

Söögitoru seinasisene pseudodivertikuloos kui harva esinev söögitoru striktuuri põhjus. Haigusjuhu kirjeldus

Signe Vaas¹, Kristi Rusin²

Eesti Arst 2023;
102(10):542–546

Saabunud toimetusse:
05.07.2023
Avaldamiseks vastu võetud:
11.09.2023
Avaldatud internetis:
24.10.2023

¹ Tartu Ülikooli kliinilise meditsiini instituut, ² Tartu Ülikooli Kliinikumi sisekliinik

Kirjavahetajaautor:
Signe Vaas
signe.vaas@gmail.com

Võtmesõnad:
neelamishäire,
söögitoru striktuur,
söögitoru seinasisene pseudodivertikuloos

Söögitoru seinasisene pseudodivertikuloos (*esophageal intramural pseudodiverticulosis*, EIPD) on harva esinev haigus, mida on kirjeldatud alla 200 haigusjuhu. EIPD kujutab endast söögitoru submukoosete näärmete ja näärmejuhade dilateerumist. Haigusel on mitmeid tüsistusi, millest kõige sagedasemaks on söögitoru striktuur. Artiklis on esitatud 78aastase meespatsiendi haigusjuhu kirjeldus. Patsiendil oli esinenud mitme aasta jooksul ebaselge põhjusega neelamishäire ja uuringutel oli leitud söögitoru ülaosa ahenemine, mille põhjustas söögitoru seinasisene pseudodivertikuloos. Teadaolevalt on see esimene EIPD haigusjuhu kirjeldus eesti keeles.

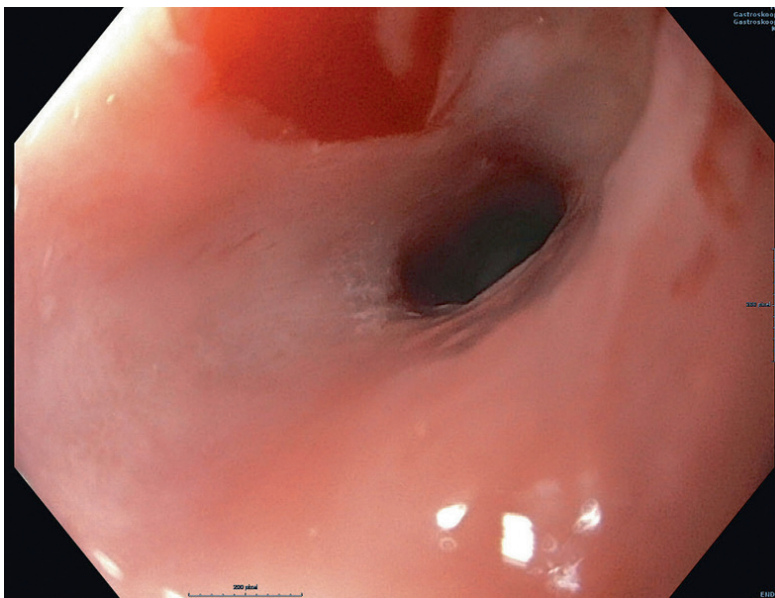
HAIGUSJUHT

78aastane meespatsient suunati gastrokopiale neelamishäire ja kaalulanguse tõttu. Gastrokopiilisel uuringul ilmestus söögitoru ülaosas ahenemine, mis oli nii tavalise kui ka väiksema diameetriga (vastavalt 9,9 mm ja 8,9 mm) endoskoobile läbimatu (vt pilt 1). Patsient hospitaliseeriti gastroenteroloogia osakonda söögitoru striktuuri põhjuse selgitamiseks.

Anamneesi täpsustamisel selgus, et patsiendil oli periooditi olnud raskusi tahke toidu neelamisega juba 5 aasta vältel ning sümptomid olid viimase aasta jooksul oluliselt süvenenud. Patsient suutis neelata vaid püreestatud toitu, süües koguliselt ainult umbes 100 g toitu päevas. Igapäevased ravimid manustas ta purustatult. Umbes kuu aega enne hospitaliseerimist esines 2nädalane periood, mil patsient ei olnud võimeline ka pehmet toitu neelama, mis aga möödus spontaanselt, ilma selge soodustava põhjusega.

Analoogsete kaebuste tõttu oli teda uuritud ka 4 aastat tagasi, mil tehti gastrokopia ning neelamisfunktsiooni röntgenuuring kontrastainega. Kummalgi uuringul siis söögitorus striktuuri või muud neelamist takistavat muutust ei leitud. Gastrokopiilal leiti söögitorus erosioonid, mille põhjuseks arvati olevat gastroösofageaalne reflukshaigus (edaspidi reflukshaigus). Raviks määrati prootonpumba inhibiitor (PPI), kuid kaebused jäid püsima. Kaasuvatest haigustest oli muu hulgas teada alkoholi liigtarvitamine ning maksa alkoholtõbi. Alkoholi surrogaatide ning kemikaalide joomist patsient eitas.

Kuna seekordsel gastrokopiilisel uuringul leiti ahenemine söögitoru ülaosas – ja see ei ole peptilisele striktuurile iseloomulik –, jäi algul kahtlus pigem pahaloo-



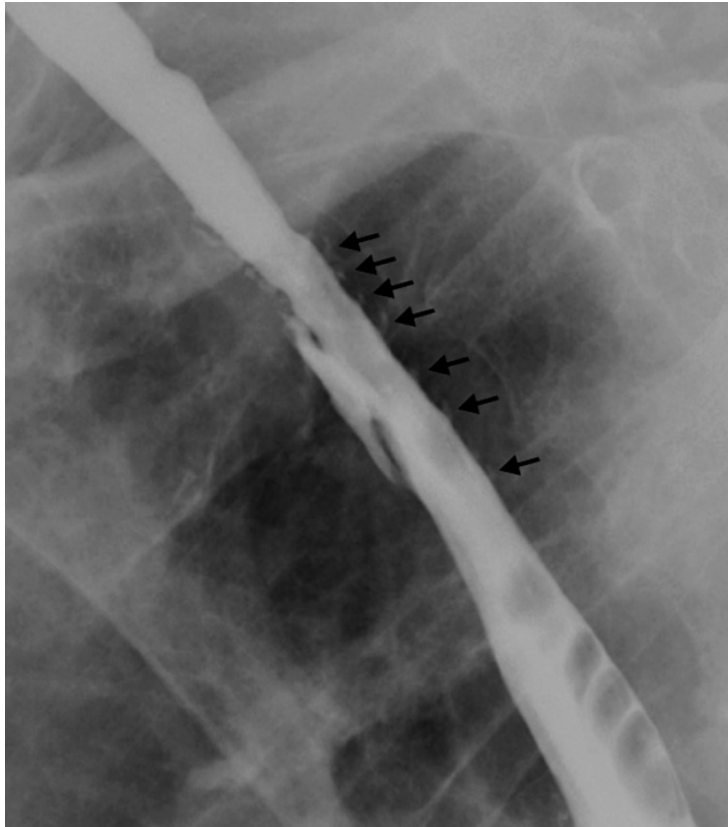
Pilt 1. Gastrokopiilal leitud söögitoru ülaosa striktuur, mis oli endoskoobile läbimatu.

mulise kasvaja suhtes. Haiguse ulatuse täpsustamiseks tehti esmalt baariumiga söögitoru-röntgenoskoopia, kus tuli nähtavale ahenemine söögitoru ülemises kolmandikus aordikaare kõrgusel umbes 4 cm pikkusel lõigul. Sellel alal oli söögitoru sein ebatasase kontuuriga ning valendik püsivalt ahenenud. Veidi pikemal alal tulid nähtavale aimatavad paarimillimeetrised pseudodivertiikulid (vt pilt 2). Radioloogi hinnangul sobis leid stenoseerivale tuumorile.

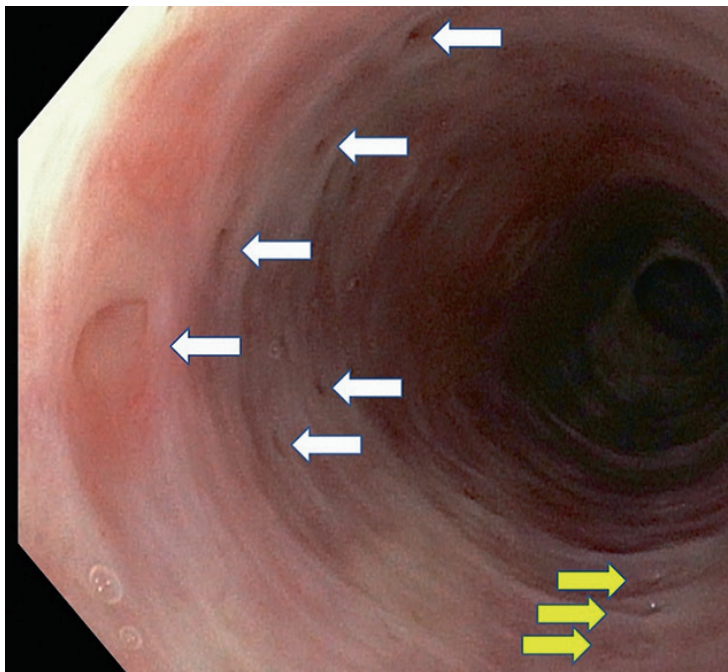
Seejärel tehti gastroskoopia. Protseduuri alustati 4,9 mm diameetriga pediaatrilise gastroskoobiga, millega õnnestus striktuurist edasi liikuda. Järgmisena võeti kasutusele 8,9 mm läbimõõduga gastroskoop, millega oli söögitoru nüüd läbitav. Tuumorit ega põletikulist limaskesta ei visualiseerunud, küll aga nähti söögitoru seinas mitmeid väikeseid, umbes 1–2 mm sopistisi (vt pilt 3). Ahenenud piirkonnast võeti proovitükid, mille histoloogilisel uuringul ilmnis väljendunud põletiku infiltraat, mis haaras nii aluskude kui ka lameepiteeli. Põletiku infiltraat oli valdavalt krooniline lümfotsüütide ja plasmarakkudega, ent fokaalselt oli ka vähest aktiivset komponenti neutrofiilidega. Diferentsiaaldiagnostiliselt välistati eosinofiilne ösofagiit, amüloidoos, sarkoidoos, seeninfektsioon ja pahaloomuline kasvaja.

Täiendavalt tehti rindkere, kõhu ja vaagna kompuutertomograafiline uuring, kus välist survet söögitorule, kasvajat ega metastaase nähtavale ei tulnud. Endoskoopilise ja röntgenoskoopilise leiu alusel diagnoositi patsiendil söögitoru seinasisene pseudodivertikuloos ning selle tüsistusena söögitoru ülaosa striktuur.

Seisundi hindamiseks dünaamikas ning ahenenud piirkonna stentimise vajaduse üle otsustamiseks teostati 12. päeval pärast eelmist gastroskoopiat kordusuuring. Sel uuringul õnnestus striktuur läbida nii 8,9 mm kui 9,9 mm diameetrise gastroskoobiga, mistõttu loobuti nii söögitoru balloon-dilatatsioonist kui ka stendi asetamisest. Söögitoru eri osadest võeti uued proovitükid, mille histoloogilisel uuringul oli jällegi tegemist mittespetsiifilise kroonilise põletikuga. Endoskoopiliste protseduuride järel taandus neelamishäire sedavõrd, et patsient suutis taas tahket toitu süüa ning ta lubati rahuldavas üldseisundis koju. Suukaudseks raviks määrati esomeprasool



Pilt 2. Söögitoru röntgenoskoopial baarium-kontrastainega on näha ahenenud söögitoru valendikku koos pseudodivertiikulitega (märgitud nooltega).



Pilt 3. Gastroskoopial leitud väikesed limaskesta sopistised söögitoru ülemises kolmandikus (valged nooled). Jälgitav on ka pseudodivertiikulite kulgemine lineaarselt mööda söögitoru pikitelge (kollased nooled).

40 mg päevas ning patsienti nõustati alkoholist loobumise suhtes.

KIRJANDUSE ÜLEVAADE

Söögitoru seinasisene pseudodivertikuloos (EIPD) on harva esinev haigus, mida iseloomustavad mitmed väikesed sopistised söögitoru seinas. Need sopistised kujutavad endast laienenud näärmeid ja näärmejuhaskasid söögitoru submukoosas. Erinevalt nn tõelistest divertiiikulitest ei haara need kõiki söögitoruseina kihte, mistõttu nimetatakse neid pseudodivertiikuliteks (1). Esimest korda kirjeldati seda haigust 1960. aastal (2).

EIPD levimuse kohta ei ole seni olemas kindlaid andmeid. Kirjanduses on välja toodud, et 2011. aasta seisuga oli maailmas kirjeldatud vaid ligi 200 haigusjuhtu (3, 4). Ühel 1986. aastal avaldatud retrospektiivsel uuringul vaadati üle 14 350 seedetrakti ülaosast tehtud kontrastainega röntgenogrammi, kus EIPD diagnoositi ainult 21 patsiendil ehk 0,15%-l uuritutest (5).

Haigus võib avalduda igas vanuses. Sealjuures on esile toodud kaks vanuserühma, kelle seas seda sagedamini diagnoositakse, s.o teismeeas ning 50.–60. eluaastates isikutel. Lisaks on leitud, et EIPDd esineb veidi sagedamini meestel. Sagedased EIPDga kaasuvad haigused ja seisundid on diabeet, söögitoru kandidoos, gastroösofageaalne reflukshaigus, krooniline alkoholi liigtarvitamine ning kokkupuude söövitavate hapetega. Ühtlasi peetakse neid EIPD kujunemise riskiteguriteks (3, 6).

Haiguse patogenees ei ole seni selge. Ei ole ühtset seisukohta, kas pseudodivertiikulid omavad selles primaarset rolli või on nende kujul tegemist sekundaarsete muutustega millelegi muule. Enamasti arvatakse, et pseudodivertiikulid on söögitoru krooniliste põletikuliste muutuste tagajärg koos näärmete periduktaalse fibroosiga. Samuti on nende teket seostatud söögitoru hüpermotiilse seisundiga. Kirjeldatud olukorrad tingivad söögitoru submukoosetes näärmetes ja näärmejuhades kas obstruktsiooni või kompressiooni, mis aja jooksul põhjustavad nende dilateerumist ning pseudodivertiikulite formeerumist (6). Krooniline põletik neis põhjustab aga söögitoru seina fibroseerumist ja seeläbi valendiku ahenemist (7). Teisalt arvatakse, et EIPD põhjuseks on submukoosete näärmete kaasasündinud või omandatud

proliferatsioon. Krooniline põletik võib aga omakorda ka sellisel juhul soodustada näärmete edasist dilateerumist ehk pseudodivertikuloosi süvenemist.

Arvestades üksikuid haigusjuhte laste seas, on üheks etioloogiliseks teguriks arvatud näärmejuhade kaasasündinud funktsionaalset puudulikkust. Teiste hüpoteeside seas on välja toodud näärmete sekretsiooni reguleeriva autonoomse närvisüsteemi häiret, viidates, et tegemist on pigem funktsionaalse, mitte struktuuralse probleemiga. Seda toetab ka spetsiifiliste histopatoloogiliste ja immuunhistokeemiliste muutuste puudumine dilateerunud näärmetes ja näärmejuhades (8).

EIPD puhul esinevad pseudodivertiikulid on umbes 1–4 mm sügavad ja 1–2 mm laiad ning kulgevad pikisuunaliselt mööda söögitoru seina. Mõnikord võivad sopistised omavahel liituda, moodustades pikisuunalisi trakte. Pseudodivertiikulite arv võib varieeruda mõnest üksikust kuni kahekümneni. Need paiknevad kas difuusselt üle söögitoru seina (60%) või on segmentaarse haaratusega (40%). Viimasel juhul on kõige sagedasemaks lokaliseerimiseks söögitoru ülemine kolmandik (1, 3). Pseudodivertiikulitel on omadus perioodiliselt avaneda ning sulguda tänu müoepiteliaalsete rakkude säilimisele dilateerunud näärmetes (8).

Kõige sagedasem EIPD sümptom on düsfaagia ehk neelamishäire (80%), mis võib avalduda nii episooditi kui olla pidev ning ajas süveneda. Patsiendid võivad kannatada neelamishäire all mitu kuud või isegi aastaid, enne kui jõutakse diagnoosini. Lisaks võib esineda reflukshaigusele iseloomulikke sümptomeid (1, 3). Rindkerevalu ning rinnakutaguse survetunde tõttu võidakse ekslikult kahtlustada kardiopulmonaalseid haigusi. Üksikutel juhtudel võib esineda anoreksia koos kaalulangusega ning isegi seedetrakti ülaosa verejooks hematemeesi ja/või meleenaga (6). Umbes 20% juhtudest on aga asümptomaatilised juhuleiud.

Sagedaseks komplikatsiooniks on söögitoru striktuur (76–90%), mis paikneb enamasti just söögitoru ülemises kolmandikus ning on peamiseks haiguse avaldumise vormiks (3). Teisteks tüsistusteks on verejooks, spontaanne perforatsioon, fistulite formeerumine (bronhioösofageaalne, ösofagomediastinaalne), peridivertiikuliit ning mediastiinumi abstsessid (6). Kuigi EIPDd on peetud beniigseks haiguseks,

on mitmed uuringud siiski näidanud, et selliste patsientide seas on söögitoruvähi esinemissagedus kõrgem võrreldes kontrollrühmaga (3, 6).

Haiguse diagnoosimine võib olla selle varajases järgus keeruline. Kõige informatiivsemaks uuringuks peetakse baariumiga röntgenogrammi. Suukaudsel manustamisel täidab kontrastaine pseudodivertiikulid, mistõttu tulevad need röntgeniülesvõttel paremini esile. Iseloomulikuks tunnuseks on kitsa kaelaosaga nn kolbikujulised sopistised mööda söögitoru pikitelge.

Endoskoopiliselt on haigust keerukam diagnoosida, kuna perioodiliselt sulguvad väikesed tsüstjad avaused jäävad tihti peale uuringul märkamata ning ekslikult võib jääda mulje normipärasest söögitoru limaskestast (1, 9). Vaid umbes 25% haigusjuhtudest tuvastatakse endoskoopiliselt. Mõnikord võib täheldada pseudodivertiikulitest kollaka sekreeidi eritumist ning sopististe äärised võivad olla ümbritsevast limaskestast veidi kõrgemad ja tuua need paremini esile.

Gastroskoopia võetud proovitükkide histoloogilisel uurimisel leitakse enamasti kas ägedale või kroonilisele põletikule viitavaid muutusi, kuid histoloogilisel haigust kinnitada ei ole võimalik, kuna pseudodivertiikulid on intramuraalsed ja tavalises biopsiapreparaadis nähtavale ei tule (3). Juhul, kui röntgenogrammil visualiseeruvad pseudodivertiikulid, kuid gastroskoopia iseloomulik leid puudub, siis on soovituslik täiendavalt teha kompuutertomograafiline (KT) ning endoskoopiline ultraheli- (EUS) uuring.

KT-uuringul võib täheldada söögitoru seinapaksenemist, ebakorrapärase kuluga valendikku ning intramuraalseid gaasikogumikke. Ka EUS-uuring võib näidata analoogseid muutusi, milleks on söögitoru seinateise ja kolmanda sonograafilise kihi paksenemine ning mitmed intramuraalsed kajavarjud, mis on tingitud õhuga täitunud sopististest söögitoru seinas (9). Täiendavad uuringud on näidustatud ka söögitoru striktuuri olemasolu korral pahaloolumulise kasvaja välistamiseks (3).

Ravi eesmärk on sümptomite leevendamise, kaasuvate haiguste kontrolli ning tüsistuste vältimine. Umbes 10% patsientidest ei vaja mingit ravi. Sageli määratakse PPI, kuna haigusel on leitud seos reflukshaigusega. Kandidoosi korral on

näidustatud antifungaalne ravi. Söögitoru striktuuri olemasolu korral on enamasti vajalik selle endoskoopiline dilateerimine. Korduvate protseduuride tulemusel on oodata haigusnähtude taandumist, ent uuringud on näidanud, et pseudodivertiikulid jäävad siiski alles (1, 3, 6). Ulatusliku haiguse ning ravile mitte alluvate juhtude korral võib osutuda vajalikuks kirurgiline sekkumine (ösofagektoomia) (1, 9). Vaid ühes artiklis kirjeldati komplitseeritud haiguskulu korral alternatiivse variandina kaetud metallstendi paigaldamist, mille korral fikseeriti stent söögitoru endoskoopiliselt õmblustega (10). Kuigi EIPD puhul on täheldatud seost söögitoruvähiga, ei ole praegu konkreetseid juhiseid ega soovitusi, millise intervalliga peaks neid patsiente edaspidi jälgima (1).

ARUTELU JA KOKKUVÕTE

EIPD on vähe uuritud haigus. Puuduvad selged teadmised nii selle etiopatogeneesi, ravivõimaluste kui ka jälgimistaktika kohta. Kirjeldatud patsiendil esines EIPD-le iseloomulikest tunnustest neelamishäire (nii vahelduva kui ka progresseeruva kuluga) ning söögitoru striktuur selle proksiimaalses osas. Anamneesis olid teadaolevate riskiteguritena reflukshaigus ja alkoholi liigtarvitamine. EIPD diagnoosimine on keerukas, kuna haigust tuntakse vähe ning pseudodivertiikulid jäävad endoskoopilisel uuringul tihti peale märkamatuks. Diagnoosi täpsustamisel on olulisemad baarium-kontrastainega söögitoru röntgenogramm ning gastroskoopia, täiendavat infot annavad KT- ja EUS-uuring. Diferentsiaaldiagnostiliselt on oluline välistada pahaloolumuline kasvaja.

Kirjeldatud patsiendil olid pseudodivertiikulid nähtavad nii endoskoopiliselt kui ka röntgenoloogiliselt ning kasvaja välistati nii korduvate biopsiate kui KT-uuringuga. Korduvate gastroskoopiate käigus järjest suurema diameetriga endoskoopide kasutusele võtmisega õnnestus söögitoru valendikku laiendada ja patsiendi kaebusi olulisel määral leevendada. Kuigi balloondilatatsioon kohe vajalikuks ei osutunud, võib tulevikus olla suure tõenäosusega tarvis söögitoru dilateerida. Patsiendile määrati edasiseks raviks PPI ning soovitati alkoholist loobuda. Patsient jäi gastroenteroloogi ambulatoorsele jälgimisele ning korduva endoskoopia vajaduse üle otsustatakse esialgu sõltuvalt sümptomite dünaamikast.

Neelamishäire ja söögitoru diferentsiaal-diagnostikas on ebaselge diagnoosi korral vaja arvestada ka söögitoru pseudodivertikuloosi võimalusega.

VÕIMALIKU HUVIKONFLIKTI DEKLARATSIOON

Artikli autorid kinnitavad, et neil ei esine seoses artikli avaldamisega huvide konflikte.

SUMMARY

Esophageal intramural pseudodiverticulosis as a rare cause of oesophageal stricture: a case report

Signe Vaas¹, Kristi Rusin²

Esophageal intramural pseudodiverticulosis (EIPD) is a rare disease with only about 200 reported cases. It is characterized by multiple flask-shaped outpouchings of the esophageal wall. These lesions are pathologically dilated and inflamed excretory ducts of the submucosal oesophageal glands. Complications include esophageal stricture, bleeding, infections and even perforation. Diagnosis of EIPD is challenging due to lack of awareness of this uncommon disease. The small outpouchings are also likely to be missed on endoscopy. Barium oesophagogram is considered a more sensitive diagnostic modality. We present a rare case of EIPD complicated with esophageal stricture in the upper third of the oesophagus. The studied 78-year-old male with dysphagia had a previous history

of gastro-oesophageal reflux disease and chronic alcohol abuse, which are considered as EIPD risk factors. Pseudodiverticulosis was detected on the barium esophagogram as well as on gastroscopy. The stricture was dilated endoscopically for symptomatic relief. He was prescribed proton pump inhibitors and was advised to abstain from alcohol. Currently there are no guidelines for surveillance of these patients, although some studies suggest the possibility of development of carcinoma. Further studies are required to clarify the etiopathogenesis, and treatment options, and the value of surveillance of EIPD.

KIRJANDUS / REFERENCES

1. Naqvi H, Yousaf MN, Sandhu G, et al. Recurrent Dysphagia Associated with Esophageal Intramural Pseudodiverticulosis. *Case Rep Gastroenterol* 2021;15:551-6.
2. Mendl K, McKay JM, Tanner CH. Intramural diverticulosis of the esophagus and Rokitsansky-Aschoff sinuses in the gall bladder. *Br J Radiol* 1960;33:496-501.
3. Chon YE, Hwang S, Jung KS, et al. A case of esophageal intramural pseudodiverticulosis. *Gut Liver* 2011;5:93-5.
4. Tyberg A, Jodorkovsky D. A Treatment Option for Esophageal Intramural Pseudodiverticulosis. *ACG Case Rep J* 2014;1:134-6.
5. Levine MS, Moolten DN, Herlinger H, et al. Esophageal intramural pseudodiverticulosis: A reevaluation. *Am J Roentgenol*. 1986;147:1165-70.
6. Siba Y, Gorantla S, Gupta A, et al. Esophageal intramural pseudodiverticulosis, a rare cause of food impaction: case report and review of the literature. *Gastroenterol Rep (Oxf)* 2015;3:175-8.
7. Halm U, Lamberts R, Knigge I, et al. Esophageal intramural pseudodiverticulosis: endoscopic diagnosis and therapy. *Dis Esophagus* 2014;27:230-4.
8. Shintaku M, Ohta M, Noguchi A, et al. Esophageal intramural pseudodiverticulosis: a histopathological and immunohistochemical study of 2 cases. *Case Rep Gastroenterol* 2022;16:270-7.
9. Liu SM, Wu HH, Chang KK, et al. Esophageal intramural pseudodiverticulosis complicated with stricture. *J Formos Med Assoc* 2010;109:241-4.
10. Patel K, Chang M, Estrella V, et al. Metal stent placement as treatment for esophageal intramural pseudodiverticulosis: a case report. *Am J Gastroenterol* 2016;111:685-6.

¹ Department of Internal Medicine, University of Tartu, Estonia,
² Internal Medicine Clinic, Tartu University Hospital, Tartu, Estonia

Correspondence to:
Signe Vaas
signe.vaas@gmail.com

Keywords:
swallowing disturbance,
oesophageal stricture,
oesophageal intramural
pseudodiverticulosis