

LAPORAN KASUS

Obstruksi Intestinal Berulang *et causa* Jejunal Web (*Windsock Deformity*)

Revi Rilliani¹, Yusri Dianne Jurnal¹, Budi Pratama Arnofyan²

1. Departemen Ilmu Kesehatan Anak, Fakultas Kedokteran Universitas Andalas, Padang, Indonesia ;
2. Departemen Ilmu Bedah, Fakultas Kedokteran Universitas Andalas, Padang, Indonesia

Korespondensi: Yusri Dianne Jurnal; email: dianneyusri5@gmail.com; Telepon/HP: 081363931569

Abstrak

Divertikulum intraluminal/ *inverted diverticulum (windsock web/ deformity)* merupakan suatu kelainan bawaan yang jarang terjadi dan sebagai penyebab obstruksi intestinal, dengan angka kejadian 1 dari 9.000-40.000 kelahiran. Kelainan ini biasanya terjadi pada bagian kedua duodenum dan jarang terjadi di yeyunum. Hingga saat ini, laporan kasus dan literatur tentang *windsock deformity* yeyunum masih langka. Pada laporan kasus ini dibahas seorang pasien anak perempuan berusia 15 bulan dengan obstruksi intestinal berulang akibat *jejunal web*. Pada pasien dilakukan dekompresi dengan pipa nasogastrik, diberikan cairan rehidrasi, dan dijadwalkan untuk laparotomi elektif. Dalam perawatan, pasien mengalami ileus obstruksi total sehingga dilakukan laparotomi eksplorasi dengan temuan intraoperatif menunjukkan *web* dan stenosis ± 20 cm dari ligamen Treitz. Dilakukan reseksi dan anastomosis *jejunojejunostomy end-to-side*. Asupan per oral dimulai pada hari kedua pascaoperasi dan volume ditingkatkan secara bertahap. Pasien mentoleransi asupan oral dengan baik dan dipulangkan setelah 9 hari tanpa komplikasi.

Kata kunci: Obstruksi intestinal; *windsock deformity*; *jejunal windsock deformity*; *inverted diverticulum*; *jejunal web*

Abstract

Funnel-type intraluminal/ inverted diverticulum (windsock web or deformity) is a rare congenital malformation and uncommonly present as the cause of intestinal obstruction, occurring once in every 9,000 to 40,000 births. It occurs in the second part of the duodenum but rarely in the jejunum. Until now, case reports and literature on jejunal windsock deformity are scarce. This article is about a case of a female patient aged 15 months old with recurrent intestinal obstruction due to a jejunal web. The patient was decompressed with a nasogastric tube, given rehydration fluid, and scheduled for elective laparotomy. On admission, the patient had a total obstructive ileus so an exploratory laparotomy was performed with intraoperative findings revealed a web and stenosis of ± 20 cm from the Treitz ligament. Resection with end-to-side jejunojejunostomy was performed. Oral intake was started on the second day after surgery and was increased gradually. The patient tolerated oral intake well and was discharged after 9 days with no complication.

Keywords: intestinal obstruction; *windsock deformity*; *jejunal windsock deformity*; *inverted diverticulum*; *jejunal web*

PENDAHULUAN

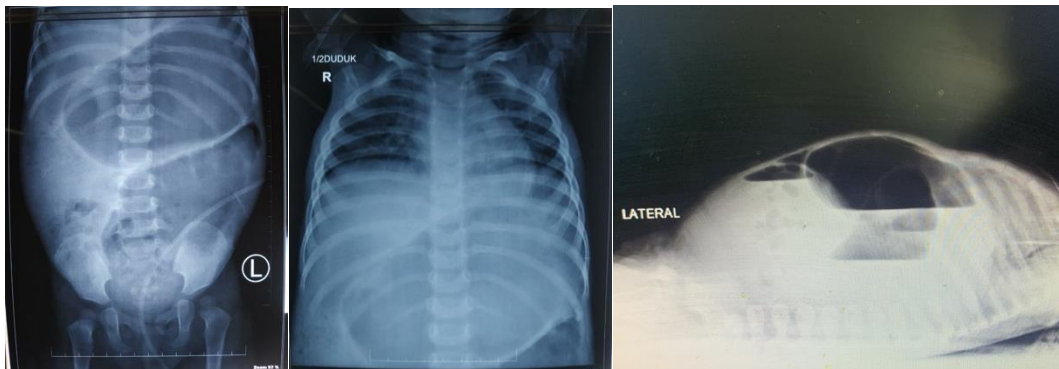
Obstruksi usus halus memiliki spektrum presentasi klinis dan etiologi yang bervariasi. Beberapa etiologi seperti perlengketan, hernia inkarserata, keganasan, volvulus, polip, divertikulum Meckel dan divertikulum lainnya diidentifikasi sebagai penyebab utama.¹ Divertikulum merupakan proyeksi lapisan usus dari lumen hingga dinding usus, namun pada beberapa kasus divertikulum tumbuh ke arah dalam (lumen), yang disebut sebagai pertumbuhan "*windsock*".² *Windsock deformity* adalah anomali yang umumnya ditemukan di bagian kedua duodenum. Kejadiannya jarang dan laporan kasus yang tersedia yang membahas kasus ini kurang dari 100 laporan kasus. *Jejunal windsock deformity* merupakan kondisi yang bahkan lebih jarang, dengan laporan kasus dan literatur yang langka.^{3,4}

METODE

Seorang anak perempuan berusia 15 bulan datang ke IGD RSUP Dr. M. Djamil Padang pada Januari 2021 dengan keluhan utama muntah berulang sejak 8 jam sebelum masuk rumah sakit. Pasien mengeluh kembung hilang timbul sejak 4 bulan sebelum masuk rumah sakit, kadang disertai muntah. Tidak ada keluhan buang air besar sebelumnya. Berat badan sukar naik dan terlihat lebih kurus dalam 4 bulan terakhir. Muntah semakin sering dalam 1 bulan terakhir, frekuensinya 3-4 kali per hari dan terjadi hampir setiap hari dengan perkiraan volume $\frac{1}{4}$ - $\frac{1}{2}$ gelas setiap muntah yang mengakibatkan pasien dirawat inap 2 minggu sebelum episode rawat saat ini selama 3 hari. Gejala semakin berat

sejak 8 jam sebelum masuk rumah sakit dan pasien muntah sebanyak 3 kali dalam rentang waktu tersebut, dengan volume $\frac{1}{2}$ - $\frac{3}{4}$ gelas per kali muntah terutama setelah makan. Pasien tampak lebih haus dari biasanya. Tidak ada gejala sesak napas, demam, batuk, diare, atau konstipasi. Pasien tidak memiliki riwayat kontak dengan penderita terkonfirmasi COVID-19 atau TB. Pasien memiliki riwayat dirawat di rumah sakit setelah lahir karena toleransi minum yang buruk dan kuning. Saat itu pasien dipulangkan setelah 21 hari rawatan. Setelah itu, toleransi minum meningkat dan berat badannya bertambah dengan baik.

Pasien tampak sakit sedang dan sadar penuh. Tekanan darah 90/60 mmHg, denyut jantung 144 kali per menit, laju pernapasan 30 kali per menit, dan suhu tubuh 37°C. Pada pemeriksaan antropometri didapatkan berat badan 7,6 kg dan tinggi badan 78 cm. Berat badan berdasarkan usia berada pada -2 SD, tinggi badan berdasarkan usia pada 0 SD dan berat badan berdasarkan tinggi badan pada -2 SD. Pada pasien ditemukan tanda dehidrasi antara lain mata cekung, mukosa mulut dan bibir kering, serta turgor kulit yang lambat. Pemeriksaan fisik toraks dalam batas normal. Abdomen tampak distensi, hati dan limpa sulit dinilai, bising usus meningkat. Keempat ekstremitas teraba hangat dengan perfusi baik. Pemeriksaan laboratorium darah menunjukkan hematologi dan elektrolit darah dalam batas normal. Foto polos abdomen menunjukkan kesan ileus obstruksi parsial letak tinggi serta lambung dan usus yang tampak sangat membesar (gambar 1).



Gambar 1. Foto polos abdomen tiga posisi saat awal rawatan

Berdasarkan data yang diperoleh, ditegakkan diagnosis ileus obstruksi parsial ec. suspek *Hirschsprung disease* dengan dehidrasi ringan-sedang. Pasien didekompresi dengan selang nasogastrik, dipuaskan sementara, dan diberikan terapi rehidrasi selama 24 jam. Pasien direncanakan untuk pemeriksaan barium enema, biopsi rektal dan dilakukan pemantauan tanda-tanda klinis dehidrasi dan rehidrasi, keseimbangan cairan, luaran urin, dan berat badan.

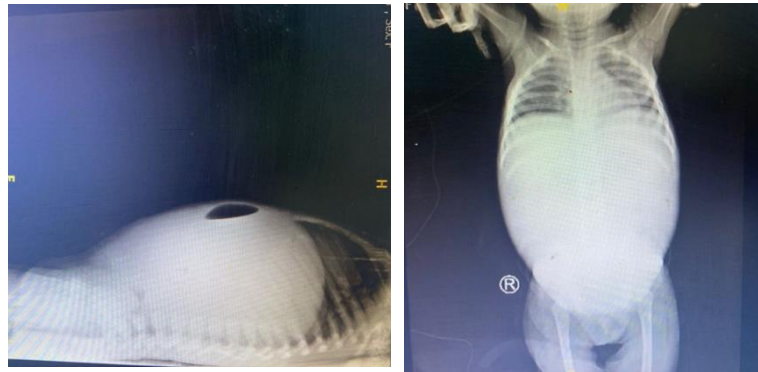
Pada hari keempat rawatan, dilakukan pemeriksaan *colon in-loop* dengan hasil sugestif *Hirschsprung disease* (gambar 2). Pasien kemudian direncanakan untuk dilakukan biopsi mukosa transanal, tetapi pada saat itu orang tua belum memberikan persetujuan untuk dilakukan prosedur tersebut. Pemberian makanan enteral dimulai dan volumenya ditingkatkan secara bertahap sesuai dengan toleransi. Makanan lunak dimulai segera setelahnya.



Gambar 2. *Colon in loop* sesuai dengan gambaran *Hirschsprung disease*

Pada hari kedelapan rawatan dan setelah pasien mulai makan makanan lunak, pasien mengalami muntah berwarna kehijauan berulang dengan frekuensi enam kali dalam rentang waktu delapan jam. Pasien buang air besar terakhir delapan jam sebelum muntah pertama. Pasien lalu dipuaskan kembali,

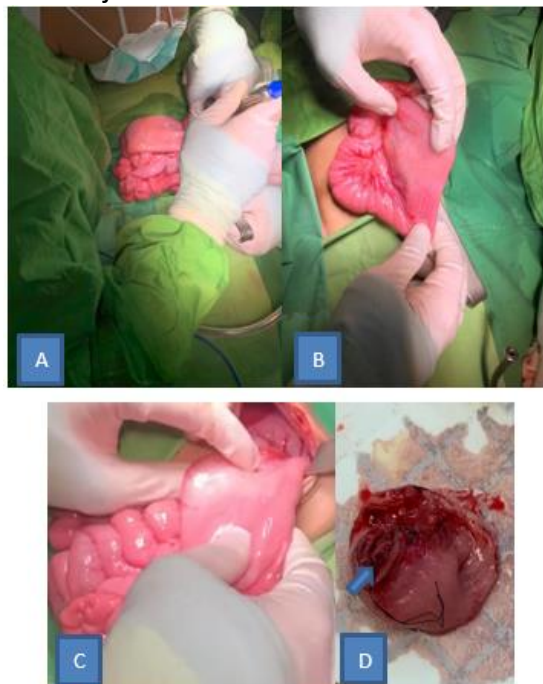
dan dilakukan dekomposisi lambung. Residu berwarna kehijauan keluar sebanyak ± 100 ml. Dilakukan pemeriksaan foto polos abdomen dua posisi (gambar 3) dan didapatkan gambaran ileus obstruksi total ec. suspek volvulus dengan dehidrasi sedang. Pasien direncanakan untuk tindakan laparotomi eksplorasi emergensi.



Gambar 3. Foto polos abdomen 2 posisi setelah pasien memulai makan lunak

Temuan intraoperatif menunjukkan adanya hipertrofi dan stenosis jejunum yang berjarak ± 20 cm dari ligamen Treitz (Gambar 4). Reseksi anastomosis *jejunojejunostomy end-to-side* dilakukan. *Web* yang direseksi dikirim untuk pemeriksaan histopatologis. Hasil pemeriksaan histopatologi menunjukkan

potongan jaringan yeyunum dengan permukaan mukosa yang dilapisi epitel kolumnar bersel goblet yang tumbuh membentuk vili dan kriptas teratur. Jaringan mukosa tampak memiliki jaringan submukosa dan otot di bawahnya. Gambaran ini sesuai dengan divertikulum.



Gambar 4. Temuan intraoperatif. Gambar A, B, C merupakan *web* yang didapatkan ± 20 cm dari ligamentum Treitz. Gambar D menunjukkan penyempitan lumen (tanda panah) pada *web* yang direseksi

Makanan cair mulai diberikan pada hari ke-5 pascaoperasi. Volume dinaikkan secara bertahap dan toleransi minum baik. *Feeding tube* dilepas pada hari ke 7

pascaoperasi dan kemudian makanan lunak mulai diberikan. Diet ditingkatkan menjadi makanan padat dan pasien dipulangkan setelahnya.

HASIL DAN PEMBAHASAN

Seorang anak perempuan berusia 15 bulan dirawat di RSUP Dr M. Djamil selama 19 hari karena ileus obstruksi yang disebabkan oleh kelainan *windsock jejunum*. Divertikulum intraluminal (*Windsock deformity*) adalah kelainan bawaan yang jarang menyebabkan obstruksi usus, dengan kejadian satu dari 9.000-40.000 kelahiran. Sebagian besar ditemukan di bagian kedua duodenum.⁵ Pada pemeriksaan radiologi divertikulum tampak terisi kontras yang terletak seluruhnya di duodenum. Gambaran *windsock* terbentuk akibat pemanjangan pasif divertikulum intraluminal yang mengikuti peristaltik usus. Kelainan ini jarang terjadi di yeyunum, dan belum banyak literatur yang melaporkannya.^{4,6}

Pasien ini sudah mengalami keluhan gastrointestinal sejak periode neonatal dengan manifestasi toleransi minum yang buruk, muntah berulang, dan kuning. Kondisi seperti sepsis neonatal dapat menjadi penyebab munculnya gejala seperti yang dialami pasien, tetapi kelainan anatomi juga dapat menyebabkan munculnya gejala yang sama. Meskipun lesi ini bersifat kongenital, namun sebagian besar pasien seringkali didiagnosis saat dewasa, yang mungkin terkait dengan pembesaran lesi secara bertahap.⁷ Beberapa literatur melaporkan kasus *windsock deformity* pada pasien neonatus.^{6,8,9} Pada periode neonatal, gejala utamanya adalah distensi abdomen dan muntah kehijauan dan dapat terjadi obstruksi intestinal total yang memerlukan prosedur darurat dimana deformitas ini ditemukan intraoperatif. Pada pasien ini, obstruksi kemungkinan bersifat parsial selama periode neonatal sehingga diagnosis menjadi tertunda. Gejala obstruksi dapat muncul intermiten sesuai

gerakan peristaltik, ukuran pembukaan lumen, dan usia individu saat timbulnya gejala.⁵ Seperti halnya pada pasien ini, gejala muncul saat periode neonatal dan secara intermiten dalam 4 bulan terakhir.

Saat awal rawatan, pasien ini mengalami distensi abdomen dan muntah berulang dan dicurigai sebagai *Hirschsprung disease* pada saat masuk. *Hirschsprung disease* merupakan salah satu penyebab tersering muntah kronis dan obstruksi intestinal parsial pada anak-anak selain adhesi.^{10,11} *Colon in-loop* dan biopsi rektal merupakan pemeriksaan penunjang untuk mendukung diagnosis.

Di IGD, pasien menunjukkan tanda dehidrasi sedang berupa rasa haus, mata cekung dan ubun-ubun, mukosa kering, turgor kulit menurun, dan takikardia. Pada kondisi dehidrasi ringan-sedang dan ketidakmampuan untuk mempertahankan asupan oral/enteral, disarankan untuk rehidrasi dengan cairan intravena.¹²

Setelah rehidrasi tercapai, pemeriksaan colon in-loop dilakukan dan menunjukkan indeks rektosigmoid <1 dan zona transisi dengan kesan sesuai *Hirschsprung disease*. Biasanya, kedua penanda radiografis tersebut merupakan penanda yang baik untuk membantu menegakkan diagnosis *Hirschsprung disease*, tetapi pada 16,7% kasus dengan indeks rektosigmoid positif dan 20% kasus dengan zona transisi positif, diagnosis penyakit Hirschsprung tidak terbukti.¹³

Eksaserbasi obstruksi terlihat setelah pasien memulai diet makanan lunak, yang ditandai dengan tidak adanya flatus dan defekasi, dan gambaran foto polos abdomen menunjukkan pelebaran gaster tanpa pengisian udara ke distal yang menandakan obstruksi intestinal total dan memerlukan laparotomi eksplorasi darurat. Pada awalnya volvulus diduga sebagai penyebab obstruksi karena

merupakan penyebab umum obstruksi intestinal total akut pada anak-anak, berhubungan dengan *Hirschsprung disease*, dapat dipicu oleh pasase makanan, dan pemeriksaan radiologis yang mendukung kecurigaan berupa obstruksi saluran cerna atas disertai kolaps saluran cerna bagian bawah.^{14,15}

Temuan *web* dan stenosis pada yeyunum dan bukti gambaran divertikula dari pemeriksaan histopatologi menegaskan diagnosis divertikulum intraluminal (*Windsock deformity*). *Windsock deformity* merupakan titik awal obstruksi yang tergantung pada ukuran pembukaan lumen dan gerakan peristaltik. *Windsock deformity* disebabkan oleh rekanalisasi lumen yang tidak sempurna pada *foregut* pada minggu ketujuh embriogenesis. Anomali ini menghasilkan jaringan mukosa intraluminal yang dapat memanjang dari waktu ke waktu dengan gerakan peristaltik berulang dan membentuk *cul-de-sac* intraluminal. Pada pemeriksaan radiologi kontras saluran cerna atas, barium yang diberikan mengisi divertikulum seperti kantung yang tampak "tertiup" ke dalam lumen usus, seperti konfigurasi *windsock*.¹⁶ Diafragma jaringan residual dapat meluas ke seluruh lingkaran usus, sehingga memungkinkan lewatnya makanan melalui fenestrasi.⁴

Divertikulum intraluminal sebagian besar terdiagnosis intraoperatif, namun beberapa pemeriksaan radiologi membantu menegaskan diagnosis ini. Pemeriksaan radiologi kontras saluran cerna atas, USG abdomen, dan *computed tomography* abdomen dengan kontras oral dapat menunjukkan gambaran *windsock*. Endoskopi juga dapat menunjukkan karakteristik divertikulum berupa kantong yang dilapisi dengan mukosa duodenum normal. Pasien pertama kali didiagnosis dengan dugaan *Hirschsprung disease* dan

menjalani pemeriksaan barium enema. *Barium meal* tidak dilakukan pada pasien ini karena keterbatasan fasilitas.

Tatalaksana web yeyunum adalah eksisi meskipun pendekatan lain seperti laser endoskopik dapat digunakan.⁹ Kothari dkk melaporkan kasus web yeyunal dengan perforasi sentral berjarak 8 cm dari *duodenojejunal junction* pada seorang anak laki-laki berusia 4 tahun dengan riwayat episode muntah kehijauan intermiten, nyeri perut, dan gagal tumbuh. Pada pasien tersebut dilakukan enterotomi dengan eksisi *web*.⁷ Seltz melaporkan kasus jaringan yeyunum pada anak laki-laki berusia 13 bulan dengan riwayat gagal tumbuh dan episode muntah berulang sejak pasien berusia enam bulan. Pada pasien tersebut dilakukan eksisi *web* tanpa komplikasi.¹⁹ Pada pasien ini, dilakukan reseksi *web* dengan anastomosis *jejunojejunostomi end-to-side*. Diet cair dimulai pada hari pertama pascaoperasi. Residu kehijauan berangsur-angsur berkurang, dan pasien mulai makan lunak pada hari ketujuh pascaoperasi. Pasien mentoleransi diet dengan baik dan dipulangkan setelah 9 hari tanpa komplikasi. Berdasarkan pedoman ESPEN, pemberian makanan enteral dini direkomendasikan untuk setiap pasien bedah yang menjalani operasi gastrointestinal bagian atas. *Clear fluid* harus dimulai dalam beberapa jam setelah operasi pada sebagian besar pasien.²⁰ Pemberian makanan enteral dini dapat dimulai pasca operasi segera setelah pasien stabil secara hemodinamik. Sebaiknya, dimulai dalam 24 jam setelah operasi dan tidak lebih dari 48 jam.^{21,22}

SIMPULAN

Windsock deformity di segmen usus yeyunum jarang terjadi dibandingkan

dengan duodenum. Mengingat gejala dan tanda yang tidak spesifik, klinisi harus memiliki indeks kecurigaan yang tinggi dan menyadari bahwa *web* gastrointestinal kongenital dapat menjadi penyebab obstruksi gastrointestinal pada bayi dan anak-anak. Kemungkinan diagnosis ini harus selalu diingat, terutama pada bayi atau anak-anak dengan gejala atau tanda obstruksi gastrointestinal yang tidak dapat dijelaskan. Tatalaksana *jejunal web* adalah eksisi bedah. Pemberian makanan enteral harus segera dimulai pada pasien pascaoperasi dengan hemodinamik stabil dan tidak memiliki kontraindikasi

DAFTAR PUSTAKA

1. Mani VR, Kalabin A, Dinesh A, Rajabalan A, Landa M, Adu A. Inverted Meckel's Diverticulum: Rare Etiology of an Intestinal Obstruction. *Cureus*. 2017;9(10):e1806.
2. Li Y, Wu S. Rare Cases of Two Types of Meckel's Diverticulum. *CRSLS* e2017.00082.
3. Melek M, Edirne YE. Two cases of duodenal obstruction due to a congenital web. *World J Gastroenterol*. 2008;14(8):1305–7.
4. Hemant Janugade S. Windsock Deformity in Jejunal Obstruction. -. *Int J Heal Sci Res*. 2014;4(2):226–30.
5. Suwaid MA. Duodenal obstruction due to windsock deformity in a 13 year old female. *Savannah J Med Res Pract*. 2018;6(1):18.
6. Upadhyaya VD, Kumar B, Gupta A, Narangane K, Singh A. Jejunal Windsock Deformity: A Rare Cause of Incomplete Neonatal Intestinal Obstruction. *J Neonatal Surg*. 2016;5(4):57.
7. Glennon C. Jejunal Intraluminal Diverticular Duplication with Recurrent Intussusception. *J Pediatr Surg*. 1982;17(1):1–2.
8. Lin HH, Lee HC, Yeung CY, Chan WT, Jiang C Bin, Sheu JC, et al. Congenital webs of the gastrointestinal tract: 20 years of experience from a pediatric care teaching hospital in Taiwan. *Pediatr Neonatol*. 2012;53(1):12–7.
9. Baba A, Shera A, Sherwani A, Bakshi I. Neonatal intestinal obstruction due to double jejunal web causing Windsock deformity. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2010;15(3):106.
10. Shields TM, Lightdale JR. Vomiting in children. *Pediatr Rev*. 2018;39(7):342–58.
11. Peyvasteh M, Askarpour S, Javaherizadeh H, Taghizadeh S. Ileus and intestinal obstruction - Comparison between children and adults. *Pol Prz Chir Polish J Surg*. 2011;83(7):367–71.
12. Feld LG, Friedman A, Massengill SF. Disorders of Water Homeostasis. In: *Fluid and Electrolytes in Pediatrics*. 2009. p. 17.
13. Peyvasteh M, Askarpour S, Ostadian N, Moghimi M-R, Javaherizadeh H.

pemberian makanan enteral untuk hasil yang lebih baik.

DUKUNGAN FINANSIAL

Tidak ada.

UCAPAN TERIMA KASIH

Ucapan terima kasih peneliti sampaikan kepada semua pihak yang turut membantu dalam penelitian ini.

KONFLIK KEPENTINGAN

Tidak ada.

- Diagnostic Accuracy of Barium Enema Findings in Hirschprung Disease. *Arq Bras Cir Dig.* 2016;29(3):155–8.
14. Coste AH, Anand S, Nada H, et al. Midgut Volvulus. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2021 Jan.
 15. Patial T, Chaddha S, Rathore N, Thakur V. Small Bowel Volvulus: A Case Report. *Cureus.* 2017;9(5):5–8.
 16. Pendergrast TE, Dyer RB. The “windsock” sign. *Abdom Radiol.* 2018;43(3):751–2.
 17. Meinke AK, Meighan DM, Meinke ME, Mirza N, Parris TM, Meinke RK. Intraluminal duodenal diverticula: Collective review with report of a laparoscopic excision. *J Laparoendosc Adv Surg Tech.* 2013;23(2):129–36.
 18. Park JJ, Wolff BG, Tollefson MK, Walsh EE, Larson DR. Meckel diverticulum: The Mayo Clinic experience with 1476 patients (1950-2002). *Ann Surg.* 2005;241(3):529–33.
 19. Friedman J. Case 1: A green case of failure to thrive. *Paediatr Child Health (Oxford).* 2008;13(8):685.
 20. Weimann A, Braga M, Carli F, Higashiguchi T, Hübner M, Klek S, et al. ESPEN guideline: Clinical nutrition in surgery. *Clin Nutr.* 2017;36(3):623–50.
 21. Kishore K, Nirhale D, Athavale V, Goenka G, Calcuttawala M. Early Enteral feeding within 24 hours of gastrointestinal surgery versus Nil by mouth: A prospective study. *Med J Dr DY Patil Univ.* 2014;7(2):173–6.
 22. Lee HS, Shim H, Jang JY, Lee H, Lee JG. Early feeding is feasible after emergency gastrointestinal surgery. *Yonsei Med J.* 2014;55(2):395–400.