlemlendi (Resim 2, 3). Çölyak tanısı alan olguya çölyak diyeti başlanarak takibe alındı. İki yıldan beri takibimizde olan olgunun EMA IgA ve EMA IgG negatif, boy ve kilosu 10- 25 p olup invajinasyon kliniğine ait bulguya rastlanmadı. Aileden sözlü onam alındı.

Bu çalışma 4.Çocuk Dostları Kongresi'nde sunulmuştur, 24-26 Mart 2016, İstanbul, Türkiye.

This study was presented at the 4th Children Mate Congress, 24-26 March 2016, İstanbul, Turkey.



Yazışma Adresi / Address for Correspondence: Nafiye Urgancı,
E-posta: nafiyeurganci@yahoo.com

Geliş Tarihi / Received Date: 22.12.2016 Kabul Tarihi / Accepted Date: 26.05.2017

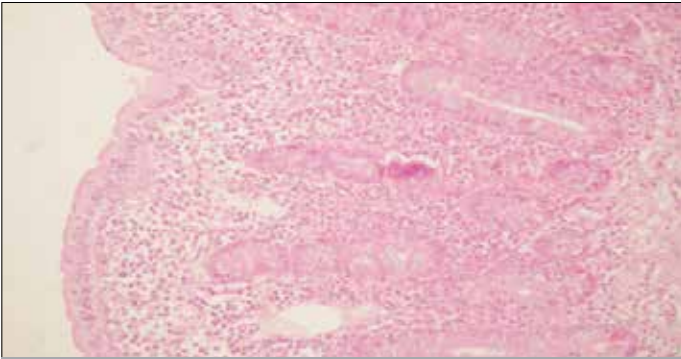
© Telif Hakkı 2018 Gaziosmanpaşa Taksim Eğitim ve Araştırma Hastanesi. Makale metnine www.jarem.org web sayfasından ulaşılabilir.

© Copyright 2018 by Gaziosmanpaşa Taksim Training and Research Hospital. Available on-line at www.jarem.org

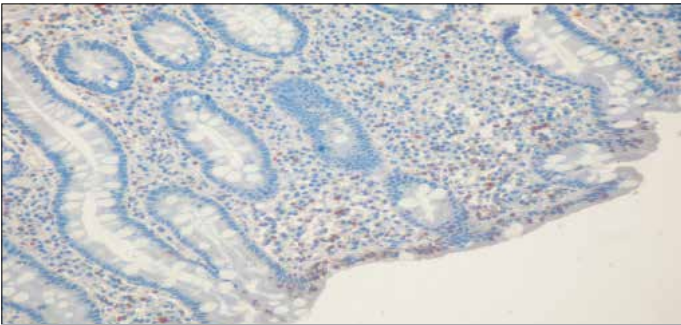
DOI: 10.5152/jarem.2018.1347



Resim 1. İnvajinasyonun tipik sonografik görüntüsü; Konveks ve lineer proble alınan transvers kesitlerde tipik "target görüntüsü"



Resim 2. Villularda düzleşme, kript hiperplazisi, intraepitelyal lenfosit artışı H&E, x200



Resim 3. İnteraepitelyal artmış olan lenfositlerde CD3 immunreaktivites, x200

TARTIŞMA

İnvajinasyon bebek ve çocuklarda rektal kanama ve barsak tıkanıklığının önemli bir nedenidir. En sık 3 ay-2 yaş arası bebeklerde görülen akut karın kliniğidir. Klasik invajinasyonda belirli bir etyolojik faktör bilinmemektedir. İdiyopatik invajinasyon olarak adlandırılan bu olgularda en çok peyer plağı hipertrofisi, mezenter lenfadenopati, rotavirüs gastroenteriti suçlanmaktadır (2, 11, 12). Çölyak hastalığı gluten intoleransının neden olduğu genetik geçişli enflamatuvar bir hastalıktır. Klasik bulgularının yanı sıra tedaviye cevap vermeyen demir eksikliği anemisi, puberte gecikmesi,

osteoporoz, kriptojenik hipertransaminazemi, periferik nöropati gibi ekstraintestinal bulgular; otoimmün tiroidit, tip 1 DM, Sjögren hastalığı gibi otoimmün hastalıklarla da birlikte olmaktadır. Son yıllarda tedavimsiz çölyaklı olgularda çölyak hastalığına eşlik eden nadir bir atipik gastrointestinal bulgulardan biri de invajinasyondur (5, 6, 13). Çölyak hastalığı intestinal motor fonksiyonlarda bozulmalara neden olmaktadır. Bunun sonucunda hipotonik intestinal loplarda normal bağırsak peristaltizminin bozulması invajinasyon oluşumuna neden olabileceği düşünülmektedir (5). Çölyaklı olgularda invajinasyon görülme sıklığının, normal çocuklara göre %1,2 daha fazla görüldüğü belirtilmektedir (3, 10). Bizim çölyak hastalığı tanısı ile izlediğimiz 236 olgumuzun sadece biri (%0,4) invajinasyon kliniği ile başvurdu. Bu oranı literatürde belirtilenden düşük bulmamızı invajinasyonun %75 oranında kendiliğinden iyileşmesine nedeni ile gerek çocuk cerrahları ve gerekse de çocuk hekimleri tarafından çölyak ve invajinasyon birlikteliğinin göz ardı edilmesi ile açıklayabiliriz. Literatürde çölyak ve invajinasyon birlikteliği en küçük 9 aylık kız hastada bildirilmekle birlikte olgumuzda da olduğu gibi her yaşta görülebilmektedir (5-7, 9, 10). İnvajinasyonun tanısında ultrasonografi oldukça önemlidir. Ultrasonografi tanıyı doğrulamakta kullanılan en sık kullanılan metod olup klinik bulgularla çok yüksek oranda korelasyon göstermektedir. Tedavide baryum enema ile hidrostatik redüksiyon, hava insuflasyonu ile redüksiyon oldukça sık kullanılan nonoperatif tedavi yöntemleridir. Birçok çalışmada başarı oranları oldukça yüksek olarak bildirilmektedir (12). Klinik ve ultrasonografi ile invajinasyon tanısı konulan olgumuzun büyüme gelişme geriliği ve anemisinde saptandığından çölyak hastalığı ile ilgili antikörler araştırılarak olgu yakın takibe alındı. Redüksiyon ya da cerrahi gereksinimi olmadan spontan düzelen hastamıza serolojik ve histopatolojik olarak çölyak hastalığı tanısı konuldu ve glutensiz diyet başlandı.

SONUÇ

Büyüme geriliği, ishal, malabsorbsiyon, karın şişliği gibi klinik bulgularla seyreden olgulara tipik çölyak hastalığı tanı konulurken son yıllarda gelişmiş serolojik yöntemlerle "atipik" ve "sessiz" klinik bulgular gösteren olgulara da tanı konulabilmektedir. Bu nedenle atipik çölyak hastalığının nadir bir klinik bulgusu olan invajinasyon ile başvuran olgularda büyüme gelişme geriliği, anemi saptandığında çölyak hastalığı akılda tutulmalı ve çölyak serolojisi mutlaka araştırılmalıdır.

Hasta Onamı: Sözlü hasta onamı bu çalışmaya katılan hastanın ailesinden alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Dış bağımsız.

Yazar Katkıları: Fikir – N.U.; Tasarım – S.P.; Denetleme – N.U.; Kaynaklar – N.U.; Veri Toplanması ve/veya İşlemesi – S.P.; Analiz ve/veya Yorum – N.U.; Literatür Taraması – S.P.; Yazıyı Yazan – N.U.; Eleştirel İnceleme – B.Y.

Çıkar Çatışması: Yazarlar çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Finansal Destek: Yazarlar bu çalışma için finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

Informed Consent: Verbal informed consent was obtained from patients' parents who participated in this case.

Peer-review: Externally peer-reviewed.

Author Contributions: Concept – N.U.; Design – S.P.; Supervision – N.U.; Resources – N.U.; Data Collection and/or Processing – S.P.; Analysis and/or Interpretation – N.U.; Literature Search – S.P.; Writing Manuscript – N.U.; Critical Review – B.Y.

Conflict of Interest: No conflict of interest was declared by the authors.

Financial Disclosure: The authors declared that this study has received no financial support.

KAYNAKLAR

1. Stringer MD, Pablot SM, Brereton RJ. Paediatric intussusception. *Br J Surg* 1992; 79: 867-76.
2. DiFiore JW. Intussusception. *Semin Pediatr Surg* 1999; 8: 214-20.
3. Reilly NR, Aguilar KM, Green PH. Should intussusception in children prompt screening for celiac disease?. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2013; 56: 56-9.
4. Ruoff M, Lindner AE, Marshak RH. Intussusception in sprue. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1968; 104: 525-8.
5. Germann R, Kuch M, Prinz K, Ebbing A, Schindera F. Celiac disease: an uncommon cause of recurrent intussusception. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1997; 25: 415-6.
6. Mushtaq N, Marven S, Walker J, Puntis JW, Rudolf M, Stringer MD. Small bowel intussusception in celiac disease. *J Pediatr Surg* 1999; 34: 1833-5.
7. 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: 151-4.
8. Fishman DS, Chumpitazi BP, Ngo PD, Kim HB, Lightdale JR. Small bowel intussusception in celiac disease: revisiting a classic association. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2010; 50: 237.
9. Reilly NR, Aguilar KM, Green PH. Should intussusception in children prompt screening for celiac disease?. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2013; 56: 56-9.
10. Gheibi S. Association between Celiac Disease and Intussusceptions in Children : Two Case Reports and Literature Review. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr* 2013; 16: 269-72.
11. Shapkina AN, Shapkin VV, Nelubov IV, Pryanishena LT. Intussusception in children: 11-year experience in Vladivostok. *Pediatr Surg Int* 2006; 22: 901-4.
12. Blanch AJ, Perel SB, Acworth JP. Paediatric intussusception: epidemiology and outcome. *Emerg Med Australas* 2007; 19: 45-50.
13. Hill ID, Dirks MH, Liptak GS, Colletti RB, Fasano A, Guandalini S, et al. Guideline for the diagnosis and treatment of Celiac Disease in children: Recommendations of the North American Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2005; 40: 1-19.