

·专题·儿童胰腺外科·

儿童环状胰腺手术后复发性胰腺炎二例
并文献复习

全文二维码



开放科学码

谢华伟¹ 王继恒² 王 政¹ 刘 钢¹ 申 州¹
邢国栋¹ 张 璟¹ 夏 俏¹ 黄柳明¹

【摘要】 目的 探讨儿童环状胰腺手术后复发性胰腺炎的治疗策略。**方法** 回顾性分析中国人民解放军总医院第七医学中心附属八一儿童医院收治的 2 例行环状胰腺十二指肠菱形吻合术后 3 年余,出现复发性胰腺炎患者的临床资料,并对相关文献进行分析。**结果** 2 例经保守治疗 7 d 后胰腺炎症状消失,于气管插管全身麻醉下行内镜诊治,实施经内镜胰胆管造影术(endoscopic cholangiopancreatography, ERCP),后置入胰管支架,术后 1 年、3 年均未见胰腺炎复发,未更换或取出胰管支架管。对 2 篇儿童环状胰腺手术后复发性胰腺炎的英文文献进行分析,共纳入 7 例患者,年龄 21 个月至 10 岁;采用 ERCP 治疗成功 4 例,失败 1 例;最终常规手术治疗 6 例,放弃治疗 1 例;随访 11 ~ 54 个月,均未见胰腺炎复发。**结论** 儿童环状胰腺十二指肠旁路手术后出现复发性胰腺炎需明确是否伴发胰胆管畸形,依据随访结果采取不同的治疗策略。

【关键词】 胰腺/畸形;胰腺疾病/外科学;胰腺炎/并发症

【中图分类号】 R657.51 R725.76 R726.575

Two cases of recurrent pancreatitis in children with annular pancreas after operation and literature review. Xie Huawei¹, Wang Jiheng², Wang Zheng¹, Liu Gang¹, Shen Zhou¹, Xing Guodong¹, Zhang Jing¹, Xia Qiao¹, Huang Liuming¹. 1. Department of pediatric surgery, Bayi Children's Hospital, Seventh Medical Center of PLA General Hospital, Beijing 100700, China; 2. Department of Gastroenterology, Seventh Medical Center of PLA General Hospital, Beijing 100700, China.

【Abstract】 Objective Combining the literature to investigate the treatment strategy of recurrent pancreatitis in children with annular pancreas after operation. **Methods** The clinical and follow-up data of 2 patients with recurrent pancreatitis after duodenoduodenostomy were retrospectively analyzed, and the relevant literature was reviewed and analyzed. **Results** After conservative treatment for one week, the symptoms of pancreatitis disappeared in 2 children, and endoscopic diagnosis and treatment were performed under general anesthesia. Endoscopic cholangiopancreatography (ERCP) were performed, followed by placement of pancreatic duct stents. No episodes of pancreatitis were observed and no pancreatic duct stents were replaced or removed during the postoperative follow-up period of 1 year and 3 years. At the same time, an English literature including 7 children aged from 21 months to 10 years was analyzed. Four cases were successfully treated with ERCP and 1 case failed. In the end, conventional surgical treatments were performed in 5 cases and abandoned in 1 case. The follow-up period was 11 - 54 months, and no recurrence of pancreatitis was observed. **Conclusion** If recurrent pancreatitis occurs after duodenal bypass surgery in children, it is necessary to determine whether annular pancreas is accompanied by cholangiopancreatosis, and different treatment strategies should be adopted according to the results.

【Key words】 Pancreas/AB; Pancreatic Diseases/SU; Pancreatitis/CO

DOI:10.12260/lcxewkzz.2021.07.004

基金项目:军队创新重点项目(编号:16JS001)

作者单位:1. 中国人民解放军总医院第七医学中心附属八一儿童医院儿童基础外科(北京市,100700); 2. 中国人民解放军总医院第七医学中心消化内科(北京市,100700)

通信作者:黄柳明, Email: surhlm@126.com

环状胰腺是由环形胰腺组织部分或全部环绕十二指肠降段引起的先天性畸形,临床症状多发生于新生儿期,主要表现为胰腺卡压十二指肠引起梗阻症状,多采用十二指肠菱形吻合术治疗。通常认为行十二指肠旁路手术后,患者病症可随之解除,

但是环状胰腺可能合并胰胆管发育畸形,从而出现相关临床症状,如胰腺炎、胆管炎、胆囊癌等。尽管这种情况极其少见,但临床上仍需引起重视,特别是对于出现胰腺炎或胆管炎者,需进一步检查明确是否合并胰胆管畸形,并予以相应的手术处理。中国人民解放军总医院第七医学中心附属八一儿童医院近年来收治环状胰腺手术后复发性胰腺炎2例,并结合文献,总结其治疗经验。

材料与方法

一、临床资料

病例1,女,3岁10个月,因“反复上腹部疼痛3个月”于2019年12月入院。患者曾于出生后3d因十二指肠梗阻在当地医院行腹腔镜探查术及开腹十二指肠菱形吻合术,术中确诊为环状胰腺。本次入院前3个月出现上腹部疼痛、纳差,腹部疼痛以中腹部为著,就诊于当地医院,血清胰淀粉酶增高至1017 U/L(正常参考值36~128 U/L);血常规:WBC $13.5 \times 10^9/L$,中性粒细胞0.78;腹部B超检查提示胰腺增大,胆总管、肝内胆管稍扩张,诊断为胰腺炎,经对症治疗后好转,但仍反复发作。

病例2,男,3岁2个月,因“反复上腹部疼痛1月余”于2017年11月入院。该患者病史与病例1类似,外院查血清胰淀粉酶增高至849 U/L(正常范围0~100 U/L),尿淀粉酶2626 U/L,腹部B超检查提示胰头部扩张胰管末端可见21 mm×8 mm的

不均匀高回声团块,后方伴弱声影,胰腺体尾部胰管宽5 mm,胰腺实质回声欠均,诊断为胰腺炎,同样经保守治疗后症状缓解,进食后腹痛症状再次出现,转入本院治疗。

二、治疗方法

2例均诊断为胰腺炎(上腹部疼痛及血淀粉酶超过正常上限的3倍,影像学检查发现存在胰腺异常),入院后继续予以禁食、抑酸、抑酶、补液等对症支持治疗,并经外周血管穿刺中心静脉管置术(peripherally inserted central catheter, PICC)留置PICC管以保证肠外营养补给,治疗7d后腹痛完全缓解,血清淀粉酶正常。分别于2017年11月14日和2019年12月31日行气管插管全身麻醉下手术,患者下身均铺设铅衣以保护性腺,采用日本奥林巴斯TJF260型十二指肠镜,当镜头抵达扩张的十二指肠腔内时,可看到狭窄的原十二指肠腔和菱形吻合术后形成的肠腔(图1A),于狭窄肠腔内找到乳头(图1B),此时X线透视下可见十二指肠镜处于长镜身状态,无论行胆管或是胰管造影都很困难,需反复尝试才能使导丝完全进入胰管,然后将长镜身调整为适合内镜下逆行胰胆管造影术(endoscopic retrograde cholangiopancreatography, ERCP)操作的短镜身状态,再进行网篮取石、胰管支架放置。术中可明确胰管呈环形(图1C),可见胰管内存在较多泥沙样乳白色结石,取出后放置5Fr胰管支架,支架管呈环形(图1D)。

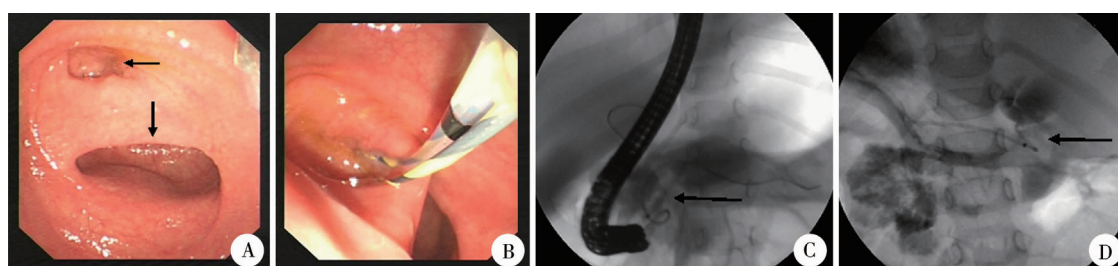


图1 儿童环状胰腺患者造影结果图 A:狭窄肠管及吻合口肠管(箭头处); B:狭窄肠管内找到十二指肠乳头; C:胰管起始部呈环状(箭头处); D:胰管支架管起始部呈环状(箭头处)

Fig.1 Results of circular pancreatography in children

十二指肠镜通过咽部、贲门和幽门的操作必须谨慎。由于2例均为环状胰腺十二指肠菱形吻合术后患者,十二指肠降部狭窄仍旧存在,只能在患者相对扩大的十二指肠球腔寻找乳头。其中病例1的乳头正好位于环状胰腺狭窄处上方,由于操作空间狭小,内镜操作时不能像常规ERCP一样插管,只能采用类似于长镜身状态下的胰管插管造影。病例2的十二指肠乳头正好位于狭窄肠段内,不能很好地

暴露,此时只能在长镜身状态下使用导丝通过狭窄段,利用导丝的张力略微扩张十二指肠狭窄段,使十二指肠乳头暴露后,才能进行胰管插管。需要注意的是,长镜身状态对患者十二指肠牵拉力量强,因此必须小心操作,还应尽可能缩短ERCP时间,以尽快完成内镜治疗,减轻对肠管的潜在损伤。

三、文献检索

通过 Pubmed、Medline、中国知网、万方知识数

据服务平台对中英文文献进行检索。英文文献检索关键词为“annular pancreas”、“pancreatitis”和“pancreaticobiliary malformation”;中文文献检索关键词为“环状胰腺”、“胰腺炎”和“胰胆管畸形”。检索时间截至 2020 年 6 月。排除标准:①年龄 > 18 岁;②未行十二指肠旁路手术;③文献中对患者

临床资料无具体描述或描述不清。对纳入研究病例的一般情况、治疗和随访的结果进行回顾性分析,最终搜索到符合要求的英文文献 2 篇,共 7 例环状胰腺手术后复发性胰腺炎患者纳入本研究^[1,2],具体资料见表 1。

表 1 环状胰腺手术后复发性胰腺炎患者基本资料

Table 1 Basic information of the patients

年份	第一作者	性别	年龄	胰腺炎持续时间	胰胆管畸形类型	十二指肠旁路手术类型	手术年龄	常规治疗	内镜诊治
2010	Okuyama	男	3 岁	1 年	胆总管囊肿	十二指肠菱形吻合术	新生儿期	Frey 手术	ERCP
2010	Urushihara	男	4 岁	1 年	胰胆合流异常	十二指肠菱形吻合术	12 d	肝管空肠吻合术	未成功
		男	6 岁	3 年	胰腺分裂	十二指肠菱形吻合术	3 d	胰管空肠吻合术、胆囊切除术及胰管开口成形术	无
		女	21 个月	6 个月	胰胆合流异常,十二指肠憩室	胃空肠吻合术	12 d	肝外胆道切除、肝管及十二指肠空肠吻合及 IDD 袋性缝合术	无
		女	11 岁	2 年	胆总管囊肿	十二指肠菱形吻合术	新生儿期	囊肿造袋术及胰管开口成形术	ERCP 成功
		男	10 岁	3 年	胆总管囊肿	十二指肠菱形吻合术	3 d	放弃治疗	ERCP 成功
		男	6 岁	6 个月	胰腺分裂	十二指肠菱形吻合术	6 d	胰管空肠吻合术	ERCP 成功, EST 未成功
2021	本研究	女	3 岁	1 个月	胰胆合流异常	十二指肠菱形吻合术	3 d	无	成功
		男	3 岁	3 个月	胰胆合流异常	十二指肠菱形吻合术	2 d	无	成功

结 果

本院收治的 2 例患者术后禁食 2 d,继续给予抑酸、抑酶、静脉营养支持治疗,术后 3 d 复查血清淀粉酶正常,然后逐步恢复低脂饮食,饮食正常后出院。术后门诊及电话随访至 2020 年 12 月,随访时间分别为 1 年、3 年,未见胰腺炎复发,无腹痛、呕吐等症状,病例 1 复查超声提示胰管支架管位置良好,无结石及堵塞,亦未更换胰管支架管,病例 2 胰管支架于放置后 26 个月脱落。

文献复习 7 例中 5 例行 ERCP 诊断,其中 1 例未成功。由于均合并胰胆管畸形,除 1 例放弃治疗外,均进行外科手术治疗。手术方式的选择一般遵循同期治疗合并疾病的原则,如合并胆总管囊肿及胰胆合流异常,行囊肿切除和(或)肝管空肠吻合术;出现胰头部胰胆管结石堵塞时可行 Frey 手术;合并胰腺分裂可行胰管开口成形术或胰管空肠吻合术。接受手术治疗的 6 例患者术后均恢复好,随访 11~54 个月,均未见胰腺炎复发。

讨 论

环状胰腺是一种先天性畸形,由胚胎期胰腺始基发育异常或停滞所致^[3]。环状胰腺组织部分或全部环绕十二指肠第二段,可造成十二指肠不同程度的梗阻,也可因环状胰腺胰管与主胰管、胆总管汇合异常出现并发症,如胆管炎、胰腺炎等,甚至出现恶性肿瘤,但也有部分人终生无任何临床症状^[3]。环状胰腺发病率为 5/100 000~15/100 000,依据出现临床症状的年龄可分为儿童型和成人型^[4]。环状胰腺多见于解除十二指肠梗阻治疗的相关报道,术式也从最开始的开腹胃十二指肠旁路手术发展到开腹十二指肠菱形吻合术^[5],再发展到近期的腹腔镜下十二指肠菱形吻合术^[6]。对于解除梗阻,幼儿期多建议采用十二指肠菱形吻合术^[7],成人期多建议采用十二指肠空肠吻合术^[8]。本组 2 例及文献复习中 6 例患者均行十二指肠菱形吻合术,文献复习中 1 例行十二指肠空肠吻合术。

儿童环状胰腺多引起十二指肠梗阻,极少引起胰腺炎^[1,9-12]。国内一篇文献仅于内镜诊治中发现

环状胰腺,但无此症状及治疗的详细描述^[9]。十二指肠旁路手术后出现复发性胰腺炎较罕见。其发病原因可能是胰头部胰管结构紊乱或合并其他胰胆管畸形致胰液引流不畅。综合文献报道,环状胰腺可合并胰胆管畸形,如胆管扩张症(biliary dilatation, BD)、胰胆管合流异常(pancreaticobiliary maljunction, PBM)及胰腺分裂症(pancreas divisum, PD),本研究着重探讨由这三种畸形引起的胰腺炎治疗经验。

随着技术的进步及治疗理念的提升,国内外儿童 ERCP 逐步开展,儿童胰胆管疾病的诊治方面取得重大进步。对于年龄小、体重低、合并胰胆管畸形的患者,开展内镜诊治难度极大。本组 2 例患者年龄分别为 3 岁 10 个月及 3 岁 2 个月,平均体重 14 kg,于本院成人消化内科内镜中心完成手术,术后胰腺炎症状均未复发。文献复习中 5 例患者拟行 ERCP,1 例未成功,成功者 3 例年龄均超过 6 岁^[1],另外 1 例年龄 3 岁 8 个月^[2]。Ohno^[11]报道一例 6 岁患者仅通过反复保守治疗,随访 6 年无复发。Martinez-Bautista^[12]报道一例 11 岁环状胰腺女童出现胰腺炎,保守治疗后好转。因此对于十二指肠旁路手术后复发性胰腺炎的环状胰腺患者可试行内镜下诊治,内镜治疗失败者如未明确合并胰胆管其他畸形,可继续按儿童胰腺炎保守治疗,待患者年龄、体重增长后再行内镜诊治。

环状胰腺合并 BD 及 PBM 者少见。BD 和 PBM 常并存,可伴有短暂、轻微、易复发的胰腺炎,目前均推荐诊断后尽早手术。对存在胆管扩张者可行胆囊切除术、扩张胆管切除和肝管-空肠 Roux-en-Y 式重建术或肝管-十二指肠重建术;对于 PBM 无胆管扩张者,由于胆囊癌发病较普通人高,因此无论成人还是儿童均建议行胆囊切除术^[13]。本组 2 例仅行胰管支架治疗,随访期间未见胰腺炎复发,但考虑到目前对于低龄患者胆囊切除时机尚无明确定论,故本次手术未行胆囊切除。文献复习中 2 例合并 PBM 的患者均合并胆管扩张,均行肝外胆道切除及肝管-空肠 Roux-en-Y 式重建术,这与我国 PBM 治疗的专家共识一致^[13]。文献复习中 3 例仅合并胆管扩张,亦行肝外胆道切除及肝管-空肠 Roux-en-Y 式重建术,1 例行 Frey 手术。因此结合文献报道,对于环状胰腺合并 PBM 或伴有胆管扩张者,治疗上可按以上原则处理。但对于未合并胆管扩张的患者,国内专家共识中并未明确胆囊切除的时机。

环状胰腺合并胰腺分裂症不多见,PD 易出现特

发性胰腺炎,目前普遍认为无症状者无需治疗,症状轻微者可保守治疗,保守治疗无效可内镜治疗或外科手术治疗,但内镜治疗越来越受到推崇^[14,15]。文献复习中 2 例合并胰腺分裂,其中 1 例 6 岁患者因存在 3 年复发性胰腺炎病史,考虑合并慢性胰腺炎行胰管空肠吻合术、胆囊切除术和胰管开口成形术,另外 1 例 6 岁患者存在 6 个月复发性胰腺炎病史,ERCP 明确 PD 诊断但内镜下括约肌切开术(endoscopic sphincterotomy, EST)失败,遂行胰管空肠吻合术及胆囊切除术,该研究团队赞同内镜为 PD 的合适治疗,但更加推荐纵向胰管空肠吻合术(longitudinal pancreaticojejunostomy)^[1]。

通过本院 2 例及文献复习中 7 例患者的诊治过程,本研究有以下体会:在保守治疗胰腺炎的基础上,ERCP 可明确是否合并胰胆管畸形^[16];术中可处理胰管结石,放置胰管支架,胰管疏通后胰腺炎可完全缓解,但需密切随访,因胆管肿瘤发生概率大,必要时可依据原则选择合适时机切除胆囊或行肝管空肠吻合术。对于伴有胆管扩张者可行肝外胆管切除及肝管空肠 Roux-Y 吻合术。虽然合并 PBM 患者胆囊癌发病概率较普通人明显偏高,但儿童期切除胆囊的时机及利弊需进一步权衡。

参考文献

- 1 Urushihara N, Fukumoto K, Fukuzawa H, et al. Recurrent pancreatitis caused by pancreatobiliary anomalies in children with annular pancreas[J]. J Pediatr Surg, 2010, 45(4): 741-746. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2009.05.027.
- 2 Okuyama H, Kubota A, Kawahara H, et al. Frey procedure for chronic pancreatitis in a child with duodenal atresia and complex pancreaticobiliary disorders[J]. Eur J Pediatr Surg, 2010, 20(1): 45-47. DOI: 10.1055/s-0029-1202249.
- 3 Nagpal SJS, Peeraphatdit T, Sannapaneni SK, et al. Clinical spectrum of adult patients with annular pancreas: Findings from a large single institution cohort[J]. Pancreatol, 2019, 19(2): 290-295. DOI: 10.1016/j.pan.2018.12.009.
- 4 Zyromski NJ, Sandoval JA, Pitt HA, et al. Annular pancreas: dramatic differences between children and adults[J]. J Am Coll Surg, 2008, 206(5): 1019-1027. DOI: 10.1016/j.jamcollsurg.2007.12.009.
- 5 Wang D, Kang Q, Shi S, et al. Annular pancreas in China: 9 years' experience from a single center[J]. Pediatr Surg Int, 2018, 34(8): 823-827. DOI: 10.1007/s00383-018-4299-0.
- 6 Wang L, Xue J, Chen Y, et al. Clinical analysis of annular

- pancreas in neonates [J]. Journal of Zhejiang University (Medical Sciences), 2019, 48(5): 481-486. DOI: 10.3785/j.issn.1008-9292.2019.10.03.
- 7 唐华建, 郑锦涛, 李伟燎, 等. V 型瓣菱形吻合合法治疗新生儿环状胰腺的临床研究[J]. 临床小儿外科杂志, 2018, 17(7): 542-546. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2018.07.015.
Tang HJ, Zheng JT, Li WL, et al. Efficacies of modified diamond-shaped anastomosis for neonatal annular pancreas[J]. J Clin Ped Sur, 2018, 17(7): 542-546. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2018.07.015.
 - 8 Chittawadagi B, Senthilnathan P, Jankar SV, et al. Laparoscopic Roux-en Y duodenojejunostomy: A safe and physiological treatment for symptomatic annular pancreas in adults [J]. J Minim Access Surg, 2019, 16(2): 121-125. DOI: 10.4103/jmas.JMAS_245_18.
 - 9 吕涛, 张筱凤. 内镜下逆行胰胆管造影术在儿童胰腺疾病中的应用分析[J]. 中华儿科杂志, 2013, 51(5): 367-370. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0578-1310.2013.05.010.
Lü T, Zhang XF. Analysis of clinical application of endoscopic retrograde cholangiopancreatography for the pancreatic diseases in children [J]. Chin J Pediatr, 2013, 51(5): 367-370. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0578-1310.2013.05.010.
 - 10 Hwang SS, Paik CN, Lee KM, et al. Recurrent acute pancreatitis caused by an annular pancreas in a child [J]. Gastrointest Endosc, 2010, 72(4): 848-849. DOI: 10.1016/j.gie.2010.03.1075.
 - 11 Ohno Y, Kanematsu T. Annular pancreas causing localized recurrent pancreatitis in a child; report of a case [J]. Surg Today, 2008, 38(11): 1052-1055. DOI: 10.1007/s00595-008-3787-6.
 - 12 Martinez-Bautista P, Aguilar-Mena ME, Barbosa-Cruz X, et al. Annular pancreas, cause of abdominal pain; Case report [J]. Rev Med Inst Mex Seguro Soc, 2019, 57(2): 118-123.
 - 13 中华医学会小儿外科学分会新生儿学组, 中华医学会小儿外科学分会肝胆学组. 儿童胰胆管合流异常临床实践专家共识[J]. 中华小儿外科杂志, 2019, 40(6): 481-487. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-3006.2019.06.001.
 - Subspecialty Group of Neonatal Surgery, Branch of Pediatric Surgery, Chinese Medical Association; Subspecialty Group of Pediatric Biliary Surgery, Branch of Pediatric Surgery, Chinese Medical Association. Guidelines for diagnosing and treating pediatric pancreaticobiliary maljunction [J]. Chin J Pediatr Surg, 2019, 40(6): 481-487. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-3006.2019.06.001.
 - 14 黄平晓, 范彦, 狄书杰, 等. 胰腺分裂症的内镜诊治方法及临床价值[J]. 中国内镜杂志, 2019, 25(2): 23-26. DOI: 10.3969/j.issn.1007-1989.2019.02.005.
Huang PX, Fan Y, Di SJ, et al. Endoscopic methods and clinical value on diagnosis and treatment of pancreas divisum [J]. Chin J Endosc, 2019, 25(2): 23-26. DOI: 10.3969/j.issn.1007-1989.2019.02.005.
 - 15 Cote GA, Durkalski-Mauldin VL, Serrano J, et al. SpHincterotomy for Acute Recurrent Pancreatitis Randomized Trial: Rationale, Methodology, and Potential Implications [J]. Pancreas, 2019, 48(8): 1061-1067. DOI: 10.1097/MPA.0000000000001370.
 - 16 Sato N, Shimura T, Kenjo A, et al. Pancreaticobiliary maljunction diagnosed long after laparotomy in the neonatal period for annular pancreas; report of a case [J]. Surg Case Rep, 2019, 5(1): 16. DOI: 10.1186/s40792-019-0572-2.

(收稿日期: 2020-12-01)

本文引用格式: 谢华伟, 王继恒, 王政, 等. 儿童环状胰腺手术后复发性胰腺炎 2 例报告并文献复习 [J]. 临床小儿外科杂志, 2021, 20(7): 619-623. DOI: 10.12260/lexwkzz.2021.07.004.

Citing this article as: Xie HW, Wang JH, Wang Z, et al. Two cases of recurrent pancreatitis in children with annular pancreas after operation and literature review [J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(7): 619-623. DOI: 10.12260/lexwkzz.2021.07.004.

重要提示

近期, 有不法分子冒充本刊编辑给作者发送关于稿件录用或者退稿转投的邮件通知, 给作者造成极大困扰, 也破坏了本刊办刊环境。编辑部特此提示, 本刊所有稿件的处理进展, 请一律通过本刊官网查看或拨打编辑部电话 0731-85356896 咨询, 本刊有且只有唯一官方网址: www.jcps2002.com (http://lexwkzz.paperopen.com/)

本刊编辑部