

# Dubbele pilorus en piloroduodenale fistels

## Twee gevalbeskrywings met bespreking

A. D. KEET, D. J. J. BEZUIDENHOUT

### Summary

Congenital double pylorus is extremely rare; only 2 cases have been found in the English and French literature. Acquired double pylorus occurs more often; up to 1982, 66 cases had been reported. During 6810 consecutive barium meal examinations over a period of 2 years, we diagnosed the condition in 5 patients. Two came to operation, at which the diagnosis was confirmed. These 2 cases are described.

Acquired double pylorus is in reality a short pyloroduodenal fistula situated next to the pylorus, usually on the lesser curvature side. In the majority of cases it results from a pyloric ulcer penetrating into the duodenum. In a minority of cases the primary lesion is a duodenal ulcer penetrating into the pyloric area. Cases initially present with peptic ulcer symptoms. With the formation of the fistula, symptoms may disappear. Some authorities consider this to indicate spontaneous cure of the ulcer, thus obviating the need for further medical or surgical treatment. In the present 2 cases there was no remission of symptoms.

None of the cases has been associated with malignant disease. It is thought that the condition may be recognized more often in future.

*S Afr Med J* 1984; 66: 740-742.

Gevalle van kongenitale dubbele pilorus is uiters skaars. Tot 1971 was daar nog net 1 geval beskryf.<sup>1</sup> Dit is egter twyfelagtig of die letsel in hierdie geval van kongenitale oorsprong was.<sup>2</sup> 'n Ware geval is in 1977 opgeteken.<sup>3</sup> Dit was 'n 30-jarige vrou met 'n geskiedenis van aspirien- en etanolmisbruik en epigastriese pyn. 'n Bariummaal het twee piloriese openings gewys maar gastroskopie het geen abnormaliteit getoon nie. Hoewel daar by operasie nie tekens van aktiewe of vorige ulserasie was nie, is 'n gedeeltelike gastrektomie gedoen. Die reseksiepreparaat het langs die normale pilorus 'n tweede piloriese opening getoon, wat 2 cm lank en 1 cm in deursnit was. Die mukosa en muscularis mucosae van albei pilorusse was normaal, maar by die tweede opening was daar heterotopiese pankreasweefsel in die aangrensende maagwand.

Die pediatriese chirurg Grosfeld *et al.*<sup>4</sup> het al die gevalle van spysverteringskanaalduplikasies wat hulle oor 'n tydperk van 18 jaar teëgekomp het, nagegaan. Hoewel met 'duplikasies' gewoonlik duplikasiesiste in die wand bedoel word, was daar in hierdie reeks geen gevalle van kongenitale dubbele pilorus nie. Dit blyk

dus dat kongenitale dubbele pilorus wel kan voorkom, maar dat dit uiters skaars is.

In teenstelling hiermee is die kondisie bekend as verworwe dubbele pilorus nie so skaars nie, hoewel dit ook betreklik selde voorkom. In hierdie gevalle het die pilorus normaal ontwikkel, maar ontstaan daar tussen die maag en duodenum, langs die normale opening, 'n kort fistel, wat dan die voorkoms van 'n tweede pilorus het. In die meeste gevalle word dit veroorsaak deur 'n piloriese ulkus wat in die duodenum perforereer.<sup>5-9</sup> By uitsondering is die primêre letsel 'n duodenale ulkus wat in die maag perforereer.<sup>6</sup>

Hansen *et al.*<sup>2</sup> het 4 gevalle in 'n reeks van 3500 opeenvolgende gastroskopieë gevind. Hegedus *et al.*<sup>7</sup> het 13 gevalle in 'n reeks van 7932 bariummaalondersoek teëgekomp. Thompson *et al.*<sup>9</sup> het die literatuur tot 1982 nagegaan en 60 gevalbesprekings gevind. Hulle het 6 nuwe gevalle wat hulle gedurende 'n periode van 8 jaar gesien het, bygevoeg. Uit 'n totaal van 6810 bariummale oor 'n tydperk van 2 jaar het ons 5 gevalle radiologies gediagnoseer as verworwe dubbele pilorus. Twee hiervan is geopeer, waardeur die diagnose bevestig is. Hierdie 2 gevalle sal kortliks beskryf word.

Daar word vermoed dat die kondisie meer dikwels voorkom as wat die syfers aandui, en dat dit meer dikwels gediagnoseer sal word namate dit meer bekend word.<sup>2,5,6</sup>

## Gevalbeskrywings

### Geval 1

'n Sewe-en-sestigjarige man is toegelaat met 'n geskiedenis van brandende epigastriese pyn die voorafgaande 4 maande. Dit het 'n paar uur na etes begin, het hom snags wakker gemaak en is deur voedsel en teensure verlig. Soms het dit na die rug versprei. Daar was geen hematemese of melena, en geen misbruik van alkohol of salisilate nie. Twintig jaar tevore het hy dieselfde simptome ondervind. Daar was ook 'n geskiedenis van isgemiese hartsiekte.

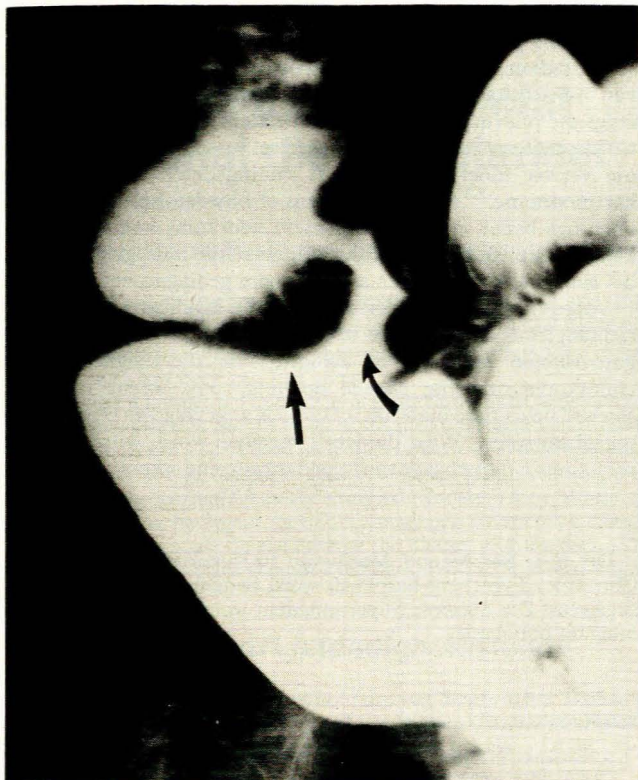
Met ondersoek was daar epigastriese teerheid. 'n Bariummaal wat elders gedoen is, het 'n onreëlmatige vernouing, 3,5 cm lank, in die piloriese deel van die maag gewys (Afb. 1). Dit is as 'n karsinoom geïnterpreteer.

'n Kontrolebariummaal het getoon dat die vernouing in werklikheid 'n ekstra kanaal was wat vanaf die piloriese area tot in die basis van die duodenale bulbus gestrek het. Dit was langs die normale pilorus en posterior daarvan geleë, en dus in noue verhouding tot die pankreas. Die duodenale bulbus was misvormd. Die diagnose van dubbele pilorus, d.w.s. piloroduodenale fistel as gevolg van 'n piloriese ulkus wat in die duodenum geperforeer het, is gemaak.

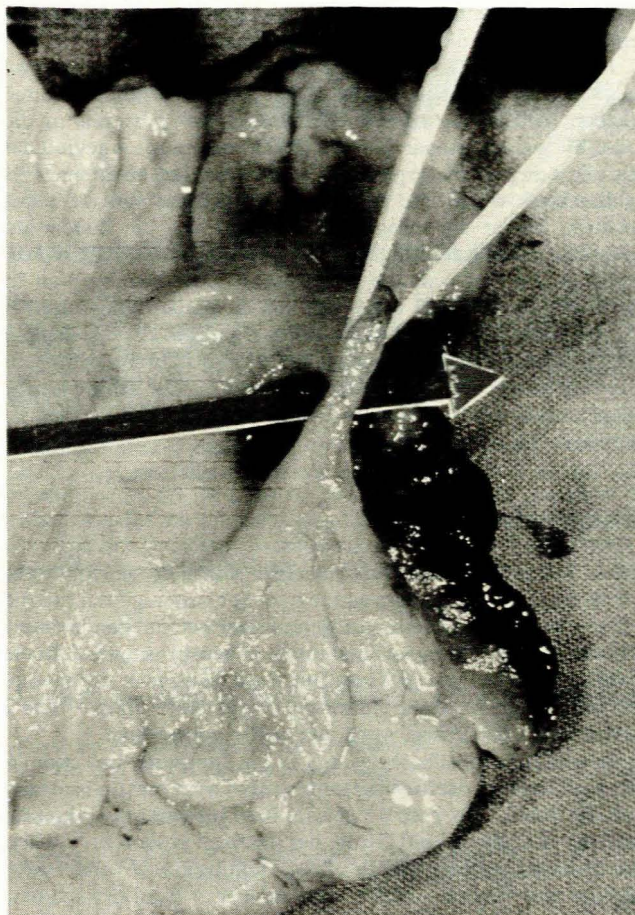
Gastroskopie het 'n goedaardige ulkus wat met nekrotiese materiaal gevul was, in die piloriese area gewys. Dit het in die duodenum geperforeer en die gastroskopie kon deur die pilorus sowel as deur die ulkus tot in die duodenum gemanipuleer word.

Met operasie (dr. E. L. Bower) was daar heelwat reaksie rondom die ulkus, en die duodenum moes van die pankreas losgedissekteer word. 'n Trunkale vagotomie, antrektomie en Billroth I-anastomose is gedoen. Die reseksiemonster het langs die normale pilorus 'n tweede kanaal getoon, wat tussen die maag





Afb. 1. Geval 1 — die krom pyl wys na die onreëlmatige, verworwe kanaal tussen die maag en duodenum; die reguit pyl dui die normale pilorus aan.



Afb. 2. Geval 1 — reseksiepreparaat. Die pyl strek deur die 'verworwe pilorus'. Die normale pilorus is sigbaar agter die pyl.

en die duodenum gestrek het, en sodoende die diagnose van dubbele pilorus bevestig het (Afb. 2).

## Geval 2

'n Vyf-en-vyftigjarige man met 'n geskiedenis van erge epigastriese brandpyn die voorafgaande 4 maande is as buite-pasiënt gespreek. Die pyn het 'n uur na etes begin en is deur alkalië en voedsel verlig. Daar was ook naarheid en eetlus- en gewigsverlies. Hy was 'n strawwe roker en daar was 'n geskiedenis van etanolmisbruik, waarvoor hy van tyd tot tyd in 'n inrigting behandel is, asook van isgemiese hartsiekte en jig. Behalwe die middels vir lg. twee kondisies, het hy ook dikwels aspirien geneem vir sy pynlike gewigte.

Met ondersoek was daar matige hipertensie. Daar was tofi aan die vingers en sommige ander gewigte en teerheid in die epigastrium. 'n Voorlopige diagnose van peptiese ulkus is gemaak, alkalië is voorgeskryf en die epigastriese simptome het spoedig verbeter.

Drie weke later is 'n bariummaal gedoen. Op hierdie stadium het hy nie meer peptiese ulkus-simptome gehad nie. Die foto's het 'n ekstra kanaaltjie langs die pilorus, aan die klein kurwatuurkant, getoon. Dit het vanaf die piloriese area van die maag tot in die basis van die duodenale bulbus gestrek (Afb. 3). Die diagnose van dubbele pilorus, veroorsaak deur 'n fistel tussen die maag en duodenum as gevolg van perforasie van 'n piloriese ulkus, is gemaak. Die duodenale bulbus was misvormd.

Aanvanklik het die pasiënt nie teruggekom vir opvolging nie. Drie maande later is 'n gastrokopie gedoen. Dit het 'n diep ulkus, wat posterior geleë was, in die piloriese deel van die maag gewys. Die piloriese opening self het normaal voorgekom en daar was tekens van duodenitis. Geen uitgangsopening kon met sekerheid in die duodenum gesien word nie, maar die ondersoek was tegnies moeilik weens die fiksasie.



Afb. 3. Geval 2 — die pyl dui die ekstra kanaal tussen maag en duodenum aan. Die normale pilorus is ook sigbaar.

Na 'n skielike hematemeses het hy 'n maand later weer opgedaag en 'n tweede gastrokopie is gedoen. Die pilorusgebied was gefikseer en daar was 'n ulkuskraater met 'n groot bloedsstolsel op dieselfde plek as voorheen. Weens die fiksasie was dit nie



moontlik om die instrument deur die pilorus te manipuleer nie en gevolglik was die duodenum nie sigbaar nie.

Hy het weer weggeby maar is 'n jaar later na 'n massiewe hematemesse toegelaat. Na resussitasie is 'n spoedlaparotomie gedoen (dr. J. Maritz). 'n Ulkusmassa was posterior in die piloriese gebied tasbaar. Na 'n trunkale vagotomie is gevind dat die ulkus diep tot in die pankreas gepeetreer het, en dit moes los gedissekteer word. Die pankreas het die basis van die ulkus gevorm. Nadat die maag en eerste deel van die duodenum gemobiliseer is, was daar geen posterior wand in hierdie deel nie, behalwe die ring van die piloruspier. Die diagnose van 'n gastroduodenale fistel as gevolg van 'n ulkus is bevestig. 'n Antrektomie en Billroth I-anastomose is gedoen. Die histologiese ondersoek het 'n benigne maagulkus, 3 cm in deursnit, wat tot in die peritoneale laag gepeetreer het, gewys. Die aangrensende maagmukosa het 'n chroniese gastritis en intestinale metaplasie getoon.

## Bespreking

Deur bekende gevalle van piloriese ulkus op te volg, was Hegedus *et al.*<sup>7</sup> in staat om aan te toon hoe sommige van hierdie ulkuse later in die duodenum gepeetreer het, om dan 'n ekstra kanaal tussen die maag en duodenum, of 'n sogenaamde dubbele pilorus te vorm. Soos verwag kan word, is daar in die meeste gevalle dus die klassieke simptome van peptiese ulkus.<sup>7,9</sup> Die 2 gevalle wat hier beskryf word, het ook so voorgedoen.

In sommige gevalbeskrywings in die literatuur was daar 'n sterk aanduiding dat die simptome verdwyn het met die ontstaan van die fistel.<sup>7,9</sup> In 7 uit 11 gevalle het Hegedus *et al.*<sup>7</sup> hierdie toedrag van sake gevind. Hulle het die fistel beskou as 'n teken van spontane genesing van die ulkus. Thompson *et al.*<sup>9</sup> onderskryf hierdie bewering en verklaar dat wanneer 'n fistel gevorm het, chirurgiese behandeling nie meer nodig mag wees nie. In die 2 gevalle wat beskryf is, was daar nie 'n geskiedenis van spontane volgehoue verbetering in die teenwoordigheid van 'n fistel nie, en albei gevalle moes chirurgiese behandeling ontvang. Periodes van tydelike verbetering was bes moontlik toe te skryf aan die bekende periodisiteit van peptiese ulkussimptome. Geen geval in

die literatuur, asook die gespesifiseerde 2 gevalle, was met maligniteit geassosieer nie.

Die radiologiese diagnose berus op die kenmerkende voorkoms van 'n ekstra kanaaltjie of opening tussen die maag en duodenum langs die pilorus, gewoonlik aan die klein kurwatuurkant. Daar word genoem dat die band van weefsel tussen die twee openings nie verwar moet word met 'n vullingsdefek as gevolg van karsinoom nie.<sup>5,6</sup> Soms kan edeem of bloedstolsels een van die openings bedek en die radiologiese voorkoms kan dan lyk na karsinoom of siekte van Crohn.<sup>9</sup> Een van die huidige 2 gevalle is bv. aanvanklik radiologies as karsinoom gediagnoseer.

Volgens sommige ondersoekers is dit makliker om die letsel radiologies as gastrokopie te demonstreer.<sup>3,7,9</sup> Volgens ander is gastrokopie verkieslik bo radiologie in die diagnose.<sup>2</sup> Met endoskopie mag die tweede opening soms weens mukosale swelsel, nekrotiese materiaal of fiksasie as gevolg van bindweefsel onsigbaar wees.<sup>7</sup> Waar die letsel vermoed word, word deeglike reiniging en die gebruik van 'n pediatriese endoskoop aangeraai.<sup>8</sup>

Drr. E. L. Bouwer en J. Maritz van die Departement Abdominale Chirurgie, Tygerberg-hospitaal, word bedank vir die operatiewe gegewens. Die Mediese Superintendent word bedank vir toestemming tot publikasie.

## VERWYSINGS

- Christien G, Branthomme J, Volny L, Deschamps P, Morice A. Pyloric double: malformation congénitale. *Sem Hôp Paris* 1971; **47**: 1485-1488.
- Hansen HO, Kronborg O, Pedersen T. The double pylorus. *Scand J Gastroenterol* 1972; **7**: 695-696.
- Sufian S, Ominsky S, Matsumoto T. Congenital double pylorus: a case report and review of the literature. *Gastroenterology* 1977; **73**: 154-157.
- Grosfeld JL, O'Neill JA, Clatworthy HW. Enteric duplications in infancy and childhood: an 18-year review. *Ann Surg* 1970; **172**: 83-90.
- Bender MD, Soffa DJ. Acquired double pylorus: a case report. *Radiology* 1975; **116**: 325-326.
- Engle R. Tunnel ulcer with double pyloric canal. *Radiology* 1975; **116**: 323-324.
- Hegedus V, Paulsen PE, Reichardt J. The natural history of the double pylorus. *Radiology* 1978; **126**: 29-34.
- Tallman JM, Clements JL, Gilliam JH, Weens HS. The multi-channelled pylorus. *Clin Radiol* 1979; **30**: 337-341.
- Thompson WM, Kelvin FM, Gedgaudas RK, Rice RP. Radiologic investigation of peptic ulcer disease. *Radiol Clin North Am* 1982; **20**: 701-720.

## News and Comment/Nuus en Kommentaar

### Cancer deaths in Canada

The most recent figures for mortality in Canada, those for 1982, show that heart disease and cancer continued to be the major causes of death in both sexes, accounting for 69,3% of the total. Lung cancer is the leading cause of cancer deaths among men aged 40 - 84 years and the second or third cause among women of the age group 40 - 74 years. Breast cancer is the first cause of cancer deaths among women aged 30 - 74, and second among older women. In third place or higher, according to the age group, is cancer of the large intestine in both men and women.

### Pas op vir mandibulêre pyn

Pyn en parestesie in die gesig beperk tot die distribusieveld van die mandibulêre senuwee is seldsaam, maar kan op iets ernstigs dui. In 'n reeks van 12 gevalle wat deur Gastaut en Michel beskryf is (*Presse Médicale* 1984; **13**: 1071) het 10 met kwaadaardigheid in verband gestaan. In 2 gevalle is 'n Burkitt-limfoom en in 'n ander leukemie ontdek. Vier pasiënte het borskanker gehad en 1 longkanker wat tot op daardie stadium nog nie bespeur was nie. By 3 geleenthede het die neuralgie trouens die opspring van die onderliggende kanker voorafgegaan.