Hétérotopie gastrique: Étude anatomo-clinique de 12 cas

Ehsen Ben Brahim *, Raja Jouini *, Sana Aboulkacem *, Farouk Jaouadi **, Naceur Labbène *, Raouf chérif **, Youssef Helal ***, Sadok Sayed ***, Anis Ben Maamer **, Aschraf Chadli-Debbiche *

** Service d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques,*
*** Service de Chirurgie générale,*
**** Service de Chirurgie pédiatrique, Hôpital Habib Thameur, Tunis - Université Tunis El Manar*

E. Ben Brahim, R. Jouini, S. Aboulkacem, F. Jaouadi, N. Labbène, R. chérif, Y. Helal, S. Sayed, A. Ben Maamer, A. Chadli-Debbiche

Hétérotopie gastrique: Étude anatomo-clinique de 12 cas

LA TUNISIE MEDICALE - 2011 ; Vol 89 (n°12) : 935 - 939

E. Ben Brahim, R. Jouini, S. Aboulkacem, F. Jaouadi, N. Labbène, R. chérif, Y. Helal, S. Sayed, A. Ben Maamer, A. Chadli-Debbiche

Gastric heterotopia: Clinical and histological study of 12 cases

LA TUNISIE MEDICALE - 2011 ; Vol 89 (n°12) : 935 - 939

RÉSUMÉ

Prérequis : L'hétérotopie gastrique est une lésion congénitale rare, ubiquitaire mais prédominant dans le tube digestif. Son diagnostic est histologique, basé sur la présence d'une muqueuse gastrique, essentiellement fundique. Ce diagnostic pose cependant des problèmes diagnostiques avec une lésion acquise et fréquente dans le tube digestif, la métaplasie gastrique.

Buts : Souligner le lien entre cette affection et les autres malformations digestives, relever les caractéristiques anatomo-cliniques et évolutives de cette lésion ainsi que les problèmes de diagnostic différentiel qu'elle peut poser, notamment avec la métaplasie gastrique.

Méthodes : Cette étude rétrospective a porté sur 12 cas d'hétérotopie gastrique diagnostiqués à l'Hôpital Habib Thameur, sur une période de 12 ans. Les caractéristiques cliniques ont été relevées. Une relecture des lames a été réalisée pour tous les cas.

Résultats : Les hétérotopies gastriques siégeaient dans neuf diverticules de Meckel (75% des cas), sur duplication du grêle (1 cas), dans l'œsophage (1 cas) et la vésicule biliaire (1 cas). L'âge moyen était de 16 ans avec un pic de fréquence à la première décade. Le tableau clinique était dominé par un syndrome occlusif et une hémorragie digestive basse. D'autres anomalies congénitales, tel un mésentère commun, un polype hépatique vestigial, une agénésie appendiculaire et une hétérotopie pancréatique, étaient retrouvées. L'examen clé était l'étude histologique qui avait montrait une muqueuse fundique dans tous les cas. Le diagnostic différentiel se posait avec des lésions étendues de métaplasie gastrique au niveau du diverticule de Meckel chez un patient atteint d'une maladie de Crohn.

Conclusion : L'hétérotopie gastrique s'associe fréquemment à des anomalies telles un diverticule de Meckel ou une duplication digestive. Son diagnostic repose sur la mise en évidence histologique de glandes fundiques ectopiques, bien organisées. Sa distinction avec une métaplasie gastrique nécessite parfois une confrontation anatomo-clinique.

Mots-clés

Hétérotopie gastrique, métaplasie gastrique, diverticule de Meckel, vésicule biliaire, inlet patch, duplication digestive, étiopathogénie

SUMMARY

Background: Gastric heterotopia is a rare congenital lesion, described everywhere in the body, but involves predominantly the digestive tract. Diagnosis is based on histologic examination and requires the presence of gastric mucosa, especially fundic. This diagnosis is usually easy, but sometimes it can be misinterpreted as gastric metapalsia . This latter is an aquired and frequent lesion of the gastrointestinal tract.

Aims: To determine the relationship between this affection and the other digestive malformations, to describe the clinical characteristics and the evolution of this lesion and to discuss the differential diagnosis particularly the gastric metaplasia.

Methods: Twelve cases of gastric heterotopia were diagnosed over a 12-year period at Habib Thameur Hospital. Clinical data was obtained and all the slides were reviewed.

Results: Nine cases were found in Meckel's diverticulum (75%), one case in intestinal duplication, one case in the esophagus and another in the gallbladder. The mean age of patients at diagnosis was 16 years with a peak of incidence at the first decade of life. Intestinal obstruction and digestive bleeding were the most presenting features. Heterotopic gastric mucosa complicates other congenital anomalies such as common mesentery, vestigial polyp of the liver, appendiceal agenesis and heterotopic pancreas. Differential diagnosis consists in gastric metaplasia was found extensively in a patient with Crohn's disease associated with Meckel's diverticulum.

Conclusion: Gastric heterotopia is frequently associated with congenital anomalies especially with Meckel's diverticulum and digestive duplication. Diagnosis relies on histology, mainly on finding heterotopic fundic glands in normal organizational structure. Sometimes, differentiating between gastric heterotopia and gastric metaplasia requires clinical confrontation.

Key-words

Gastric heterotopia, gastric metaplasia, Meckel's diverticulum, gall bladder, inlet path, digestive duplication, pathogenesis

L'hétérotopie gastrique (HG) est une lésion congénitale rare, de siège ubiquitaire mais prédominant au niveau du tube digestif. Explicité par le mot grec «hétéro» pour autre et «topos» pour siège, elle désigne les tissus différenciés, en l'occurrence gastriques, dans une localisation inhabituelle (1, 2). Son diagnostic est donc histologique. Cette lésion a plusieurs synonymes : ectopie, choristome, entérokystome dans l'estomac et inlet patch dans l'œsophage proximal (2, 3). Elle s'associe fréquemment aux diverticules de Meckel (DM), aux duplications intestinales ou à d'autres malformations digestives.

Les objectifs de ce travail étaient de souligner le lien entre cette affection et les autres malformations digestives comme le DM, relever les caractéristiques anatomo-cliniques et évolutives de cette lésion ainsi que les problèmes de diagnostic différentiel qu'elle peut poser, notamment avec la métaplasie gastrique.

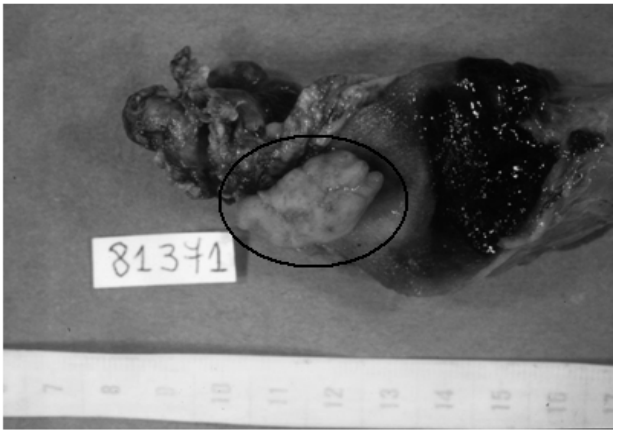
MATERIEL ET METHODES

Ont été inclus dans ce travail tous les DM ainsi que toutes les pièces comportant une muqueuse gastrique ectopique (28 cas), colligé au service d'anatomie et de cytologie pathologiques de l'hôpital Habib Thameur de Tunis sur une période de 12 ans (1997-2008). Après la relecture des lames, nous n'avons retenu que 12 cas répondant à la définition d'une HG. Les paramètres étudiés étaient : le motif de consultation, l'âge, le sexe, les données cliniques, radiologiques, macroscopiques et histologiques, les modalités du traitement chirurgical, l'évolution et les complications.

RESULTATS

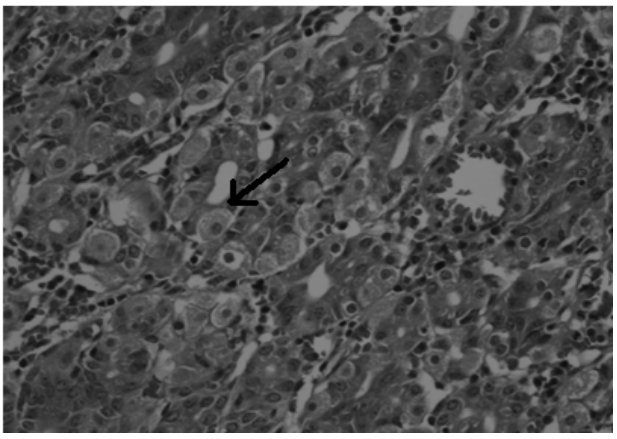
Un cas par an était diagnostiqué, en moyenne, dans notre service. Une légère prédominance masculine, un sex-ratio de 1,4 et un âge moyen de 16 ans (6 mois- 53 ans) étaient notés. La répartition topographique était la suivante : 9 cas dans un diverticule de Meckel (75%), un cas dans une duplication du grêle, un cas dans l'œsophage et un cas dans une vésicule biliaire. Le tableau clinique était dominé par les douleurs abdominales avec arrêt des matières et des gaz (44%) et l'hémorragie digestive basse (44%). La découverte était fortuite dans les autres cas (3 cas de DM, un cas de duplication intestinale et un cas de cholécystite chronique lithiasique). Sur le plan radiologique, l'échographie abdominale avait évoqué un mésentère commun chez un malade. La scintigraphie digestive au Tc99m, réalisée chez quatre nourrissons présentant une hémorragie digestive basse, avait détecté une muqueuse gastrique ectopique dans tous les cas. La fibroscopie oeso-gastrique, réalisée chez une patiente âgée de 26 ans présentant des épigastralgies, avait visualisé, à 28 cm des arcades dentaires, en pleine muqueuse œsophagienne, une plage de muqueuse blanchâtre évoquant une hétérotopie gastrique. A l'examen macroscopique, les neuf DM mesuraient entre 1 et 6 cm de long, la dernière anse iléale était épaissie et sténosée chez le patient crohnien, avec une muqueuse d'aspect ulcéré, en pavé à l'ouverture. Le segment dupliqué était tubuleux, à lumière rétrécie chez le nourrisson. La vésicule biliaire était distendue, comportant, à l'ouverture, une lithiase noirâtre enclavée dans le collet et un polype sessile de 2.5x1.5x1.5 cm, dans la région infundibulaire (figure 1).

Figure 1 : Formation polypoïde dans la vésicule biliaire



L'étude histologique montrait, dans le chorion de la muqueuse intestinale, des lobules d'abondance variable, de glandes gastriques ectopiques, allant de petits foyer millimétriques à des zones plus étendues sur quelques centimètres. Il s'agissait de glandes tubuleuses et allongées, de type fundique pur, composées de trois types de cellules (mucosécrétantes, pariétales et principales) dans 7 cas (60%) (figure 2).

Figure 2 : Hétérotopie fundique dans un DM : (→) cellules pariétales (hématoxyline-éosine x 100)



Une muqueuse antrale pure, aux glandes composées essentiellement de cellules muqueuses, était observée dans 3 cas, à proximité de la muqueuse fundique. La muqueuse ectopique était mixte, de type antrofundique dans 5 cas (40%). Des ulcérations de la muqueuse étaient par ailleurs observées dans 5 DM (40% des cas). Ces ulcérations étaient fissuraires, étendues et associées à des nodules lymphoïdes, une sclérolipomatose et à de larges foyers de métaplasie antrale,

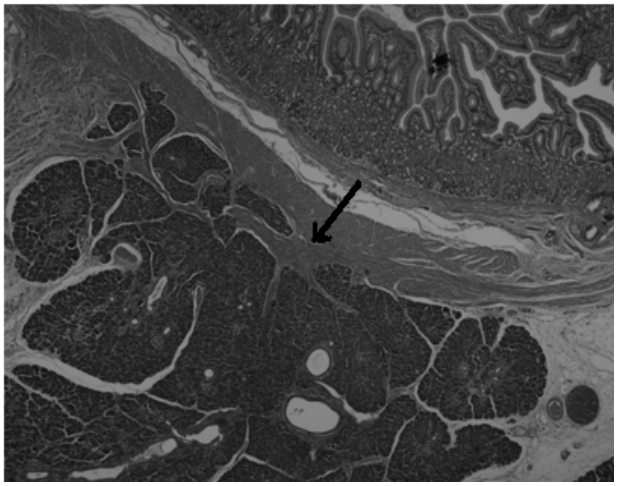
Tableau 1 : Récapitulatif des 12 observations d'hétérotopie gastrique

Cas	Sexe / âge	siège	Lésions associées	Tableau clinique	Examen radiologique	Examen histologique
1	♀ / 15 mois	iléon	DM Mésentère commun Polype hépatique vestigial	Mélénas+ douleurs abdominales + fièvre	Scintigraphie digestive : aspect fortement évocateur d'une muqueuse gastrique ectopique	HG antro-fundique sur DM. - hétérotopie pancréatique - Polype hépatique vestigial.
2	♂ / 2 ans et 4 mois	Iléon	DM	Inflammation de l'ombilic	Echographie abdominale : normale	HG fundique sur DM
3	♂ / 20 mois	Iléon	DM	Rectorragies	Scintigraphie digestive : aspect évocateur d'un DM	HG fundique sur DM
4	♂ / 9 mois	Iléon	DM	AMG + rectorragies	Scintigraphie digestive : foyer d'hyperfixation en faveur d'une muqueuse gastrique	HG antro-fundique sur DM
5	♂ / 51 ans	Iléon	DM	éventration sur cicatrice	Echographie abdominale : kystes du rein	HG fundique sur DM
6	♂ / 16 ans	Iléon	DM	Douleur isolée de la FID	ASP: NHA de type grêlique	HG antro-fundique sur DM appendicite aigue, suppurée
7	♂ / 5 ans	Iléon	DM	AMG + rectorragies	ASP: NHA de type grêlique	HG fundique sur DM
8	♀ / 16 ans	Iléon	DM	Vomissements + AMG + fièvre	ASP: NHA de type grêlique	HG antro-fundique sur DM
9	♂ / 54 ans	Iléon	DM Maladie de Crohn	maladie de Crohn iléo-caecale depuis 2002. AMG + fièvre	ASP: NHA grêlique Entéroscanner : épaississement pariétal des dernières anses	HG antro-fundique sur DM
10	♀ / 6 mois	iléon	Duplication intestinale	Rectorragies + état de choc	scintigraphie digestive Tc 99m ⁻ négative	HG antro-fundique sur duplication intestinale
11	♀ / 26 ans	œsophage	//	épigastralgies.	FOGD : plage de muqueuse blanchâtre, d'allure gastrique en pleine muqueuse oesophagienne, à 28 cm des AD évoquant une HG	HG antro-fundique
12	♂ / 21 ans	vésicule biliaire	Lithiase biliaire	Douleurs de l'hypochondre droit + fièvre	L'échographie : formation solide immobile de l'infundibulum,	HG antro-fundique Métaplasie antrale Métaplasie intestinale

HG : hétérotopie gastrique, DM : diverticule de Meckel, AMG : arrêt des matières et des gaz, FID : fosse iliaque droite, ASP : abdomen sans préparation, NHA : niveaux hydro-aérique, FOGD : fibroscopie oeso-gastro-duodénale

sans glandes fundiques au niveau du DM chez le patient présentant une maladie de Crohn. Le contexte de maladie de Crohn avait fait discuter la nature métaplasique des foyers de muqueuse gastrique au niveau du DM. Cependant, la nature fundique ainsi que la bonne organisation des glandes avaient permis de retenir l'origine hétérotopique de cette lésion seulement au niveau du DM. Une hétérotopie pancréatique était observée dans 2 DM (figure 3). La recherche d'Hélicobacter pylori dans la muqueuse gastrique ectopique était négative. Le traitement était chirurgical dans 11 cas: résection anastomose emportant le DM (10 cas), segment dupliqué (1 cas), segment pathologique dans la maladie de crohn (1 cas), cholécystectomie (1 cas). Le traitement était médical dans le cas de l'HG oesophagienne. Le tableau 1 résume les 12 observations d'HG.

Figure 3 :Hétérotopie pancréatique associée à l'HG dans un DM (hématoxyline-éosinex40)



DISCUSSION

L'endoderme de l'intestin primitif du fœtus est à l'origine des tractus digestif et biliaire. Il comporte des cellules embryonnaires pluripotentes qui vont se différencier et donner l'épithélium glandulaire. Cet épithélium possède des potentialités, notamment celle de se différencier en n'importe quel autre tissu glandulaire. C'est ainsi que les cellules embryonnaires en trappées dans les tissus de voisinage pendant les mouvements de morphogenèse, par exemple lors de l'involution du canal vitellin vont donner des vestiges embryonnaires, voire des lésions malformatives digestives comportant une muqueuse gastrique hétérotopique, constituée de glandes matures, bien organisées (4, 5).

L'HG siège le plus souvent dans le bulbe duodénal et l'œsophage. Les autres localisations digestives (buccale, colique, rectale, biliaire…) et extra digestives (pharynx, peau, cœur…) sont plus rares, rapportées dans la littérature sous forme de cas sporadiques.

Dans le DM, qui touche essentiellement les garçons âgés de moins de 10 ans (80% des cas) (6), l'hétérotopie tissulaire est fréquente, de type gastrique dans 43 à 80% des cas (4). Elle est découverte au stade de complications dans 41 à 57% des cas: syndrome occlusif (33%), ulcération peptique (30%) due à l'activité physiologique des glandes gastriques, hémorragie digestive basse d'abondance variable (25%), plus rarement fièvre ou anomalies ombilicales associées (7). La découverte est fortuite dans 10% des cas. Dans notre série, chez les 9 malades présentant un DM, le pic de fréquence était noté à la première décennie, il existait une légère prédominance masculine et les complications étaient l'ulcération (5 cas) et l'hémorragie digestive basse (4 cas) qui sont directement liés à la présence d'une muqueuse gastrique hétérotopique sécrétant du HCL. Le DM s'associe à d'autres malformations congénitales telles un omphalocèle (24% des cas), une atrésie duodénale ou jéjunale haute (12% des cas) et une malformation ano-rectale (11% des cas) (4). Dans notre série, le DM était associé à un mésentère commun et à un polype hépatique vestigial. Sur le plan radiologique, l'entéroscanner avec entéroclyse et la scintigraphie au technétium 99m permettent la détection des foyers d'hétérotopie gastrique (8, 9) Dans notre série, la scintigraphie digestive avait détecté une muqueuse gastrique ectopique dans 3 cas. L'étude histologique permet la confirmation du diagnostic en montrant des glandes gastriques bien organisées, le plus souvent fundiques, comportant des cellules pariétales. Une hétérotopie pancréatique est associée dans 3.2% des cas. Dans notre série, l'HG était de type fundique pure dans 60% des cas et de type antrofundique dans 40% des cas. Une hétérotopie pancréatique était présente dans 2 cas (4). Sur le plan thérapeutique, tout DM chez l'enfant doit être réséqué, en raison des complications. Chez l'adulte, plusieurs critères interviennent pour poser l'indication de l'exérèse d'un diverticule non compliqué (10).

La duplication intestinale s'associe à une HG dans 24 à 50% des cas (11). Elle est rare et se manifeste par des douleurs abdominales ou des vomissements, plus rarement par une hémorragie digestive basse, une occlusion intestinale ou une ulcération (12, 13). L'échographie prénatale, l'échographie et la tomodensitométrie abdominales permettent la détection de cette malformation congénitale et la scintigraphie digestive peut visualiser une muqueuse gastrique ectopique (11). Dans notre série, le seul cas était celui d'un nourrisson de 6 mois ayant présenté des rectorragies de grande abondance. Histologiquement, la muqueuse gastrique ectopique est le plus souvent de type fundique et peut s'associer à une muqueuse respiratoire, du tissu pancréatique ou un autre tissu hétérotopique. L'exérèse chirurgicale doit emporter le segment dupliqué avec le tissu gastrique ectopique à cause de ses complications et notamment de son potentiel de dégénérescence maligne s'il persiste à l'âge adulte. Les cas rapportés dans la littérature sont des malades le plus souvent de sexe féminin d'âge compris entre 35 et 65 ans (11).

Au niveau du bulbe duodénal, l'HG mérite d'être individualisée du fait de la proximité de ce segment à l'estomac et de sa pathogénie particulière. Cette anomalie, relativement fréquente, présente une prévalence estimée entre 0.5 et 2.3% (14). Le tableau clinique est non spécifique et la découverte est surtout

fortuite. La topographie préférentielle est la face antérieure post pylorique et la petite courbure bulbaire. Le transit baryté montre des images micro lacunaires régulières, de taille variable (14). A l'histologie, la muqueuse gastrique ectopique est de type fundique, et la muqueuse adjacente est sans anomalies. Les complications, notamment les ulcérations, sont exceptionnelles en raison de la protection de la muqueuse hétérotopique par une concentration élevée en bicarbonates qui jouent un rôle de tampon (14). L'HG peut être associée à un mégaoesophage, un pancréas aberrant, ou une agénésie de la vésicule biliaire. Une association particulière avec le syndrome de Zollinger-Ellisson est rapportée (15).

Dans ces différentes localisations, le principal diagnostic différentiel histologique se pose avec la métaplasie gastrique qui résulte de la différenciation déviée des cellules de réserve des glandes intestinales sous l'effet d'un processus inflammatoire chronique au cours d'une maladie de Crohn ou d'une tuberculose (14, 16). Cette métaplasie est particulière par la rareté des glandes fundiques et l'abondance des glandes antrales dont la morphologie et l'architecture sont modifiées.

L'HG de l'œsophage siège le plus souvent au niveau des premiers centimètres de l'œsophage et serait secondaire à un défaut d'épithélialisation de l'œsophage durant la vie embryonnaire (17). Cette anomalie est plus fréquente chez l'adulte, mais peut se voir chez l'enfant. Sa prévalence endoscopique varie de 0.1 à 10%. Elle se présente sous de plages rose pâle ou saumonées, généralement bien distinctes de la muqueuse oesophagienne normale adjacente. Ces plages sont uniques ou multiples, de taille variant entre quelques millimètres et quelques centimètres, parfois circonférentielles. Il peut s'agir d'une surélévation, d'une dépression ou d'un polype sessile (18). Le diagnostic différentiel se pose avec l'œsophage de Barrett secondaire au reflux gastro-oesophagien, qui siège plutôt dans la partie distale de l'œsophage et se caractérise histologiquement par une métaplasie intestinale (17). La dégénérescence maligne de ces foyers en adénocarcinome est exceptionnelle. Seulement 24 cas sont rapportés dans la littérature jusqu'en 2004 (18).

L'HG dans les voies biliaires est rare, seuls 43 cas ayant été recensés jusqu'à l'année 2000 (19). Elle se présente comme une lésion sessile, faisant protrusion dans la lumière. Sa taille est variable, allant de 0.5 à 2.5 cm. Elle siège, dans la majorité des cas, dans le col. Chez notre malade, il s'agissait d'une formation polypoïde sessile de 2.5cm de grand axe. Le diagnostic différentiel histologique se pose essentiellement avec la métaplasie gastrique, qui est une lésion réactionnelle, souvent associée aux remaniements inflammatoires chroniques (20). Aucun cas de dégénérescence n'a été rapporté à ce niveau.

CONCLUSION

L'HG s'associe fréquemment à des anomalies congénitales, notamment le DM et la duplication digestive. Son étiopathogénie et sa présentation clinique sont variables, selon sa localisation. Son diagnostic repose sur la mise en évidence de glandes fundiques ectopiques, bien organisées dont la distinction avec une métaplasie gastrique nécessite parfois le recours à une confrontation anatomo-clinique.

Références

1. Rifat Mannan AS, Kahvic M, Bharadwaj S, Grover VK. Gastric heterotopia of the anus: report of two rare cases and review of the literature. Indian J Pathol Microbiol 2008;51:240-1.
2. Xeropotamos N, Skopelitou AS, Batsis C, Kappas AM. Heterotopic gastric mucosa together with intestinal metaplasia and moderate dysplasia in the gallbladder: report of two clinically unusual cases with literature review. Gut 2001;48:719-23.
3. Akbayir N, Alkim C, Erdem L et al. Heterotopic gastric mucosa in the cervical esophagus (inlet patch): Endoscopic prevalence, histological and clinical characteristics. J Gastroenterol Hepathol 2004;19:891-6.
4. Wakim A, Hélardot PG. Diverticule de Meckel. Encycl Méd Chir (Paris-France), Gastro-entérologie,9-075-M-10,1993:6p.
5. Schwartz D. Meckel's diverticulum. Am J Surg 1956; 92:486- 9.
6. Gruner MJ, Grapin C. Diverticule de Meckel et pathologie du canal omphalomésentérique. Encycl Méd Chir (Elsevier SAS, Paris), Pédiatrie, 4-018-P-30, 1992:6p.
7. Simon M, Gornet JM, Veuillez V et al. Diverticule de Meckel compliqué d'une hémorragie digestive basse et d'une perforation. Gastroentérol clin biol 2006;30:920-1.
8. Mathon G, Frampas E, Lerat F et al. Diagnostic d'un diverticule de Meckel hémorragique par entéroscanner. J Radiol 2003;83:712-4.
9. Kiratli PO, Aksoy T, Bozkurt MF, Orhan D. Detection of ectopic gastric mucosa using Tc99m pertechnetate: review of the literature. Ann Nucl Med 2009;23:97-105.
10. Grapin C, Bonnard A, Helardot PG. Chirurgie du diverticule de Meckel. EMC-Chirurgie2 2005;2:613-20.
11. Cavar S, Bogovic M, Luetic T, Antabak A, Batinica S. Intestinal duplications. Experience in 6 cases. Eur Surg Res 2006;38:329-32.
12. Geramizadeh B, Frootan HR, Eghbali S, Rasekhi A. Giant ileal duplication with extensive gastric heterotopia. J Pediatr Surg 2002; 37:114-5.
13. Kothari PR, Shanker G, Gupta A, Jiwane A, Kulkarni B. Perforation in a jejunal duplication lined by ectopic gastric mucosa. Indian J Gastroenterol 2004;23:152.
14. Mann NS, Mann SK, Rachut E. Heterotopic gastric tissue in the duodenal bulb. J Clin Gastroenterol 2000; 30:303- 6.
15. Kohan E, Oh D, Wang H et al. Duodenal bulb mucosa with hypertrophic gastric oxyntic heterotopia in patients with Zollinger Ellison syndrome. Diagn Ther Endosc 2009;2009:1-6.
16. Treille C, Treille-Genuer F, Compain P. L'hétérotopie gastrique du duodénum. Une entité méconnue mais fréquente. Intérêt des colorants de muqueuse. Acta endoscopica 1983;13:167-72.
17. Borhan-Manesh F, Farnum JB. Incidence of heterotopic gastric mucosa in the upper esophagus. Gut 1991;32:968-72.
18. Von Rahden BH, Stein HJ, Becker K, Liebermann-Meffert D, Siewert JR. Heterotopic gastric mucosa of the esophagus: Literature review and proposal of a clinicopathologic classification. Am J Gastroenterol 2004; 93:543-51.
19. Isic I, Sezer C, Dursun A. Gastric heterotopia in the gallbladder: A case report. Turk J gastroenterol 2002;13:172-4.
20. Hamazaki K, Fujiwara T. Heterotopic gastric mucosa in the gallbladder. J Gastroenterol 2000;35:376-81.