

تظاهر ویژه سندرم بوورت و گزارش یک بیمار

عبدالحسن طلائی زاده^{۱*}، هاشم مؤذن زاده^{**}

چکیده

سندروم بوورت شکل ویژه ای از بروز ایلیوس صفراوی است که در طی آن سنگ کیسه صفرا از طریق یک فیستول به ناحیه آتروم و پره پیلوریک رفته و سبب علائم انسداد راه خروجی معده می شود که اولین بار توسط دکتر لیون بوورت فرانسوی در سال ۱۸۸۳ توضیح داده شده است. این سندروم اغلب در افراد پیر بخصوص زنان رخ می دهد و علاوه بر علائم کلاسیک انسداد راه خروجی معده می تواند طیف گسترده ای از علائم و نشانه های دیگر را نیز ایجاد نماید و یا به صورت های غیر معمول نیز بروز نماید. تشخیص آن غالباً با آندوسکوپی سی تی اسکن و سونو گرافی است. علی رغم استفاده از روشهای متنوع جایگزین غیر جراحی درمان اصلی آن هنوز جراحی است.

در مقاله حاضر تظاهر منحصر به فردی از این سندروم در خانم ۶۲ ساله ای که در آن سنگ صفراوی با حضور در جداره آتروم معده ایجاد علائم انسداد راه خروجی معده نموده و در بررسی های آندوسکوپی و اندو سونوگرافیک نیز به عنوان تومورهای زیر مخاطی استرومائی قلمداد شده بود معرفی می گردد. این بیمار با تشخیص احتمالی تومور استرومائی دیستال معده عمل شده در حین عمل بخاطر چسبندگی شدید آنتر معده و کیسه صفرا و وجود سفتی تومورال در جدار آنتر کله سیستکتومی به همراه دیستال گاسترکتومی انجام شده است. گزارش پاتولوژی کله سیستیت مزمن و چسبندگی آن به آنتر معده و فیستولیزه شدن سنگ به درون جدار آنتر معده بدون آثار تومور یا بدخیمی گزارش شده است.

م ع پ ۱۳۸۷؛ ۷ (۲): ۲۸۹-۲۸۴

کلید واژه گان: سندرم بوورت، انسداد راه خروجی معده، فیستول کیسه صفرا، کولیک صفراوی

مقدمه

ایلیوسکال می باشد ولی یکی از عوارض بسیار نادر کله سیستیت های مکرر میتواند به شکل ورود سنگ به محل آتروم معده و پره پیلوریک و سبب بروز علائم انسداد راه خروجی معده گردد. این سندرم اولین بار توسط لیون بوورت در فرانسه در سال ۱۸۸۳ شرح داده شده است (۱). این سندرم با بستن مسیر پیلور علائم متنوعی

ایلیوس ناشی از سنگ های صفراوی یکی از عوارض ناشی از کله سیستیت های مکرر حاد است که عملاً ناشی از یک فیستول بین دستگاه گوارش و کیسه صفرا می باشد که از آن طریق سنگ به داخل مسیر گوارشی وارد شده و باعث بروز علائم انسداد گوارشی می شود. شایع ترین محل گیر افتادن سنگ در پشت دریچه

*دانشیار گروه جراحی عمومی، دانشگاه علوم پزشکی جندی شاپور اهواز

**متخصص جراحی عمومی

۱- نویسنده مسؤل: Email: Talaiezhadeh@yahoo.com

ولی در محل آن سایه های خلفی گزارش شده و مجاری صفراوی داخل کبدی تغییر اندازه نداشته ولی در قسمت خارج کبدی متسع و حاوی اکوژنیستی های شناور بوده که سنگ های CBD را مطرح کرده است. در بررسی های آزمایشگاهی بیلی روبین، CBC و LFT نرمال گزارش شده ولی ESR مختصری افزایش یافته بود.

بخاطر استفراغهای مکرر، بیمار تحت آندوسکوپی فوقانی قرار می گیرد که یک توده ساب موکوزال حاوی اثر فشاری در ناحیه آنتر معده گزارش می کند. بیوپسی مخاط معده گاستریت خفیف مزمن بدون آثار بدخیمی یا آلودگی با میکروب H.P گزارش می شود. بهمین دلیل جهت بیمار درخواست آندوسونوگرافی می شود که در ناحیه آنتر یک توده هیپو اکو زیر مخاط در لایه های عضلانی به ابعاد ۲×۲/۵ سانتی متر گزارش می کند که حاوی کلسیفیکاسیونهای سطحی بوده و احتمال تومورهای استرومائی (GIST) را مطرح می کند. در این بررسی آندوسکوپی یک مجاری صفراوی و عروق پورت و سایر قسمت ها نرمال گزارش شده است. نمونه برداری سوزنی بصورت FNA از ضایعه انجام می شود. جواب پاتولوژی التهاب خفیف مزمن بدون شواهد بدخیمی گزارش شده است. برای بیمار درخواست CT اسکن اسپیرال با کنتراست شکم میشود که کیسه صفرا کتراکته با جدار ضخیم و نامنظم به همراه چسبندگی به قدام پیلور با یک ضایعه هیپودنسی به ابعاد ۲۵ میلی متر در این ناحیه گزارش شده که احتمال کانسر کیسه صفرا با گسترش به اطراف را مطرح کرده است (شکل ۱). در این CT اسکن مجاری صفراوی خارج کبدی را متسع گزارش کرده لذا در خواست ERCP جهت بیمار داده می شود (شکل ۲). در ERCP انجام شده مجاری صفراوی خارج کبدی متسع گزارش شده ولی مجرای سیستیک و کیسه صفرا رؤیت نشده است. که با توجه به آن کله سیستیت و یا کانسر کیسه صفرا و یا کلاتژیو کارسینوم مطرح شده بود.

را ایجاد می نماید. بیش از ۳۰۰ مورد از این سندرم تا به حال گزارش شده که در بیشتر موارد توسط آندوسکوپی، رادیوگرافی با ماده حاجب و سی تی اسکن شکم تشخیص داده شده اند. درمان به شیوه های مختلف شامل خارج سازی توسط آندوسکوپی، لیتو تریپسی آندوسکوپی و جراحی که عمدتاً انترکتومی بوده است انجام شده است.

در این مقاله ضمن معرفی فرم خاصی از سندرم بوورت که در آن سنگ کیسه صفرا در جدار آنتر معده گیر کرده و خود را بصورت تومور استرومائی در این ناحیه نشان داده است را بهمراه استفاده از روش های مختلف تشخیصی موجود توضیح خواهیم داد. در این میان pitfallهای تشخیصی و همینطور تشخیص های افتراقی در چنین مواردی مورد بحث قرار خواهد گرفت.

گزارش مورد

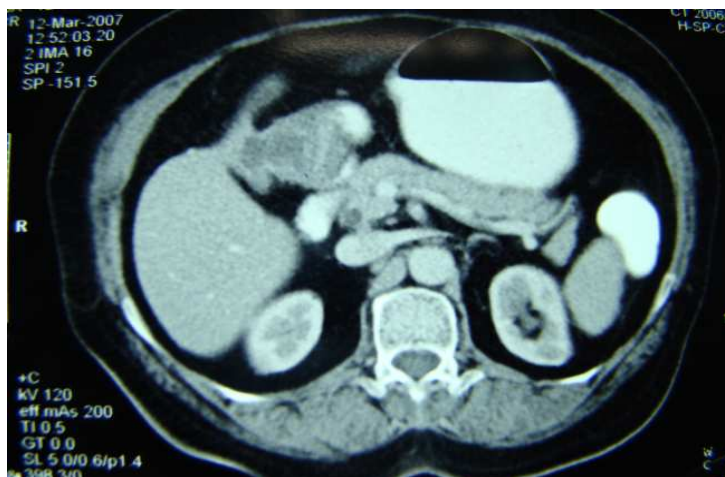
بیمار یک خانم ۶۲ ساله میباشد که با شکایت اصلی تهوع و استفراغ های مکرر مراجعه کرده بودند. علایم بیمار از حدود ۱۵ ماه پیش با دردهای مبهم شکمی در ناحیه اپی گاستریک و RUQ آغاز شده که همراه با تهوع و بدون استفراغ بوده است. دردهای بیمار تدریجاً افزایش یافته و با استفراغ های پس از غذا همراه گردید. این علائم با غذاهای سنگین و چرب بیشتر می شده ولی علایم شاخص کولیک های صفراوی، تغییرات اجابت مزاج و زردی نداشته است.

از حدود سه ماه قبل از مراجعه علایم تشدید شده و استفراغ های پس از خوردن غذا سبب مراجعه مکرر بیمار به اورژانس ها گردیده است. سابقه بیماری خاصی از جمله دیابت، فشارخون بالا، ناراحتی قلبی و کبدی را نداشته است.

بدین جهت بیمار مورد بررسی های تشخیصی گوناگونی قرار می گیرد. ابتدا درخواست سونوگرافی ساده شکم می شود که کیسه صفرا به وضوح دیده نمی شود

جداسازی ساختارهای درگیر و به علت چسبندگی وسیع پس از آزاد کردن کیسه صفرا از زیر کبد اقدام به برداشتن کامل توده به همراه کیسه صفرا و آنتر معده شد. CBD نرمال ولی مختصری متسع به نظر میرسید چون در لمس فاقد سنگ یا توده بود و بیمار هم سابقه زردی نداشت اکسپلور آن صورت نگرفت. ترمیم معده بصورت بیلروت II و گاستروژژنوستومی لوپ رترو کولیک انجام شد. جواب پاتولوژی کله سیستیت مزمن به همراه سنگ ۲×۲ سانتی متری در جدار آنتر معده، التهاب وسیع اطراف کیسه صفرا و نسوج فیبروتیک بدون آثار بدخیمی یا وجود ضایعه تومورال گزارش شده و مخاط معده هم گاستریت مزمن بدون دیس پلازی یا بدخیمی گزارش شده است.

نهایتاً با احتمال تشخیص های افتراقی ۱- تومورهای استرومائی معده (GIST)، ۲- کانسر کیسه صفرا، ۳- کله سیستیت مزمن و ۴- کلانژیو کارسینوم تصمیم به جراحی گرفته میشود. شکم بیمار با برش عرضی مایل به راست باز می شود در بررسی اولیه چسبندگی های شدید به همراه سفیدی در قسمت آنتر معده و لیگامان هپاتودئودنال و کیسه صفرا و زیر کبد مشاهده میشود بطوریکه تفکیک کیسه صفرا و عناصر فوق از همدیگر امکان پذیر نبود. در لمس ناحیه آنتر، وپره پیلوریک یک توده ۳×۴ سانتی متری ثابت بطور عمقی حس می شد بقیه معده نرمال و سایر قسمت های شکم طبیعی بنظر می رسید. با توجه به تشخیص های احتمالی مطرح شده برای بیمار و نیز عدم امکان



شکل ۱: سی تی اسکن بیمار که حاوی توده ای در آنتر معده دارد.



شکل ۲: ERCP بیمار که در آن کیسه صفرا ظاهر نشده است.

بحث

اتساع در مجاری صفراوی خارج کبدی است. یافته های آزمایشگاهی معمولاً قابل توجه نیست مگر در اثر استفراغ های مکرر دهیدراسیون رخ دهد و یا بیمار سپتیک شود. روش های مختلف تصویر نگاری مانند رادیو گرافی ساده شکمی (۶)، سونوگرافی و سی تی اسکن و یا رادیوگرافی با ماده حاجب خوراکی مانند BARIUM MEAL برای تشخیص استفاده شده است. ارزش عکس های ساده در تشخیص سندروم بـوورت زیاد نیست و تشخیص اکثراً توسط آندوسکوپی دستگاه گوارش فوقانی، سی تی اسکن شکمی و یا سونوگرافی مسجل شده است (۳). دیده شدن سنگ در مسیر گوارشی توسط آندوسکوپ و یا تریاد تشخیصی (Rigler triad) به شکل وجود هوا در سیستم صفراوی (PNEUMOBILIA) و وجود سنگ در محل اکتوپیک و وجود اثرات فشاری بر روی دستگاه گوارش به شکل اتساع معده از یافته های تشخیصی در سی تی اسکن شکمی و یا سونوگرافی در موارد معمول سندروم بوده اند ولی این تریاد فقط در یک سوم از موارد دیده می شوند (۴،۵،۱۴). استفاده از ERCP یا MRCP هنوز معمول نشده است (۱۵) در مورد حاضر ERCP اطلاعات ارزشمندی را از وضعیت مجاری صفراوی تهیه نموده است ولی در قطعی نمودن تشخیص کمک نکرده است. در ضمن مورد حاضر تنها گزارش موجود استفاده از سونوگرافی آندوسکوپی است که سنگ را بصورت یک توده کلسیفیه در جدار آنتر معده گزارش کرده است.

در موارد معمول این سندروم به دو شیوه جراحی و غیر جراحی درمان می شود. در صورت مسجل شدن تشخیص از طیف گسترده ای از درمانهای غیر جراحی شامل خارج سازی سنگ از طریق آندوسکوپی (۱۶) استفاده از لیزر برای متلاشی نمودن سنگ (۱۷)، الکتروهیپدرولیک لیتوتریپسی (۱۸)، لیتو تریپسی مکانیکی (۱۹) ESWL (۲۰) و یا ترکیبی از آنها (۲۱،۲۲)

ایلیوس صفراوی یکی از عوارض ناشی از کله سیستیت های مکرر ناشی از سنگ است که در طی آن از طریق یک فیستول بین کیسه صفرا با دستگاه گوارش سنگ به داخل لومن راه یافته و سبب بروز علائم می شود در صورتی که محل خروجی فیستول در ناحیه دئودنوم باشد ممکن است با گیر کردن در پشت دریچه ایلئوسکال ایجاد ایلئوس صفراوی نماید و یا اگر در ناحیه آنتروم معده و پره پیلوریک باشد می تواند سبب بروز علائم انسداد راه خروجی معده گردد که به نام سندروم Bouveret نامیده می شود. این وضعیت در حدود ۱-۳ درصد از موارد ایلیوس صفراوی را شامل میشود (۱،۲،۳). این بیماری در افراد مسن بخصوص زنان و با علائمی مانند درد های شکمی حاد یا مزمن، تهوع و یا استفراغ های پس از غذا که بر اساس شدت انسداد متفاوت است بروز مینماید (۱،۲،۳). البته بیماری میتواند به اشکال دیگر مانند خونریزی در دستگاه گوارشی فوقانی (حتی بدون هماتمز) (۴،۵) و یا پانکراتیت (۷) بروز نماید. گاهی اوقات سنگ می تواند در قسمتهای دیستال دئودنوم مانند D4 گیر کند و باعث علامت شود (۸). سنگهای صفراوی می توانند بصورت منفرد یا متعدد (۹)، خودشان یا بزوار اطراف آنها باعث علائم انسدادی بشوند (۱۰،۱۱،۱۲). در مواردی جابجایی خود به خودی سنگ نیز مشاهده شده است که یا به سمت دیستال رفته و سبب انسداد روده کوچک شده است (۱۰،۱۳) و یا به بیرون استفراغ شده است (۱۱).

از لحاظ معاینات فیزیکی بیماران بسته به وضعیت سنگ و محل درگیری آن و حاد یا مزمن بودن دارای علائم متفاوت هستند و می توانند از قابل توجه نبودن یافته ها تا وضعیت شوک و یا سپسیس متغیر باشند. ولی علائم شایع آن حساسیت شکم در ناحیه RUQ و اپیگاستریک، دیستانسیون سردل و تب است (۲). نکته جالب در مورد حاضر عدم بروز زردی علیرغم بروز

به طور کلی تشخیص سندرم بوورت هم به علت نادر بودن وقوع آن و نیز غیر قابل پیش بینی بودن سیر آن که بستگی به محل فیستول و میزان پیشرفت آن دارد، بدون به کار گیری تکنولوژی تشخیصی بسیار مشکل است خصوصاً در صورتی که مانند مورد حاضر نفوذ به داخل لومن رخ نداده و فقط اثرات آن دیده می شود. آگاهی از وجود این بیماری و تنوع رفتاری آن و نیز شک تشخیصی قوی در افراد پیر (بخصوص زنان) که با علائم انسداد خروجی معده و یا توده های آنتروم مراجعه می کنند می تواند تشخیص را ممکن سازد. تشخیص های افتراقی این سندرم بخصوص در سن شایع آن، بیماری های مهم دستگاه گوارش فوقانی مانند کانسر معده، کانسرکیسه صفرا و یا مجاری صفراوی، GISTها و یا لنفوم ها هستند که می توانند بر نحوه تصمیم گیری جراح و نیز سرنوشت بیماران تاثیر مستقیم داشته باشند. کلسیفیکاسیون در توده های این مناطق نیز می تواند علامت هشدار مناسبی برای حضور احتمالی سنگ اکتوییک باشد. با تشخیص دقیق امکان به کارگیری روش های غیر جراحی مختلف در دسترس رادر درمان بوجود می آورد و از انجام جراحی غیر ضروری جلوگیری میکند و یا در صورت انجام جراحی با توجه به تشخیص و دقت حین عمل از گسترش بی دلیل جراحی جلوگیری می کند.

با این حال با توجه به پیچیدگی و گستردگی روند بیماری و وضعیت آناتومیک محل بروز فیستول که علت اصلی مشکل است به نظر می رسد که جراحی هنوز شیوه مطمئن برای درمان این سندرم باشد.

استفاده شده است که اغلب در بیماران با ریسک بالا و وضعیت های خطیر به عنوان جانشین جراحی بوده است که در مواردی پس از جابجائی سنگ با عوارضی مانند تبدیل انسداد دئودنوم به انسداد دیستال همراه شده است. جراحی هنوز درمان اصلی در این سندرم بوده است که در اکثر موارد و نیز در صورت شکست درمان های طبی و یا عارضه دار شدن آنها (۱۹، ۱۳) و یا مانند مورد حاضر که تشخیص مسجل نبوده انجام گردیده است که شامل گاستروتومی یا دئودونوتومی جهت خارج نمودن سنگ به شکل باز و یا لاپاروسکوپی (۲۳) و یا انترکتومی و برقراری تداوم گوارشی به روش های مختلف بوده است. برداشتن کیسه صفرا در اکثر موارد در صورت امکان همزمان صورت می گرفته است.

درمان های جراحی قبلاً با مرگ و میر و موربیدیتی بالائی (۳۵ درصد) همراه بوده اند که در عرض دو دهه اخیر به نصف تا یک سوم کاهش یافته است. به نظر می رسد این وضعیت بخاطر سن بالای بیماران و اختلال فیزیولوژیک حاصل از انسداد باشد (۱).

مورد حاضر در بین حدود ۳۰۰ مورد گزارش از سندرم Bouveret اولین گزارش از بروز علائم سندرم بوورت بدون عبور کامل سنگ از دیواره دستگاه گوارش است. تنها مورد نسبتاً مشابه مربوط به گزارشی است که در حین انجام کله سیستکتومی جهت بیماری که با علائم مشخص کله سیستیت مراجعه نموده توده ای حاوی سنگ کیسه صفرا در لایه های عضلانی آنتروم یافت شده است (۲۴). این مشخص میکند که سندرم می تواند طیف گسترده ای داشته باشد.

منابع

- 1-Frattaroli FM, Reggio D, Gaudalaxara A, Illomei G, Lomanto D, Pappalardo G. Bouveret's syndrome: case report and review of the literature. *Hepatogastroenterol* 1997; 44:1019-22.
- 2-Lowe AS, Stephenson S, Kay CL, May J. Duodenal obstruction by gallstones (Bouveret's syndrome): a review of the literature. *Endoscopy* 2005;37(1): 82-7
- 3-Mitchell S, Cappell M, Davis DO. Characterization of Bouveret's Syndrome: A comprehensive review of 128 cases. *Am J Gastroenterol* 2006; 101 (9): 2139-46.

- 4- Waghlikar GD, Ibrarullah M Bouveret's syndrome: An unusual cause of spontaneous resolution of gastric outlet obstruction. *Indi J Gastroenterol* 2004; 3 (3): 109-10.
- 5- Bianchi C, Magistrelli P, Ansaldo V. A rare case of Bouveret's syndrome presenting with upper gastrointestinal bleeding. *Chir Ital* 2006; 58 (4): 525-9
- 6- Rigler L, Bormay C, Noble J. Gallstone obstruction pathogenesis and roentgen manifestations. *JAMA* 1941; 117:1753-9.
- 7- Sica GS, Sileri P, Gaspari AL. Laparoscopic treatment of Bouveret's syndrome presenting as acute pancreatitis. *JLS*. 2005; 9 (4): 472-5.
- 8- Harthun NL, Long SM, Wilson W, Choudhury A- An unusual case of Bouveret's syndrome *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2002; 2(1): 69-72.
- 9- Tan YM, Yeo AW, Wong CY. Multiple giant duodenal gallstones causing gastric outlet obstruction: Bouveret's minefield revisited. *Hepatogastroenterol* 2003; 50 (54):1975-7.
- 10- Alsolaiman MM, Reitz C, Nawras AT, Rodgers JB, Maliakkal BJ. Bouveret's syndrome complicated by distal gallstone ileus after laser lithotripsy using Holmium: YAG laser. *BMC Gastroenterol* 2002; 2:15.
- 11- Baako BN, Badoe EA. Gallstone impaction in the duodenal bulb: an uncommon cause of gastric outlet obstruction associated with gallstone emesis. *West Afr J Med* 1998;17 (2): 124-7.
- 12- Tadros GM, Draganescu JM, Clarke LE, Alborno MA. Intra-gastric gallstone-induced bezoar: an unusual cause of acute gastric outlet obstruction. *South Med J*. 2002; 95(2): 261-4.
- 13- Yau KK, Siu WT, Tsui KK. Migrating gallstone: from Bouveret's syndrome to distal small bowel obstruction. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2006;16 (3): 256-60
- 14- Pickhardt PJ, Bhalla S, Balfe DM. Acquired gastrointestinal fistulas: classification, etiologies, and imaging evaluation. *Radiol* 2002; 224: 9-23.
- 15- Pickhardt PJ, Friedland JA, Hruza DS, Fisher AJ. CT, MR cholangio-pancreatography, and endoscopy findings in Bouveret's syndrome. *AJR Am J Roentgenol* 2003; 180:1033-35.
- 16- Schweiger F, Shinder R. Duodenal obstruction by a gallstone (Bouveret's syndrome) managed by endoscopic stone extraction: a case report and review. *Can J Gastroenterol* 1997; 11:493-496
- 17- Goldstein EB, Savel RH, Pachter HL, Cohen J, Shamamian P. Successful treatment of Bouveret syndrome using holmium: YAG laser lithotripsy. *Am Surg*. 2005 Oct;71(10):882-5.
- 18- Apel D, Jakobs R, Benz C, Martin WR, Riemann JF. Electrohydraulic lithotripsy treatment of gallstone after disimpaction of the stone from the duodenal bulb (Bouveret's syndrome). *Ital J Gastroenterol Hepatol* 1999; 31(9):876-9
- 19- Afzal M, Ghosh D, Leigh. Mechanical lithotripsy for Bouveret's syndrome. *Gut*. 2007 ; 56 (5):733-4
- 20- Gemmel C, Weickert U, Eickhoff A, Schilling D, Riemann JF. Successful treatment of gallstone ileus (Bouveret's syndrome) by using extracorporeal shock wave lithotripsy and argon plasma coagulation. *Gastrointest Endosc*. 2007 Jan;65(1):17
- 21- Dumonceau JM, Delhaye M, Deviere J, Baize M, Cremer M. Endoscopic treatment of gastric outlet obstruction caused by a gallstone (Bouveret's syndrome) after extracorporeal shock-wave lithotripsy. *Endoscopy*. 1997; 29 (4): 319-21.
- 22- Gencosmanoglu R, Inceoglu R, Baysal C, Akansel S, Tozun N. Bouveret's syndrome complicated by a distal gallstone ileus *World J Gastroenterol* 2003; 9 (12): 2873-5.
- 23- Malvaux P, Degolla R, De Saint-Hubert M, Farchakh E, Hauters P. Laparoscopic treatment of a gastric outlet obstruction caused by a gallstone (Bouveret's syndrome). *Surg Endosc* 2002; 16 (7):1108-9.
- 24- Sarda AK, Bhalla SA, Lal P, Neogi S. Unusual presentation of Bouveret's syndrome. *Indian J Surg* 2006; 30: 68:224-224