

VIDENSKAB OG PRAKSIS | KASUISTIK

ret. I det svenske studie var pneumonier signifikant hyppigere blandt piger med atopisk dermatitis i forhold til piger uden atopisk dermatitis, mens dette ikke var tilfældet blandt drenge [18].

Vi fandt, at infektionssygdomme tidligt i livet var relateret til øget risiko for atopisk dermatitis, hvilket står i kontrast til den tidligere teori om, at disse infektionssygdomme beskytter mod atopisk dermatitis. Effekten af søskende, tidlig pasning, husdyrhold og opvækst på en gård forblev beskyttende efter justering for infektionssygdomme. Den beskyttende effekt synes at opstå tidligt i livet og uafhængigt af infektionssygdomme.

Korrespondance: *Christine Stabell Benn*, Afdeling for Epidemiologisk Forskning, Center for Epidemiologisk Grundforskning, Statens Serum Institut, DK-2300 København S. E-mail: cb@ssi.dk

Antaget: 18. oktober 2004

Interessekonflikter: Ingen angivet

Taksigelser: Danmarks Grundforskningsfond har etableret Center for Epidemiologisk Grundforskning, som har taget initiativ til og dannet Den nationale fødselskohorte. Fødselskohorten er oprettet med væsentlig støtte fra Danmarks Grundforskningsfond. Fødselskohorten har desuden modtaget støtte fra Apotekerfonden af 1991, Egmont Fonden, March of Dimes Birth Defects Foundation, Augustinus Fonden og Helsefonden. Det aktuelle studie er endvidere støttet af Løvens Kemiske Fabriks Forskningsfond og Kgl. Hofbuntmager Aage Bangs Fond.

This article is based on a study first reported in *BMJ* 2004;22:328:1223.

Litteratur

1. Strachan DP. Hay fever, hygiene and household size. *BMJ* 1989;299:1259-60.
2. Strachan DP. Family size, infection and atopy: the first decade of the "hygiene hypothesis". *Thorax* 2000;55:S2-10.
3. Bodner C, Godden D, Seaton A. Family size, childhood infections and atopic diseases. The Aberdeen WHEASE Group. *Thorax* 1998;53:28-32.
4. Linneberg A, Østergaard C, Tvede M et al. IgG antibodies against microorganisms and atopic disease in Danish adults: the Copenhagen allergy study. *J Allergy Clin Immunol* 2003;111:847-53.
5. Wickens KL, Crane J, Kemp TJ et al. Family size, infections, and asthma prevalence in New Zealand children. *Epidemiology* 1999;10:699-705.
6. Strachan DP, Taylor EM, Carpenter RG. Family structure, neonatal infection, and hay fever in adolescence. *Arch Dis Child* 1996;74:422-6.
7. Forastiere F, Agabiti N, Corbo GM et al. Socioeconomic status, number of siblings, and respiratory infections in early life as determinants of atopy in children. *Epidemiology* 1997;8:566-70.
8. Nafstad P, Magnus P, Jaakkola JJ. Early respiratory infections and childhood asthma. *Pediatrics* 2000;106:E38.
9. Matricardi PM, Rosmini F, Ferrigno L et al. Cross sectional retrospective study of prevalence of atopy among Italian military students with antibodies against hepatitis A virus. *BMJ* 1997;314:999-1003.
10. Ponsonby AL, Couper D, Dwyer T et al. Relationship between early life respiratory illness, family size over time, and the development of asthma and hay fever: a seven year follow up study. *Thorax* 1999;54:664-9.
11. McKeever TM, Lewis SA, Smith C et al. Early exposure to infections and antibiotics and the incidence of allergic disease: a birth cohort study with the West Midlands general practice research database. *J Allergy Clin Immunol* 2002;109:43-50.
12. Olsen J, Melbye M, Olsen SF et al. The Danish national birth cohort – its background, structure and aim. *Scand J Public Health* 2001;29:300-7.
13. Benn CS, Benfeldt E, Andersen PK et al. Atopic dermatitis in young children: diagnostic criteria for use in epidemiological studies based on telephone interviews. *Acta Derm Venereol* 2003;83:347-50.
14. Matricardi PM, Ronchetti R. Are infections protecting from atopy? *Curr Opin Allergy Clin Immunol* 2001;1:413-9.
15. Strannegård Ö, Strannegård IL. The causes of the increasing prevalence of allergy: is atopy a microbial deprivation disorder? *Allergy* 2001;56:91-102.
16. Kalliomäki M, Isolauri E. Role of intestinal flora in the development of allergy. *Curr Opin Allergy Clin Immunol* 2003;3:15-20.
17. Rystedt I, Strannegård IL, Strannegård Ö. Recurrent viral infections in patients with past or present atopic dermatitis. *Br J Dermatol* 1986;114:575-82.
18. Böhme M, Lannerö E, Wickman M et al. Atopic dermatitis and concomitant disease patterns in children up to two years of age. *Acta Derm Venereol* 2002;82:98-103.

Ektopisk ventrikelslimhinde i rectum

Reservelæge Saeid Aslani, overlæge Peter Vilmann & reservelæge Anette Pedersen Pilt

Amtssygehuset i Gentofte, Mave-tarm-kirurgisk Afdeling D og Patologisk-Anatomisk Institut

Ektopisk ventrikelslimhinde er beskrevet i alle niveauer i gastrointestinal (GI)-kanalen, men ses sjældent i rectum. Der er hidtil kun beskrevet ca. 30 tilfælde i engelsksproget litteratur [1]. Tilstanden viser sig oftest ved blødning per rectum. Ved endoskopi ses i de fleste tilfælde polypøse forandringer evt. med ulceration.

Formålet med denne kasuistik er at beskrive den karakteristiske tilstand og diskutere overvejelser vedrørende opfølgning og behandling.

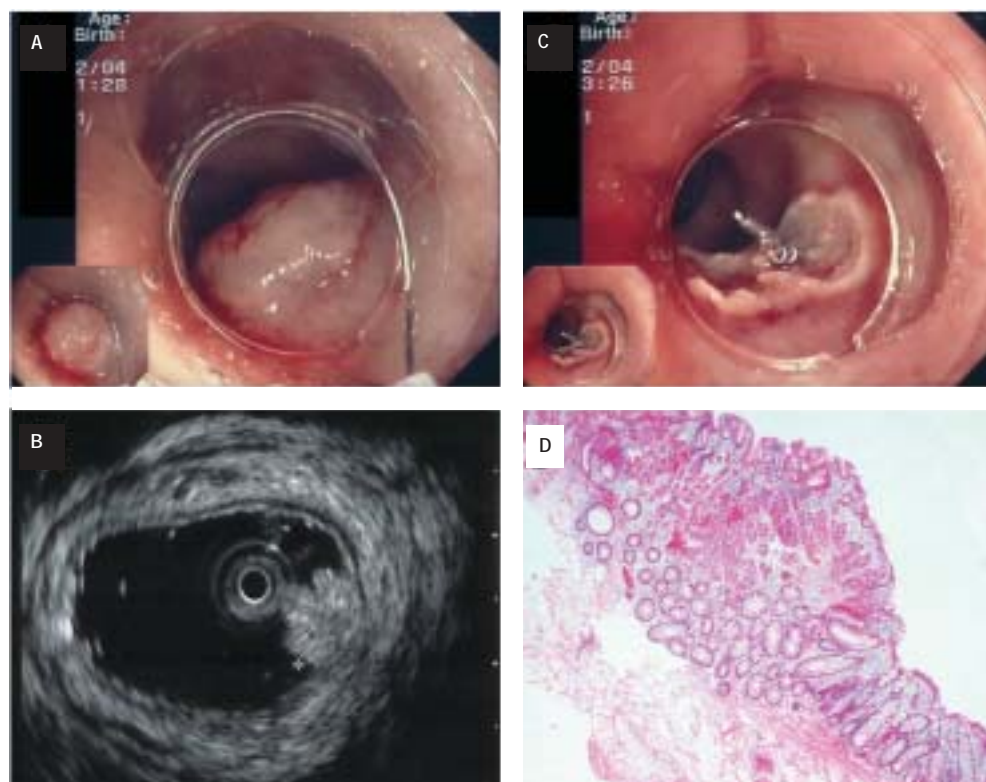
Sygehistorie

En 19-årig mand blev henvist til Kirurgisk Gastroenterologisk Afdeling, Amtssygehuset i Gentofte, på grund af gentagne tilfælde af frisk blødning per rectum. Ved en sigmoideoskopi blev der fundet et 1 cm stort, let eleveret polypøst inflammatorisk område umiddelbart lateralt i rectum 1-2 cm fra linea dentata (**Figur 1A**). Ved en endoskopisk ultralydskanning med miniprobe (12 MHz) kunne der påvises fortykkelse af de to øverste lag af mucosa. Der sås ingen dybereliggende forandringer (**Figur 1B**). En biopsi viste ventrikelslimhinde af cor-pustype med et veldifferentieret cylindrisk overfladeepitel og korte foveolae. Ved en efterfølgende parietalcelleskintografi påvises der ingen ektopisk slimhinde andre steder i GI-kanalen. I universel anæstesi blev der udført endoskopisk mukos-ektomi (**Figur 1C**).

Ved en histologisk undersøgelse blev der fundet radikalt recesseret ektopisk ventrikelslimhinde omgivet af normal rec-

VIDENSKAB OG PRAKSIS | KASUISTIK

Figur 1A. Endoskopisk billede af et let polypøst område i rectum med ektopisk ventrikelmucosa. **B.** Endoskopisk ultralydskanning (miniprobe 12 MHz) af ektopisk ventrikelslimhinde i rectum. Der ses kun forandringer i mucosa. **C.** Resektionsfladen i rectum efter endoskopisk mukosektomi. **D.** Histologisk undersøgelse, HE-farvet snit: udsnit fra rectumslimhinde med ektopisk ventrikelslimhinde. Der ses overgang fra normal colonmucosa i højre side af billedet, til ventrikelmucosa med foveolae gastricae og dybereliggende glandulae gastricae.



tumslimhinde (**Figur 1D**). Profund herfor sås der gastriske kirtler med såvel hovedceller som parietalceller. I lamina propria fandtes der spredte kroniske betændelsesceller, lymfocytter, plasmaceller og enkelte eosinofile granulocytter. Der var ingen ulcerationer eller granulomer og ingen tegn på dysplasi eller malignitet. Ved opfølgning fem måneder efter var patienten velbefindende uden rektalblødning.

Diskussion

Ektopisk slimhinde i rectum er en sjælden tilstand. Det blev første gang beskrevet af *Ewell & Jackson* i 1939. Den ektopiske slimhinde kan enten være medfødt eller erhvervet [2, 3]. Mekanismen ved medfødt ektopi kan beskrives ud fra konceptet pluripotens; det vil sige, at cellerne i den føtale gastrointestinalkanal er morfologisk identiske og kan differentiere til andre epitelceller i andre niveauer [4]. Den hyppigste medfødte anomali viser sig som polypper. Lokaliseringen er som regel posterolateralt i rectum med en afstand på op til 8 cm fra analkanalen [1, 2]. Gennemsnitsalderen ved diagnosticering er 18 år, og de fleste tilfælde er fundet hos mænd [1]. Af andre medfødte anomalier er der beskrevet ektopisk ventrikelslimhinde i rektalduplikaturer [5] og Meckels diverticulum.

Histologisk er medfødt ektopi af corpus fundus-typen, mens den erhvervede er af pylorustypen. Ved sidstnævnte tilfælde menes mekanismen at være metaplasisk omdannelse.

Som regel viser tilstanden sig som blødning per rectum uden smerter, men den kan også ses som et tilfældigt fund hos en asymptomatisk patient [2]. Blødning med smerter i rectum

[3] og i et tilfælde med udstråling til sakralregion er dog beskrevet. I tilfælde af blødning ses der ofte ulcerationer i det afficerede område, og i et enkelt tilfælde har man også fundet *Helicobacter*-lignende organismer [3].

Når ektopien er verificeret histologisk bør der foretages ^{99m}Tc-parietalcelleskintigrafi, da relateret medfødt ektopi i andre dele af GI-kanalen er beskrevet, og blødningskilde fra andre steder i GI-kanalen skal udelukkes. *Manz et al* beskrev en patient med recidiverende rektalblødning, efter at ektopien i rectum var fjernet. Man fandt efterfølgende et Meckels diverticulum med ektopisk ventrikelslimhinde.

Parietalcelleskintigrafien bør ifølge *Schwarzenberg* også foretages lateralt, så blæren ikke dækker for rectum. Denne undersøgelse viste ingen ektopisk aktivitet hos vores patient.

For at bedømme omfanget af det ektopiske væv anbefales der i litteraturen to metoder. Ved den ene metode anvendes der congorødt i rectum. Når pH er under 4,5, vil vævet blive sort. Ved den anden metode afgrænses ventrikelmucosa ved pH-måling efter stimulation med pentagastrin. I det aktuelle tilfælde blev der brugt endoskopisk ultralydskanning til at vurdere udbredelsen og dybden af den ektopiske slimhinde, så hele området kunne excideres ved hjælp af endoskopisk mukosektomi. Endoskopisk ultralydskanning er aldrig tidligere beskrevet ved denne tilstand. Når diagnosen er verificeret anbefales excision af den ektopiske ventrikelmucosa. Det er vigtigt at fjerne hele det afficerede område, dels på grund af risiko for recidiv, og dels på grund af komplikationer.

Komplikationerne er dog meget sjældne; der er i tre

VIDENSKAB OG PRAKSIS | KASUISTIK

tilfælde beskrevet ulceration med udvikling af rektovesikal fistel, peritonit og fistel gennem analsfinkteren.

Der er kun rapporteret om malignitet i et tilfælde, og her var den ektopiske ventrikelslimhinde af pylorustypen [4].

I flere tilfælde anbefales behandling med H₂-antagonister eller protonpumpehæmmere med henblik på at stoppe blødningerne, hele ulcerationerne og lindre smerterne [3]. I det her omtalte tilfælde kom syrereduktion ikke på tale, da der kun blev påvist let rødme i den omgivende slimhinde, og det ektopiske væv uproblematisk kunne recesseres radikalt ved hjælp af endoskopisk mukosektomi.

Korrespondance: *Saeid Aslani*, Hasselvænget 42, DK-4300 Holbæk.
E-mail: saslani@hotmail.com

Antaget: 19. august 2004
Interessekonflikter: Ingen angivet

En fuldstændig litteraturliste kan fås ved henvendelse til forfatterne.

Litteratur

1. Srinivasan R, Loewenstine H, Mayle JE. Sessile polypoid gastric of rectum. *Arch Pathol Lab Med* 2003;123:222-4.
2. Devereaux CE, Devereaux RG. Heterotopic gastric mucosa of the rectum with a review of the literature. *J Clin Gastroenterol* 1994;19:41-5.
3. Kestenberg A, Marino G, Lima E et al. Gastric heterotopic mucosa in the rectum with helicobacter pylori-like organisms: a rare cause of rectal bleeding. *Int J Colorect Dis* 1993;8:9-12.
4. Wolff M. Heterotopic gastric epithelium in the rectum: a report of three new cases with a review of 87 cases of gastric heterotopia in the alimentary canal. *Am J Clin Pathol* 1971;55:604-16.
5. Thompson RJ, Charlton FG, Jaffray B. Acid-secreting rectal duplication cyst with associated peptic ulcer eroding through the anal sphincters. *J Pediatr Surg* 2002;37:E37.

Kongenit nefrogen diabetes insipidus

En fire måneder gammel pige med forsinket psykomotorisk udvikling

Reservelæge Søren Hagstrøm, afdelingslæge Charlotte Siggaard, reservelæge Konstantinos Kamperis, cand.scient. Jane H. Christensen & overlæge Søren Rittig

Århus Universitetshospital, Skejby Sygehus, Børneafdeling A

Diabetes insipidus (DI) er en sjælden sygdom, der er karakteriseret ved polyuri og polydipsi. Ud fra den patofysiologiske årsagsmekanisme kan DI inddeles i tre typer: 1) insufficient produktion af antidiuretisk hormon fra neurohypofysen (= neurogen DI), 2) manglende antidiuretisk effekt af hormonet på epitelet i nyrenes samlerør (= nefrogen DI) og 3) excessiv væskeindtagelse (= primær polydipsi) [1]. De to første typer findes i arvelige former.

Arvelig neurogen DI kendes i en autosomal dominant og recessiv form, som begge skyldes mutationer i genet, der koder for antidiuretisk prohormon [2]. Arvelig nefrogen DI findes i to former, dels en X-bunden recessiv form forårsaget af defekter i AVPR2-genet, som koder for V₂-receptoren [3], dels en autosomal form (recessiv/dominant) forårsaget af mutationer i AQP2-genet, der koder for den antidiuretisk hormonregulerede vandkanal aquaporin 2 [4]. Der er indtil nu beskrevet 29 forskellige sygdomsformkaldende mutationer i AQP2-genet, hvoraf de 26 fører til en autosomal recessiv nedarvning af nefrogen DI, og tre fører til en dominant nedarvning [5]. Med følgende sygehistorie ønsker vi at gøre opmærksom på kongenit nefrogen diabetes insipidus, som på

trods af sin lave prævalens er en differentialdiagnose, man bør tænke på hos både drenge og piger.

Sygehistorie

En fire måneder gammel pige blev henvist af egen læge til et pædiatrisk ambulatorium pga. forsinket psykomotorisk udvikling. Pigen blev født ved en ukompliceret fødsel (para III, gestationsalder 42 + 0, fødselsvægt 3.980 gram, fødselslængde 56 cm, hovedomkreds 34 cm). Forældrene var af tyrkisk oprindelse og beslægtede (fætter/kusine). Der var ingen familiære dispositioner, og de to ældre søskende var raske. I løbet af de første levemåneder var barnet påfaldende slapt. Desuden var der opkastninger efter hvert måltid uafhængigt af typen af modermælkserstatning. Barnets trivsel var ikke påvirket.

Objektivt fandtes: hovedomkreds: 39,9 cm (- standard-deviation (SD)), vægt: 6.100 g (+ 2 SD), længde: 66 cm (+ 2 SD). Pigens udseende var ikke dysmorf, men hun var universelt hypoton, havde dårlig hovedkontrol, dårlig udviklet blikkontakt og skelede desuden på venstre øje. Den anteriore fontanelle var normal. Kropstemperaturen var 39,6°C, uden at pigens virkede infektiøs, og uden at der kunne påvises infektionsfokus.

Resultaterne af blodprøverne fremgår af **Tabel 1**. Der var overraskende en meget høj p-Na (= 175 mmol/l), som sammen med let forhøjet p-carbamid (= 8,9 mmol/l) indikerede svær hypertont dehydrering. Samstemmende målttes efterfølgende stærkt forhøjet plasmaosmolalitet (= 366 mosm/kg). Der blev