



# 婴幼儿慢性复杂性肛管、直肠炎症 9 例分析

黄焱磊 郑 珊 肖现民

**【摘要】 目的** 分析婴幼儿慢性复杂性肛管、直肠炎症的病因及临床诊断方法。**方法** 2008 年 5 月至 2014 年 12 月本院收治慢性复杂性肛管、直肠炎症患儿 9 例,其中男性 7 例,女性 2 例,就诊时年龄 1 岁 8 个月至 3 岁。结合病因诊断,回顾性分析患儿病史、辅助检查以及经验性治疗结果。**结果** 9 例患儿最终病因诊断为 Cronh 病 7 例,肠结核 1 例,疑诊 Crohn 病 1 例。均存在贫血及前白蛋白低下,其中有 4 例血清 IgG 增高,7 例 IgA 增高,结核抗体均为阴性;C-ANCA 弱阳性 2 例(Crohn 病和肠结核各 1 例)。结肠镜显示病变累及全结肠 1 例,左半结肠 4 例,乙状结肠及直肠 4 例。结肠镜检查结合组织病理学表现诊断为 Crohn 病 2 例,肠结核 1 例,经验性药物治疗后确诊 Crohn 病 5 例,1 例诊断不明。**结论** 婴幼儿慢性复杂性肛管、直肠炎症临床诊断需要考虑非特异性炎性肠道疾病的可能性,在明确诊断并治疗原发疾病前不宜局部外科治疗。

**【关键词】** 肛门疾病; 直肠疾病; 婴儿

**Etiologic and clinical analysis on chronic complex anal and rectal. Inflammation in infants.** HUANG Yan-lei, ZHENG Shan, XIAO Xian-min. Department of Pediatric Surgery, Children's Hospital of Fudan University, Shanghai 201102, China. Corresponding author: ZHENG Shan, E-mail: szheng@shmu.edu.cn

**【Abstract】 Objective** To analyze the etiology and clinical diagnostic method for the infants chronic complex anal and rectal inflammation. **Methods** Nine infants with chronic complex anal and rectal inflammation were enrolled between May 2008 and Decmber 2014 at our hospital, 7 were males and 2 were females. Age ranged from 1 year 8 months to 3 years. Clinical history, results of auxiliary examinations, empirical treatment of the infants, and the the etiologic diagnosis were analyzed retrospectively. **Results** Seven cases were diagnosed with Crohn's disease and one intestinal tuberculosis; one cases were suspected to have Crohn's disease. Nine cases had anemia and low pre-albumin level; four cases were found with elevated serologic IgG levels and seven cases with elevated IgA levels; seven cases were found with negative tuberculosis antibody titers and two cases with weakly positive for C-ANCA (one case with Crohn's disease and one intestinal tuberculosis). Colonoscopies revealed that the entire colon was affected in one case, the left hemicolon was affected in four cases and the sigmoid colon and rectum were affected in four patients. Two cases with Crohn's disease and one case with intestinal tuberculosis were diagnosed by colonoscopies in combination with histopathologic examinations. Five cases with Crohn's disease were confirmed after empirical drug treatment, and one other patient were not definitely diagnosed. **Conclusions** The possibility of non-specific inflammatory bowel disease should be considered in the clinical diagnosis of complex chronic anal and rectal inflammation in infants. Local surgical treatment should not be performed before the final diagnosis is established and the primary disease is treated.

**【Key words】** Anus Diseases; Rectal Diseases; Infant

肛周感染在婴幼儿时期非常多见,大部分患儿通过保守治疗、脓肿切开引流后能够痊愈;小部分患儿经久不愈形成单发或多发性肛瘘,但通过局部手术治疗亦可痊愈。临床上存在这样一些少见病例:反复发作肛管、直肠严重感染,或同时伴有肛管炎性

狭窄或多发性肛瘘,这类慢性复杂性肛管、直肠炎症容易忽视或漏诊其原发病因,从而导致病情反复或加重。现回顾性分析本院 9 例慢性复杂性肛管、直肠炎症患儿临床资料,以加强临床医师对这类疾病的病因诊断意识,从而减少误诊和误治。

资料与方法

一、临床资料

2008 年 5 月至 2014 年 12 月,本院共收治慢性复杂性肛管、直肠炎症(指年龄≤3 岁、持续性严重非特异性肛周及直肠感染≥2 个月,伴或不伴有肛周炎性狭窄或多发性肛瘘)患儿 9 例,其中男性 7 例,女性 2 例,就诊时年龄 11 个月至 3 岁。就诊前均以“反复肛周感染”在当地医院予抗炎、止泻及饮食调理等保守治疗,疗程 10 天至 3 周不等,病情反复均长达半年以上。抗感染治疗后患儿肛周炎症均缓解,但数周或数月后又复发。其中 2 例就诊前已在当地医院行横结肠造瘘术,术后肛周感染严重程度均减轻,但仍需间断抗生素治疗。

二、方法

9 例均行结肠镜检查,对全部结肠及末端回肠进行探查,并对病变部位取肠黏膜活检组织 3~6 块不等,分析其所记录的结肠镜下表现及组织病理学特点。

结 果

9 例均在出生后 24 h 内接种卡介苗,无结核病人接触史,也无慢性、炎性肠道疾病等家族史。患儿就诊时生长发育(仅指身高和体重参数)均落后于正常同龄人,腹部触诊均无明显异常,肛周均合并多发性肛裂和肛瘘(图 1),4 例患者同时伴有肛门狭

窄(图 2)。

除 1 例临床表现为“腹泻、便血”患者是中度贫血、轻度低白蛋白血症外,其余 8 例均为轻度贫血、白蛋白均在正常范围内(但前白蛋白均低于正常值)。4 例外周血白细胞计数和 C 反应蛋白略增高( $WBC < 13 \times 10^9/L$ ,  $CRP < 20 \text{ mg/L}$ )。仅 5 例获得红细胞沉降率(ESR)数据,其中 4 例增高( $< 40 \text{ mm/h}$ ),1 例正常。所有患儿免疫功能均正常,结核抗体、T-spot(结核感染 T 细胞斑点)以及 PPD 皮肤试验均为阴性。血清免疫球蛋白 IgG 增高 4 例, IgA 增高 7 例, IgM 增高 3 例;P-ANCA(抗髓过氧化物酶抗体)均为阴性,C-ANCA(抗中性粒细胞胞浆抗体)弱阳性 2 例。粪常规检测异常 4 例:1 例 RBC 20~30 个/HP(粪抗原检测排除肠阿米巴病),3 例 WBC 6~8 个/HP。所有患儿粪培养结果均为阴性。

9 例胸部 X 线检查正常。腹部盆腔 CT 除 2 例见肛周炎性改变外,其余均无异常发现。患儿均行结肠镜检查,完成对全部结肠和末端回肠的探查以及对病变部位的肠黏膜活检,无一例病变累及末端回肠,7 例肠壁红肿糜烂,但未见明显溃疡(图 3),3 例多发性息肉样增生伴肠腔狭窄(图 4)。9 例患儿中,2 例组织病理学表现符合 Crohn 病(显微镜下见炎性肉芽肿,图 5),1 例标本抗酸杆菌染色呈阳性,因而诊断为肠结核。

结肠镜检查或结合组织病理学表现确诊 Crohn 病的 2 例患儿,药物治疗(糖皮质激素)有效,维持治疗后分别随访 4.5 年和 4 年,均无复发。结肠镜及组织病理学检查不支持、但根据肛周疾病(存在

表 1 9 例患儿临床资料

编号	性别	发病年龄	就诊年龄	临床表现	既往手术史	结肠镜表现	病理学表现	诊断	治疗结果	随访
1	男	1 岁 3 个月	1 岁 10 个月	发热(一过性) 肛周疼痛	无	左半结肠炎 肠壁红肿糜烂	黏膜慢性炎症	临床诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈	无复发
2	男	1 岁 1 个月	1 岁 8 个月	肛周疼痛 肛门狭窄	横结肠 造瘘	乙状结肠、直肠炎 肠壁红肿糜烂	黏膜慢性炎症 炎性肉芽肿	病理诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈 狭窄消失	无复发
3	女	6 个月	2 岁 1 个月	腹泻、便血 发热(一过性) 肛周疼痛 肛门狭窄	无	全结肠炎 肠壁红肿糜烂 多发息肉样增生 肠腔狭窄	黏膜 慢性炎症	疑似诊断 Crohn 病	经验性药物 治疗中	随访中
4	男	1 岁 3 个月	2 岁 2 个月	肛周疼痛 肛门狭窄	无	左半结肠炎 多发息肉样 增生肠腔狭窄	黏膜慢性炎症 炎性肉芽肿	病理诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈 狭窄消失	无复发
5	男	1 岁	2 岁	发热(一过性) 肛周疼痛	无	乙状结肠、直肠炎 肠壁红肿糜烂	黏膜 慢性炎症	临床诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈	无复发

续表 1 9 例患儿临床资料

编号	性别	发病年龄	就诊年龄	临床表现	既往手术史	结肠镜表现	病理学表现	诊断	治疗结果	随访
6	女	1 岁 6 个月	3 岁	肛周疼痛	无	左半结肠炎 肠壁红肿糜烂	黏膜 慢性炎症	临床诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈	无复发
7	男	1 岁	1 岁 10 个月	肛周疼痛 肛门狭窄	横结肠造瘘	左半结肠炎 多发息肉样 增生肠腔狭窄	黏膜慢性炎症 抗酸染色阳性	病理诊断 肠结核	抗结核 治疗中	随访中
8	男	3 个月	11 个月	发热(一过性) 肛周疼痛	无	乙状结肠、直肠炎 肠壁红肿糜烂	黏膜 慢性炎症	临床诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈	无复发
9	男	10 个月	1 岁 5 个月	肛周疼痛	无	乙状结肠、直肠炎 肠壁红肿糜烂	黏膜 慢性炎症	临床诊断 Crohn 病	炎症消退 瘘管自愈	无复发

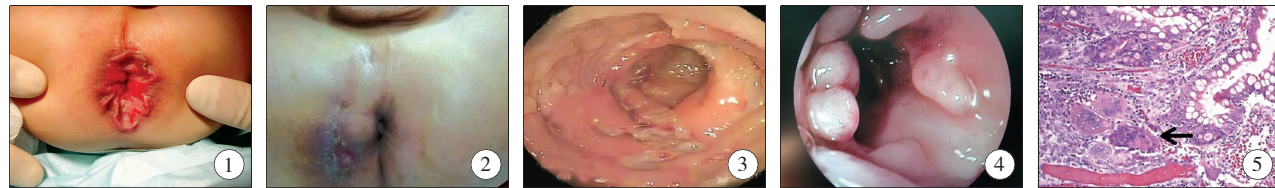


图 1 多发性肛瘘伴肛周皮肤炎症瘢痕明显(例 1); 图 2 慢性肛周炎症伴肛门炎性狭窄(例 2); 图 3 结肠镜下见肠壁红肿糜烂,无明显溃疡(例 1); 图 4 结肠镜下见多发性息肉样增生伴肠腔狭窄(例 4); 图 5 显微镜下见炎症肉芽肿(例 4)

复杂肛瘘)及实验室指标,临床上考虑 Crohn 病的 6 例患儿中,5 例经验性药物(糖皮质激素或联合甲硝唑)治疗有效(肛周炎症明显改善,药物治疗后 3 个月复查结肠镜显示黏膜炎症消退,维持治疗后分别随访 10 个月、2 年、2.5 年、4 年和 5 年,均未复发)。因此临床诊断 Crohn 病 5 例;另 1 例“腹泻、中度便血(粪内容物见大量肠黏膜)、肛门狭窄”患儿,结肠镜下见肠壁大片溃疡和肠腔内息肉样增生,临床高度怀疑 Crohn 病,但病理检查不支持,回肠造瘘后便血减轻,家长拒绝经验性药物治疗,半年后随访结肠镜见结肠多处高度狭窄至闭锁,目前在经验性药物(糖皮质激素联合甲硝唑)治疗中。病理诊断为肠结核(外院已行横结肠造瘘术)的 1 例患儿,家长不配合治疗,患儿病情反复,目前仍在抗结核治疗中。

讨论

肛周感染在婴幼儿时期较常见,临床表现为不同程度肛周局部红肿、脓肿形成,大部分患儿通过保守治疗、脓肿切开引流后痊愈;小部分患儿肛旁脓肿反复发作形成瘘管,轻者表现为单发性肛瘘,少数重者为多发性肛瘘,但通过手术治疗亦可痊愈,极少存在并发症。极少部分患儿存在反复发作的肛管、直肠严重感染,或同时伴有肛管炎性狭窄或多发性肛瘘,对于这类临床表现慢性复杂性肛管、直肠炎症的

后天性小儿疾病,临床医师往往仅予对症局部手术,而忽视或漏诊其原发病因,因此所采取的“治标不治本”的治疗方案往往导致患儿病情反复或加重,甚至采取不必要的附加手术,如结肠造瘘。本组 9 例发病时除局部炎症外,其他伴随症状并不明显,以往资料显示虽然肛周感染反复发作,但每次给予消炎治疗后均能部分缓解炎症,随后复发,形成顽固性感染,产生不同于一般的并发症,如复杂性瘘管和肛管炎性狭窄,临床若继续按照局部处理和治疗的无法治愈的。这 9 例患儿来本院就诊时生长发育状况明显落后于正常同龄人,其肛周表现与普通的肛周脓肿有着显著区别:肛周炎症瘢痕增生明显,部分患儿同时伴有肛门口狭窄和复杂性肛瘘,虽然实验室检查结果异常存在非特异性,但考虑到可能存在的原发疾病,我们进行了结肠镜检查,这对原发疾病的判断和进一步治疗至关重要。

文献报道 Crohn 病中 17%~50% 合并有瘘管,其中 54% 为肛瘘<sup>[1]</sup>。其发病机制尚未阐明,多累及中青年人群,近年来儿童发病率呈上升趋势,据欧洲儿童胃肠病、肝病和营养学会(ESPGHAN)报道,儿童 Crohn 病的发病率从 30 年前的 0.1/10 万上升至 2003 年的 4.6/10 万,溃疡性结肠炎从 0.5/10 万上升至 3.2/10 万<sup>[2]</sup>。目前国内尚缺乏儿童炎症性肠病(Inflammatory bowel diseases, IBD)的流行病学资料,但在临床观察中发现儿童 IBD 呈小年龄发病的

趋势,本组确诊 7 例 Crohn 病患儿的发病年龄为 3 ~ 18 个月,其中最小发病年龄仅为出生后 3 个月,而临床高度怀疑 Crohn 病、在经验性药物治疗中的“腹泻、中度便血”患儿的发病年龄也仅为出生后 6 个月。英国利物浦大学的 Watson 等<sup>[3]</sup>针对 IBD 的研究现状,提出了至今还无法回答的十大问题,其中问题之一就是“是什么因素决定了 IBD 首次发作及复发的时间”。

本组病例的实验室检查结果显示,血清抗体检测对疾病诊断有很大的局限性。有报道 C-ANCA 诊断 IBD 的敏感性为 60%~80%<sup>[4]</sup>,而本组 C-ANCA 结果呈弱阳性的 2 例患儿最终分别诊断为 Crohn 病和肠结核,而肠结核患儿的结核抗体、T-spot 及 PPD 试验结果均为阴性。这可能是因为儿童免疫系统发育尚不完善,在遇到抗原时不一定能够产生相应的抗体。因此有学者指出,特异性低于其敏感性的抗体不应作为初筛手段,而抗体阳性也不足以诊断 IBD,还需结合内镜等其他检查方法<sup>[4]</sup>。

本组确诊的 7 例 Crohn 病内镜下检查病变均位于结肠,据报道 Crohn 病主要是结肠病变的发生率为 32%<sup>[5]</sup>;内镜下除 3 例见多发性息肉样增生伴肠腔狭窄外,其余均未见特征性表现,这除了与本组病例数少有关外,也提示内镜检查对结肠型 Crohn 病的诊断价值有一定局限性。另外,内镜下鉴别增殖型或处于愈合期的肠结核和 Crohn 病是有困难的,因为两者均可表现为黏膜充血水肿、糜烂、溃疡形成、炎性息肉以及肠腔狭窄等变化<sup>[6]</sup>。本组 1 例肠结核患儿内镜下表现与 Crohn 病患儿相似,因此最后鉴别需要病理学检查。

典型的组织病理学表现在疾病诊断及鉴别诊断方面起着重要作用。本组 6 例 Crohn 病患儿的活检组织显微镜下均未见全层炎症改变,这主要与患儿结肠镜下活检组织小、部位浅以及范围少密切相关,因此提倡多部位(包括病变组织、正常组织、病变周围组织以及病变受累的几个节段)取材、深凿活检以提高活检阳性率<sup>[7]</sup>。另外,9 例患儿的组织病理学检查均显示黏膜慢性炎症,仅 2 例因显微镜下见炎性肉芽肿而确诊为 Crohn 病。有学者报道 Crohn 病的病理诊断依赖于发现伴随透壁性炎症或肉芽肿的黏膜损害,前者在 Crohn 病的发生率为 40%,后者达 60%<sup>[8]</sup>。但实际上,对于病理科医师而言,要鉴别在组织学上均表现为肉芽肿性炎症的 Crohn 病和肠结核是很困难的,Ouyang 等<sup>[9]</sup>报道小的、散在的肉芽肿常提示 Crohn 病,大的、聚集的肉芽肿常提示

肠结核。临床上,实际诊断肠结核的特异性指标,其检出率均低于 30%<sup>[10-12]</sup>。而高度特异性的诊断指标在 Crohn 病中尚未发现。因此,在 Crohn 病和肠结核鉴别诊断困难时,国内外学者均强调先施行经验性抗结核治疗的必要性<sup>[13-15]</sup>。

总之,婴幼儿慢性复杂性肛管、直肠炎症容易被忽视其真正病因,临床医师必须增强对其原发病因的诊断意识,需要考虑 Crohn 病或肠结核的可能性。在明确诊断并治疗原发疾病前不宜局部外科治疗。因其实验室检查、影像学表现以及部分病例的肠镜和组织病理学检查缺乏特异性,必要时通过经验性药物治疗来辅助诊断和治疗,从而减少误诊和误治。

## 参考文献

- 1 Nielsen OH, Rogler G, Hahnloser D, et al. Diagnosis and management of fistulizing Crohn's disease [J]. Nat Clin Pract Gastroenterol Hepatol, 2009, 6(2): 92-106.
- 2 IBD Working Group of the European Society for Paediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition. Inflammatory bowel disease in children and adolescents: recommendations for diagnosis-the Porto criteria [J]. J Pediatr Gastroenterol Nutr, 2005, 41: 1-7.
- 3 Colombel JF, Watson AJ, Neurath MF. The 10 remaining mysteries of inflammatory bowel disease [J]. Gut, 2008, 57(4): 429-433.
- 4 Austin GL, Shaheen NJ, Sandler RS. Positive and negative predictive values: use of inflammatory bowel disease serologic markers [J]. Am J Gastroenterol, 2006, 101(3): 413-416.
- 5 Rufo PA, Bousvaros A. Current therapy of inflammatory bowel disease in children [J]. Paediatr Drugs, 2006, 8(5): 279-302.
- 6 Lee YJ, Yang SK, Byeon JS, et al. Analysis of colonoscopic findings in the differential diagnosis between intestinal tuberculosis and Crohn's disease [J]. Endoscopy, 2006, 38(6): 592-597.
- 7 Pulimood AB, Peter S, Ramakrishna B, et al. Segmental colonoscopic biopsies in the differentiation of ileocolic tuberculosis from Crohn's disease [J]. J Gastroenterol Hepatol, 2005, 20(5): 688-696.
- 8 胡品津. 炎症性肠病诊断和鉴别诊断中的困难和对策 [J]. 现代消化及介入诊疗, 2008, 13(3): 193-195.
- 9 Ouyang Q, Tandon Rh, Goh KL, et al. Management consensus of inflammatory bowel disease for the Asia-Pacific region [J]. J Gastroenterol Hepatol, 2006, 21(12): 1772-1782.
- 10 Amarapurkar DN, Patel ND, Rane PS. (下转第 182 页)