

ПОВТОРНЫЕ ОПЕРАЦИИ У ДЕТЕЙ С АНОРЕКТАЛЬНЫМИ МАЛЬФОРМАЦИЯМИ

Юрий Юрьевич КОЙНОВ¹, Алексей Владимирович ГРАМЗИН^{1,2},
Николай Владимирович КРИВОШЕЕНКО¹, Владислав Николаевич ЦЫГАНОК¹,
Павел Михайлович ПАВЛУШИН¹, Юрий Владимирович ЧИКИНЕВ²

¹ Государственная Новосибирская областная клиническая больница
630087, г. Новосибирск, ул. Немировича-Данченко, 130

² Новосибирский государственный медицинский университет Минздрава России
630091, г. Новосибирск, Красный просп., 52

Цель исследования – оценить возможность применения оперативного вмешательства – передней сагиттальной анопроктопластики у детей, оперированных ранее по различным методикам по поводу аноректальных мальформаций. **Материал и методы.** Проведен анализ послеоперационных результатов по шкале оценки отдаленных результатов лечения аноректальных мальформаций. За период с 2016 по 2019 г. выполнено ретроспективное исследование медицинской документации детского хирургического отделения Государственной Новосибирской областной клинической больницы, произведена оценка ближайшего и отдаленного катамнеза пациентов, оперированных ранее по поводу различных форм аноректальных мальформаций. **Результаты.** Критериями необходимости повторного оперативного вмешательства являлись отсутствие ануса в центре сфинктерного аппарата прямой кишки, низкая социальная адаптация, вторичные изменения со стороны промежности и наружных половых органов. После проведения необходимого перечня обследований (идентификация наружного сфинктера с помощью миостимулятора, ирригоскопия, МРТ или МСКТ органов малого таза) всем пациентам была выполнена оперативная коррекция – передняя сагиттальная анопроктопластика. Оценка послеоперационных результатов проводилась согласно шкале Холшнейдера (Holschneider score). Результаты, полученные в ходе настоящего исследования, указывают на возможность применения данного метода оперативного вмешательства. **Обсуждение.** Дети, оперированные ранее по поводу аноректальных мальформаций, но имеющие выраженные функциональные нарушения аноректальной области, представляют собой сложную группу пациентов, которым должны быть определены конкретные критерии необходимости повторного оперативного вмешательства. Эффективность оперативного лечения зависит от наличия сопутствующих пороков развития (миелодисплазии, патологии крестца и копчика), а также от выраженности рубцовых изменений мышечного аппарата прямой кишки. Оперативное вмешательство в 33,3 % случаев привело к удовлетворительным и в 66,7 % случаев к хорошим результатам.

Ключевые слова: аноректальные мальформации, повторные операции, передняя сагиттальная анопроктопластика.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Автор для переписки: Койнов Ю.Ю., e-mail: doctor2012@inbox.ru

Для цитирования: Койнов Ю.Ю., Грамзин А.В., Кривошеенко Н.В., Цыганок В.Н., Павлушин П.М., Чикинев Ю.В. Повторные операции у детей с аноректальными мальформациями. *Сибирский научный медицинский журнал.* 2020; 40 (1): 67–72. doi 10.15372/SSMJ20200109

Поступила в редакцию 10.09.2019

REOPERATIONS IN CHILDREN WITH ANORECTAL MALFORMATIONS

Yuriy Yur'evich KOYNOV¹, Alexey Vladimirovich GRAMZIN^{1,2},
Nikolay Vladimirovich KRIVOSHEENKO¹, Vladislav Nikolaevich TSYGANOK¹,
Pavel Mikhaylovich PAVLUSHIN¹, Yuriy Vladimirovich CHIKINEV²

¹ State Novosibirsk Regional Clinical Hospital
630008, Novosibirsk, Nemirovich-Danchenko str., 130

² Novosibirsk State Medical University of Minzdrav of Russia
630091, Novosibirsk, Krasny av., 52

The aim of the study was to assess the possibility of using a surgical approach – anterior sagittal anoproctoplasty in children who had previously been operated with various techniques for anorectal malformations. **Material and methods.** The analysis of postoperative results was performed using a scale for assessing the long-term results of treatment of anorectal malformations before and after surgery. A retrospective study of the patients who was previously operated for various forms of anorectal malformations for the period from 2016 to 2019 in pediatric surgery department of State Novosibirsk district hospital was performed. The early and long-term outcomes were assessed. **Results.** The criteria for repeated surgical treatment were: rectal mislocated outside of the sphincter mechanism, low social adaptation, secondary changes from the perineum and external genital organs. After investigation (identification of the sphincter mechanism using a myostimulator, irrigoscopy, MRI or MSCT of the pelvic organs), all patients underwent surgical correction – the anterior sagittal anoproctoplasty. Postoperative results were assessed using Holschneider score. The results obtained in the course of this study indicate the possibility of using this method of surgical treatment. **Discussion.** Children previously underwent surgery for anorectal malformations but having severe functional disorders in the anorectal region, are a complex group of patients who must be determined specific criteria for the reoperations need. The efficiency of surgical treatment depends on the presence of associated congenital malformations (myelodysplasia, pathology of the sacrum and tailbone), as well as the severity of cicatricial changes in the sphincter mechanism. Surgical intervention in 33.3 % of cases led to satisfactory and in 66.7 % of cases to good results.

Key words: anorectal malformations, reoperations, anterior sagittal anoproctoplasty.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Correspondence author: Koinov Yu.Yu., e-mail: doctor2012@inbox.ru

Citation: Koinov Yu.Yu., Gramzin A.V., Krivosheenko N.V., Tsyganok V.N., Pavlushin P.M., Chikinev Yu.V. Reoperations in children with anorectal malformations. *Sibirskiy nauchnyy meditsinskiy zhurnal = Siberian Scientific Medical Journal*. 2020; 40 (1): 67–72. [In Russian]. doi 10.15372/SSMJ20200109

Received 10.09.19

Аноректальные пороки развития встречаются у одного на 4000–5000 новорожденных [1–3, 6, 12], их этиология не выяснена. Более 60 % аноректальных пороков сопровождаются нарушениями развития других органов и систем – врожденным аганглиозом толстой кишки, трахеопищеводным свищом, атрезией пищевода, атрезией двенадцатиперстной кишки, гидронефрозом, мегауретером, патологией крестца и копчика, аномалиями спинного мозга. В 10 % случаев отмечается сочетание с синдромом Дауна [2, 6, 12]. Оперативная коррекция данного вида порока развития остается одной из сложных и развивающихся проблем в хирургии детского возраста. Однако, несмотря на огромный арсенал новейших технологий, инвалидизация пациентов после проведения радикального корригирующего вмешательства составляет от 20–60 % [2–5, 7, 12]. Высокая частота рождения детей с аномалиями дистального отдела прямой кишки и промежности в сочетании с аномалиями других органов и систем приводит к необходимости разработки индивидуального подхода к подобным больным. Вопрос о выборе метода оперативного лечения у детей с аноректальными мальформациями не потерял своей значимости и на сегодняшний день [5, 7–10, 11, 13]. Данные, приведенные в литературных источниках, свидетельствуют о

том, что неудовлетворительные результаты после первичных радикальных вмешательств возникают вследствие неправильной диагностики, предоперационной подготовки и выбора объема хирургического вмешательства, что в результате приводит к диагностическим, тактическим и техническим ошибкам и влечет за собой необходимость проведения повторных операций [3, 7, 10].

Цель работы – оценка возможности применения передней сагиттальной анопроктопластики как метода коррекции после неудачных первичных оперативных вмешательств.

МАТЕРИАЛ И МЕТОДЫ

За период с 2016 по 2019 г. выполнено ретроспективное исследование медицинской документации детского хирургического отделения Государственной Новосибирской областной клинической больницы, произведена оценка ближайшего и отдаленного катамнеза 11 пациентов (3 мальчика и 8 девочек), оперированных ранее по поводу различных форм аноректальных мальформаций. Два мальчика с ректопромежностной фистулой (рис. 1) и один с ректоуретральной фистулой оперированы в периоде новорожденности на 2–3-и сутки жизни в объеме брюшнопромежностной анопроктопластики по методике

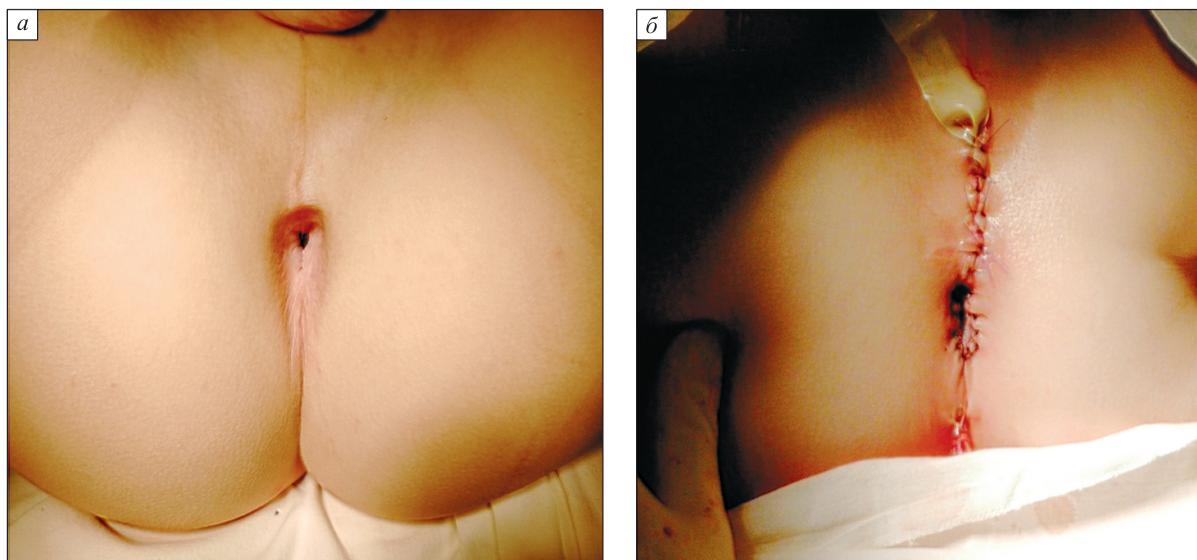


Рис. 1. Мальчик с дистопированным анусом до (а) и после (б) операции
Fig. 1. Boy with mislocated anus before (a) and after surgery (b)

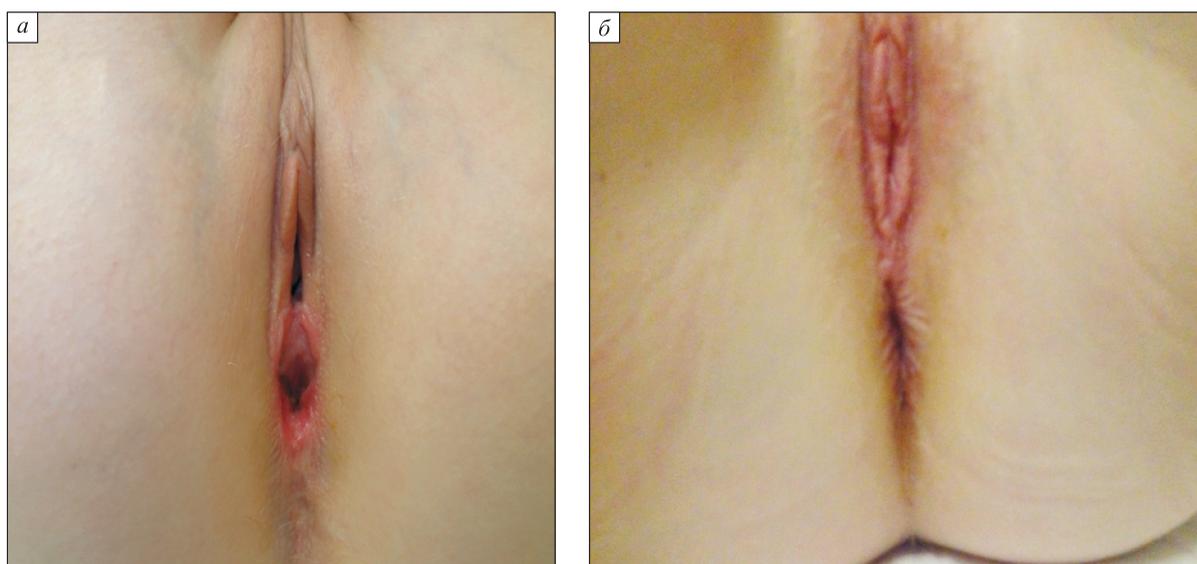


Рис. 2. Девочка с дистопированным анусом до (а) и через 3 мес. после (б) операции
Fig. 2. Girl with mislocated anus before surgery (a) and 3 months after surgery (b)

Ромуальди. У двух девочек наблюдалась ректо-промежностная фистула (рис. 2), у шести – ректовестибулярная фистула. Оперативное лечение проводилось в различные сроки (от двух дней до 1,5 лет) и в некоторых случаях состояло из нескольких этапов. Одноэтапная коррекция выполнена у трех детей (брюшно-промежностная проктопластика по методике Ромуальди – Ребейна – две девочки, промежностная анопектопластика – 1). Двухэтапная коррекция (превентивная колостомия в периоде новорожденности, затем брюшно-промежностная проктопластика по Ромуальди) проведена четырем девочкам. Трехэтап-

ная коррекция порока выполнена одному ребенку (превентивная колостомия, задняя сагиттальная анопектопластика в 10 мес., внутрибрюшинная ликвидация колостомы в 1,5 года).

Всем детям, поступивших в нашу клинику, была проведена оценка отдаленных результатов лечения аноректальных мальформаций согласно шкале Холшнейдера (табл. 1). Возрастной диапазон составлял от 4 до 14 лет, шестеро пациентов были старше 8 лет. Показаниями к повторному оперативному вмешательству были следующие: отсутствие ануса в центре сфинктерного аппарата прямой кишки, низкая социальная адаптация

Таблица 1. Оценка отдаленных результатов лечения аноректальных мальформаций (шкала Holschneider)

Table 1. Evaluation of long-term results of anorectal malformation treatment (Holschneider score)

Параметр	Градация	Количество баллов
Частота дефекации	Норма (1–2 раза в день)	2
	Часто (3–5 раза в день)	1
	Очень часто	0
Консистенция стула	Норма	2
	Мягкий	1
	Жидкий	0
Энкопрез	Нет	2
	Стресс	1
	Постоянно	0
Позыв	Норма	2
	Нарушен	1
	Отсутствует	0
Способность удержать дефекацию	Минуты	2
	Секунды	1
	Невозможно	0
Способность различать консистенцию стула	Норма нарушена	2
	Отсутствует	1
		0
Необходимость в лечении	Нет	2
	Иногда	1
	Постоянно	0

Примечание. 14 баллов – функциональная способность в пределах нормы, 10–13 баллов – хорошая функциональная способность (социально приемлемая, незначительные ограничения в обществе), 5–9 баллов – удовлетворительная функциональная способность (явные ограничения в социальной жизни), 0–4 баллов – неудовлетворительная функциональная способность (полная несостоятельность).

в связи с недостаточной функциональной способностью аноректальной области, вторичные изменения со стороны промежности и наружных половых органов (перианальные дерматиты, вульвовагиниты). Всем детям выполнено необходимое обследование: идентификация наружного сфинктера с помощью миостимулятора, ирригоскопия, МРТ или МСКТ органов малого таза.

Немаловажное значение при определении показаний к повторному оперативному вмешательству имела оценка поясничного и крестцово-копчикового отдела позвоночника. По результатам МРТ или МСКТ дистального отдела позвоночника и органов малого таза различные аномалии развития были выявлены в двух случаях (незаращение дужек позвонков L5-S3 и агенезия копчика выявлены в первом случае (рис. 3); гипоплазия S4,5 с агенезией копчика – во втором случае (рис. 4). Также всем детям проведена оценка крестцового индекса, у девяти детей он составил от 0,68 до 0,91, у двух – менее 0,5. Если при обследовании обнаруживался достаточно интакт-

ный мышечный комплекс аноректальной области и отсутствие выраженной рубцовой деформаций в данной зоне, то вероятность успеха повторной операции оценивалась высоко. Всем пациентам после необходимой предоперационной подготовки была выполнена оперативная коррекция – передняя сагиттальная анопроктопластика.

РЕЗУЛЬТАТЫ

Функциональная способность аноректальной области детей до оперативного вмешательства представлена в табл. 2. После проведенного комплекса обследований у каждого пациента отмечалось отсутствие ануса в типичном месте. Отклонение от нормы аноректального угла на ирригоскопии в боковой проекции отмечалось у девяти детей (81,8 %). У четверых детей (36,3 %) наблюдалась гипотрофия мышечного комплекса аноректальной области, обнаруженная на МРТ и МСКТ органов малого таза. Все оперативные пособия выполнялись без превентивной колосто-



Рис. 3. МРТ девочки 7 лет: незаращение дужек позвонков L5-S3 и агенезия копчика

Fig. 3. MRI of of 7-year-old girl: L5-S3 vertebral arch failure and tailbone agenesis



Рис. 4. МРТ девочки 4 лет: агенезия копчика

Fig. 4. MRI of 4-year-old girl: tailbone agenesis

мии. В послеоперационном периоде проводилось полное парентеральное питание в течение трех суток, антибактериальная терапия, продленная эпидуральная анестезия, местная обработка растворами антисептиков. На 10–12-е сутки выполнялось калибровочное бужирование ануса с последующим бужированием на амбулаторном этапе. Послеоперационные осложнения наблюдались у двух пациентов (18 %), в первом случае это была частичная несостоятельность швов промежности (выполнено наложение вторичных швов), во втором – ретракция прямой кишки (выполнено наложение превентивной колостомы, повторная анопроктопластика). Первый случай связан с дефектом ухода за послеоперационной раной, второй – с недостаточной мобилизацией прямой кишки во время операции.

После проведенной оперативной коррекции результаты вновь оценены согласно критериям, представленным в табл. 1. Минимальный срок наблюдения составил 6 мес., максимальный –

3 года. Оценка результатов лечения проводилась не ранее чем через 6 мес. после оперативного вмешательства и представлена в табл. 2.

ВЫВОДЫ

1. Дети, оперированные по поводу аноректальных мальформаций и имеющие выраженные функциональные нарушения аноректальной области, нуждаются в комплексном обследовании и решении вопроса о необходимости повторного оперативного вмешательства.

2. При выявлении различных аномалий крестцово-копчикового отдела позвоночника вероятность успеха повторного оперативного вмешательства непредсказуема и, скорее всего, не приведет к улучшению функционального результата аноректальной зоны.

3. Результаты, полученные в ходе настоящего исследования, указывают на возможность применения передней сагиттальной анопроктопластики у данной категории детей.

Таблица 2. Функциональная способность аноректальной области до и после оперативного лечения

Table 2. Functional ability of the anorectal region before and after surgical treatment

Результат	Девочки, n (%)		Мальчики, n (%)	
	До операции	После операции	До операции	После операции
Хороший	0	7 (87,5)	0	1 (33,3)
Удовлетворительный	2 (25)	1 (12,5)	0	2 (66,7)
Неудовлетворительный	6 (75)	0	3 (100)	0

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ

1. Винокурова Н.В., Цап Н.А. Комплексный подход к лечению аноректальных мальформаций у детей. *Вестн. Урал. гос. мед. ун-та*. 2018. (1): 18–20.

Vinokurova N.V., Tsap N.A. An integrated approach to the treatment of anorectal malformations in children. *Vestnik Ural'skogo gosudarstvennogo meditsinskogo universiteta = Bulletin of the Ural State Medical University*. 2018; (1): 18–20. [In Russian].

2. Гераськин А.В., Дронов А.Ф., Смирнов А.Н. Детская колопроктология: руководство для врачей. М.: Контэнт, 2012. 664 с.

Geraskin A.V., Dronov A.F., Smirnov A.N. Pediatric coloproctology: A guide for physicians. Moscow: Kontent, 2012. 664 p. [In Russian].

3. Ионов А.Л., ЩербакOVA О.В., Лука В.А., Макаров С.П., Андреев Е.С., Михеев М.Ю., Мызин А.В. Структура послеоперационных осложнений у детей с пороками развития толстой кишки и аноректальной области. *Дет. больница*. 2010. (2): 19–27.

Ionov A.L., Shcherbakova O.V., Luka V.A., Makarov S.P., Andreev E.S., Mikheev M.Yu., Myzin A.V. The structure of postoperative complications in children with malformations of the colon and anorectal region. *Detskaya bol'nitsa = Children's hospital*. 2010; (2): 19–27. [In Russian].

4. Brandt M.L., Daigneau C., Graviss E.A., Naik-Mathuria B., Fitch M.E., Washburn K.K. Validation of the Baylor Continence Scale in children with anorectal malformations. *J. Pediatr. Surg.* 2007; 42 (6): 1015–1021. doi 10.1016/j.jpedsurg.2007.01.070

5. De Blaauw I., Midrio P., Breech L., Bischoff A., Dickie B., Versteegh H.P., Peña A., Levitt M.A. Treatment of adults with unrecognized or inadequately repaired anorectal malformations: 17 cases of rectovestibular and rectoperineal fistulas. *J. Pediatr. Adolesc. Gynecol.* 2013; 26 (3): 156–160. doi 10.1016/j.jpap.2012.12.003

6. Fábio Dória do Amaral. Treatment of anorectal anomalies by anterior perineal anorectoplasty.

J. Pediatr. Surg. 1999; 34 (9): 1315–1319. doi 10.1016/S0022-3468(99)90001-5

7. Gangopadhyay A.N., Pandey Vaibhav, Gupta D.K., Sharma S.P., Vijayendar Kumar, Verma Ashish. Assessment and comparison of fecal continence in children following primary posterior sagittal anorectoplasty and abdominoperineal pull through for anorectal anomaly using clinical scoring and MRI. *J. Pediatr. Surg.* 2016; 51(3): 430–434. doi 10.1016/j.jpedsurg.2015.09.003

8. Hassett S., Snell S., Hughes-Thomas A., Holmes K. 10-year outcome of children born with anorectal malformation, treated by posterior sagittal anorectoplasty, assessed according to the Krickbeek classification. *J. Pediatr. Surg.* 2009; 44 (2): 399–403. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2008.10.092

9. Lane V.A., Skerritt C., Wood R.J., Reck C., Hewitt G.D., McCracken K.A., Jayanthi V.R., DaJusta D., Ching C., Deans K.J., Minnici P.C., Levitt M.A. A standardized approach for the assessment and treatment of internationally adopted children with a previously repaired anorectal malformation (ARM). *J. Pediatr. Surg.* 2016; 51 (11): 1864–1870. doi 10.1016/j.jpedsurg.2016.07.018

10. Lawrence M.R. The failed anoplasty: Successful outcome after reoperative anoplasty and sigmoid resection. *J. Pediatr. Surg.* 1999; 33 (7): 1145–1148. doi 10.1016/S0022-3468(98)90548-6

11. Nam S.H., Kim D.Y., Kim S.C. Can we expect a favorable outcome after surgical treatment for an anorectal malformation? *J. Pediatr. Surg.* 2016; 51 (3): 421–424. doi 10.1016/j.jpedsurg.2015.08.048

12. Pena A., Grasshoff S., Levitt M. Reoperations in anorectal malformations. *J. Pediatr. Surg.* 2007; 42 (2): 318325. doi 10.1016/j.jpedsurg.2006.10.034

13. Pinter A.B., Hock A., Vastyan A., Farkas A. Does the posterior sagittal approach with perirectal dissection impair fecal continence in a normal rectum? *J. Pediatr. Surg.* 1996; 31 (10): 1349–1353. doi 10.1016/S0022-3468(96)90825-8

Сведения об авторах:

Койнов Ю.Ю., ORCID: 0000-0002-9528-0601, e-mail: doctor2012@inbox.ru
Грамзин А.В., к.м.н., ORCID: 0000-0001-7338-7275, e-mail: dxo26@yandex.ru
Кривошеенко Н.В., ORCID: 0000-0001-6210-7493, e-mail: dxo26@yandex.ru
Цыганок В.Н., ORCID: 0000-0003-1176-6741, e-mail: dxo26@yandex.ru
Павлушин П.М., ORCID: 0000-0002-6684-5423, e-mail: pavlushinpav@mail.ru
Чикинев Ю.В., д.м.н., проф., e-mail: chikinev@inbox.ru

Information about authors:

Койнов Ю.Ю., ORCID: 0000-0002-9528-0601, e-mail: doctor2012@inbox.ru
Gramzin A.V., candidate of medical sciences, ORCID: 0000-0001-7338-7275, e-mail: dxo26@yandex.ru
Krivosheenko N.V., ORCID: 0000-0001-6210-7493, e-mail: dxo26@yandex.ru
Tsyganok V.N., ORCID: 0000-0003-1176-6741, e-mail: dxo26@yandex.ru
Pavlushin P.M., ORCID: 0000-0002-6684-5423, e-mail: pavlushinpav@mail.ru
Chikinev Yu.V., doctor of medical sciences, professor, e-mail: chikinev@inbox.ru