

· 论著 ·

两种影像学检查对中高位先天性肛门直肠畸形的诊断价值研究



全文二维码



开放科学码

孙 静 王至立 张 敏 赵焜滨 逯小红 侯金平 王 佚

【摘要】 目的 探讨经结肠远端加压造影与磁共振检查在先天性肛门直肠畸形(anorectal malformation, ARM)诊断中的应用价值。**方法** 收集重庆医科大学附属儿童医院收治的 83 例先天性肛门直肠畸形患者二期手术前骶尾部磁共振与经结肠远端加压造影检查结果,明确两种影像学检查在诊断 ARM 直肠盲端及异常瘻管上的准确性及优点。**结果** 83 例患者中,80 例磁共振检查结果、经结肠远端加压造影检查结果与临床病理类型一致($Kappa=0.794$);3 例磁共振检查结果与造影结果相比,前者仅能显示直肠盲端的位置,未显示异常瘻管。83 例中,经磁共振成像测得直肠盲端距肛隐窝的距离、经结肠远端加压造影检查测得直肠盲端距肛隐窝距离分别为(36.90 ± 9.14) mm 和(36.39 ± 10.81) mm,与术中实际测得距离(34.40 ± 12.70) mm 相比,差异均无统计学意义($P>0.05$)。83 例 ARM 患者磁共振检查结果显示,合并脊髓栓系 8 例,终丝脂肪变性 5 例,骶管内脂肪瘤 1 例,脊髓圆锥低位 5 例,骶尾骨发育异常 3 例,马蹄肾 2 例,肾脏发育不良 3 例,输尿管扩张 5 例,输尿管末端囊肿 1 例,双子宫畸形 2 例, Currarino 综合征 2 例。**结论** 两种影像学检查均能明确直肠盲端位置及异常瘻管情况,但磁共振对于伴发畸形的诊断优势明显;相比于造影检查,磁共振具有组织分辨率高、无辐射暴露及肠穿孔风险等优点。

【关键词】 磁共振成像;经造瘘口加压造影;肛门直肠畸形/诊断;对比研究

【中图分类号】 R195.4 R449 R726.571

Evaluations of two imaging examination in the diagnosis of anorectal malformations. Sun Jing, Wang Zhili, Zhang Min, Zhao Hanbin, Die Xiaohong, Hou Jinping, Wang Yi. Department of Neonatal Gastrointestinal Surgery, Key Laboratory of Child Development & Disorders of Ministry of Education, Chongqing Key Laboratory of Pediatrics, Chongqing International Science & Technology Cooperation Center for Child Development & Disorders, Affiliated Children's Hospital, Chongqing Medical University, Chongqing 400014, China. Corresponding author: Wang Yi, Email: wy757311@hotmail.com

【Abstract】 Objective To explore the application value of distal pressure colostogram (DPCG) versus pelvic magnetic resonance imaging (MRI) in the diagnosis of congenital anorectal malformations (ARMs). **Methods** A retrospective analysis was performed for 83 ARM children before and after second-stage operation to clarify the accuracy and advantages of two imaging modes. **Results** Among them, 80 cases were diagnosed by MRI and clinical pathological type was consistent with the results of DPCG. Three cases showed merely the position of blind rectum and no abnormal fistula was detected. The distances between rectum and anal crypt as measured by MRI, DPCG and actually intraoperatively were (36.90 ± 9.14), (36.39 ± 10.81) and (34.40 ± 12.70) mm respectively. There was no significant difference ($P>0.05$). MRI revealed tethered spinal cord ($n=8$), terminal filament steatosis ($n=5$), intrasacral lipoma ($n=1$), conical spinal cord hypoplasia ($n=5$), metatarsal tail dysplasia ($n=3$) and horseshoe kidneys ($n=2$), abnormal kidney development ($n=3$), ureteral dilatation ($n=5$), ureteral cyst ($n=1$), double uterine malformation ($n=2$) and Currarino syndrome ($n=2$). **Conclusion** Conclusion Both imaging studies can determine the location of blind rectum and

DOI:10.12260/lcxewkzz.2021.012.011

基金项目:重庆市科卫联合医学科研项目(编号:2019 ZDXM021);重庆市自然科学基金(编号:cstc2018jcyjAX0230)

作者单位:重庆医科大学附属儿童医院胃肠新生儿外科,儿童发育疾病研究教育部重点实验室,儿科学重庆市重点实验室,重庆市儿童发育重大疾病诊治与预防国际科技合作基地(重庆市,400014)

通信作者:王佚, Email: wy757311@hotmail.com

abnormal fistulas. As compared with DPCG, MRI offers obvious diagnostic advantages of higher tissue resolutions, radiation non-exposure and bowel non-perforation.

【Key words】 Magnetic Resonance Imaging; Distal Pressure Colostogram; Anorectal Malformations/DI; Comp Study

先天性肛门直肠畸形(anorectal malformation, ARM)是儿童最常见的消化道畸形,发病率为 1/15 000 ~ 1/5 000,男性略多于女性^[1]。早期明确畸形严重程度对外科矫治方案的选择有着重要的意义,尤其在二期肛门成形手术前明确中高位先天性肛门直肠畸形患者直肠盲端位置、有无异常瘘管、伴发畸形极为重要。经造瘘口结肠远端加压造影是临床首选的诊断方法,该方法操作简单、经济、易普及。随着诊疗技术的发展,磁共振成像(magnetic resonance imaging, MRI)技术在先天性肛门直肠畸形诊断中的应用也越来越多,与造影检查相比, MRI 具有无辐射、可多平面成像、对组织分辨率高等优势。本文总结了重庆医科大学附属儿童医院 83 例 ARM 患者手术前两种影像学检查资料,探讨两种影像学检查方法在 ARM 诊断中的应用价值。

材料与方法

一、临床资料

回顾性分析重庆医科大学附属儿童医院 2017 年 1 月至 2019 年 7 月收治的 83 例行分期手术治疗的中高位先天性肛门闭锁患者临床资料,其中男 77 例,女 6 例,首诊年龄出生后 1 h 至 2 d。83 例患者二期肛门成形手术前行经造瘘口结肠加压造影和骶尾部磁共振检查。通过盲审阅片获得经造瘘口加压造影与磁共振检查结果,并获得同一手术医师术中实测资料。

二、检查方法

经造瘘口结肠远端加压造影采用 Philips 胃肠机,用大小合适的硅胶球囊导尿管插入结肠造口远端,通过一定压力注入 350 mgI/mL 碘海醇造影剂,明确直肠盲端与尾骨尖位置关系,判断有无异常尿道瘘管。磁共振检查采用 Axhiewa 3.0TMR 成像仪,体部相控阵列线圈,常规行横断及矢状位扫描。检查前需口服 10% 水合氯醛按 0.5 mL/kg,在肛隐窝处用维生素 E 胶囊固定并作标记。扫描参数:横断位:T1WI:TE 10 ~ 20 ms,TR 550 ~ 700 ms; T2WI:TE 100 ~ 150 ms,TR 3 500 ~ 5 000 ms,层厚 3.0 mm,间距 0 mm;矢状位:T1WI 为 TE 10 ms,TR 400

~550 ms; T2WI 为 TE 100 ~ 150 ms,TR 2 000 ~ 3 500 ms,层厚 3.0 mm,间距 0.5 mm。

三、统计学处理

应用 SPSS 22.0 进行数据整理与分析,计算经造瘘口结肠加压造影和磁共振检查结果一致性的 Kappa 值。对于直肠盲端与正常肛隐窝的距离等计量资料采用均数 ± 标准差($\bar{x} \pm s$)表示,不同检查方法与术中实测距离的比较采用配对 *t* 检验。 $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

结果

一、两种检查结果与临床病理诊断的一致性

根据 2005 年 Krinkbeck 肛门直肠畸形国际诊断分型标准,83 例患者中,术中证实临床病理类型为 ARM 伴尿道球部瘘 37 例,ARM 伴前列腺部瘘 29 例,ARM 伴膀胱颈部瘘 6 例,8 例无异常瘘管,3 例为一穴肛畸形。83 例二期手术前均行经造瘘口结肠加压造影,2 例造影过程中出现远端结肠穿孔未能明确瘘管位置,其余 81 例与术中实际结果一致。83 例患者术前骶尾部磁共振检查显示,80 例与临床病理诊断类型一致,均能明确有无异常瘘管以及直肠盲端与尾骨尖的关系,并经手术证实;3 例 ARM 伴尿道瘘患者仅能明确直肠盲端的位置,未能显示异常瘘管。两种检查结果一致性评价见表 1。

表 1 83 例先天性肛门闭锁患者两种检查结果的一致性评价

Table 1 Consistency evaluation of two examinations in 83 children with anorectal malformation

变量	磁共振检查(例)		Kappa 值	P 值
	阴性	阳性		
造影检查(例)				
阴性	2	1	0.794	<0.001
阳性	0	80		

二、两种检查方法对于伴发畸形的诊断

83 例骶尾部 MRI 检查结果显示,ARM 合并脊髓栓系 8 例(图 1),终丝脂肪变性 5 例,骶管内脂肪瘤 1 例,脊髓圆锥低位 5 例,骶尾骨发育异常 3 例,马蹄肾 2 例,肾脏发育不良 3 例,单侧或双侧输尿管扩张 5 例,输尿管末端囊肿 1 例(图 2),双子宫畸形 2 例(图 3),Currarino 综合征 2 例(图 4)。

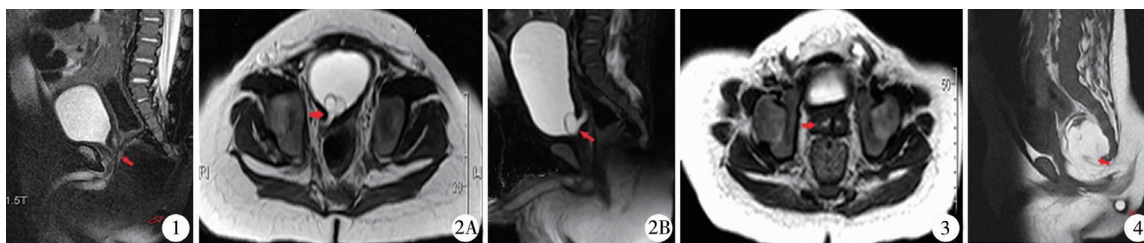


图 1 ARM 合并脊髓栓系患者磁共振检查结果图 注 实心箭头指向瘘管所在位置,空心箭头指向肛门隐窝标记物 图 2 ARM 合并输尿管末端囊肿患者磁共振检查结果图 注 2A:横断位图像;2B:矢状位图像,实心箭头所指为合并输尿管扩张伴末端囊肿 图 3 ARM 合并双子宫畸形磁共振检查结果图 注 实心箭头所指为合并双子宫畸形,中间可见分隔 图 4 ARM 合并 Currarino 综合征磁共振检查结果图 注 实心箭头所指为骶前脂肪肿块,空心箭头所指为正常肛门隐窝处标记物
Fig. 1 MRI of ARM with tethered cord Fig. 2 MRI of ARM with ureterocele Fig. 3 MRI of ARM with double uterine deformity Fig. 4 MRI of ARM with currarino syndrome

三、两种检查测得直肠盲端与肛隐窝之间距离

83 例经造瘘口结肠远端加压造影和骶尾部磁共振检查测得直肠盲端与正常肛隐窝之间的距离分别为 (36.39 ± 10.81) mm 和 (36.90 ± 9.14) mm,二者与术中实际测得距离 (34.40 ± 12.70) mm 相比,差异均无统计学意义 (P 均 >0.05)。其中 2 例于外院一期行结肠造瘘术,造影结果显示为乙状结肠远端造瘘导致预留远端结肠过短;2 例 (2.4%) 分别为尿道球部瘘和尿道前列腺部瘘 (图 5,图 6),造影时出现远端结肠穿孔,经探查手术证实为继发性乙状结肠狭窄并治愈。

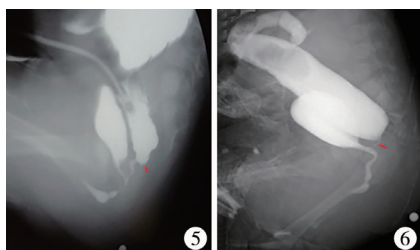


图 5 ARM 合并尿道球部瘘造影图像 注 实心箭头处可见远端预留结肠过短,导致无法完成二期肛门成形术 图 6 ARM 合并前列腺部瘘造影图像 注 实心箭头处可见瘘管细小,需足够压力才能显影,但直肠盲端张力过高
Fig. 5 Image of ARM with recto-urethral-bulbar fistula Fig. 6 Image of ARM with recto-urethral-prostatic fistula

讨论

先天性肛门直肠畸形常伴有心脏、泌尿系统及脊柱脊髓等多系统畸形^[2]。手术是矫治该类疾病的唯一方法,早期通过会阴部体格检查和出生后 12 h 倒立位摄片可初步判断肛门闭锁的位置,并决定是否需要行分期手术。对于中、高位肛门闭锁患者需进一步明确直肠盲端具体位置以及有无异常尿道瘘管等。国内外学者一直认为,经造瘘口结肠远端加压造影是最为简单、经济、有效的术前诊断方法,但随

着人们对 ARM 认识的加深,有不少学者认为 MRI 也有着同样的诊断效果,避免了辐射暴露,降低了结肠穿孔的风险^[3,4]。

经造瘘口远端结肠加压造影需选择恰当的硅胶导管插入远端造瘘口,以合适压力注入造影剂,进而明确远端结肠形态、直肠盲端及位置关系、异常瘘管情况。笔者认为合格的经造瘘口造影检查需明确以下结果:①直肠盲端与正常肛隐窝之间的距离;②造瘘口远端结肠的长度及张力;③是否合并异常泌尿生殖道瘘管及瘘管具体开口位置;④直肠盲端与尾骨尖端的位置关系。明确上述造影结果对确定恰当的手术方案有很大帮助。本组有 2 例患者为乙状结肠远端造瘘,造影显示远端预留结肠过短导致无法直接行二期手术,而需再次行横结肠造瘘,预留出足够长度的结直肠后再完成肛门矫治手术,说明经造瘘口造影能及时发现问题预防性结肠造瘘的位置错误,避免不必要伤害。

造瘘口加压造影检查对于压力的控制全凭医师经验,少见关于压力值范围的文献报道。Kraus 等^[3]、Kavalcova^[5]报道即使是经验丰富的小儿外科医师行加压造影检查,也有 10%~20% 的 ARM 患者异常瘘管被漏诊,这与造影时压力控制有关。结肠造瘘术后患者远端直肠盲袋粪便蓄积致瘘管堵塞,增加压力可提高瘘管的检出率,但也增加了肠穿孔的风险。本研究有 2 例 (2/81, 2.4%) 造影时出现远端结肠穿孔,腹腔探查证实为继发性乙状结肠狭窄。

最早由 Currarino 等^[6]提出 ARM 可合并骶尾椎畸形、骶前肿物 (即 Currarino 综合征),建议术前常规行骶尾部 MRI 检查以明确是否合并脊柱脊髓畸形,这类合并畸形会增加肛门成形术后排便功能障碍的发生率,影响临床医生对术后肛门功能的综合评估。Elsayed 等^[7]报道 ARM 患者磁共振检查可发现 10%~50% 合并脊柱脊髓畸形,且在高位肛门

闭锁患者中合并脊柱脊髓畸形的概率更高^[8]。本研究结果与文献报道相似。Kavalcova^[5]报道 20%~25% 的肛门闭锁合并泌尿生殖道畸形, 本研究中合并泌尿生殖道畸形者占比略低(5.7%)。

磁共振成像技术有分辨率高、多平面立体扫描的优势, 能准确分辨直肠壁与周围组织之间的界限, 从而确定直肠盲端的位置。Madhusmita 等^[9]认为 MRI 对于确定直肠盲端位置的总体准确率为 93.3%, 同时认为其对于异常瘘管的检出率高于加压造影检查, 国内文献也有类似报道^[10,11]。本研究中磁共振检查均明确直肠盲端位置, 与造影检出率一致, 且二者测得直肠盲端与正常肛隐窝间距离无明显差异; 83 例中, 有 3 例未能观察到异常瘘管, 可能原因如下: ①镇静效果不佳, 导致呼吸运动对盆底造成伪影, 年龄越小伪影越严重; ②造瘘术后远端结直肠盲袋大便蓄积, 堵塞细小瘘管导致无法显影。

参 考 文 献

- 1 杨中华, 王大斌, 刘丹, 等. 先天性肛门直肠畸形术后合并便秘患儿排便功能评定及病因探讨[J]. 临床小儿外科杂志, 2020, 19(1): 18-25. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2020.01.004.
Yang ZH, Wang DB, Liu D, et al. Comprehensive assessments of defecation functions in anorectal malformation children with postoperative constipation[J]. J Clin Ped Sur, 2020, 19(1): 18-25. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2020.01.004.
- 2 张敏, 孙静, 王至立, 等. 先天性复杂肛门直肠畸形合并畸形的临床分析[J]. 第三军医大学学报, 2018, 40(17): 1590-1594. DOI: 10.16016/j.1000-5404.201802036.
Zhang M, Sun J, Wang ZL, et al. Clinical analysis for associated congenital anomalies in congenital complex anorectal malformation[J]. Journal of Third Military Medical University, 2018, 40(17): 1590-1594. DOI: 10.16016/j.1000-5404.201802036.
- 3 Kraus SJ, Levitt MA, Peña A. Augmented-pressure distal colostogram: the most important diagnostic tool for planning definitive surgical repair of anorectal malformations in boys[J]. Pediatr Radiol, 2017, 48(2): 1-12. DOI: 10.1007/s00247-017-3962-2.
- 4 张英杰, 王瑶, 刘爱萍, 等. 经结肠造瘘口加压造影诊断直肠下泌尿道瘘的价值[J]. 中国医学影像学杂志, 2014, 22(5): 380-382. DOI: 10.3969/j.issn.1005-5185.2014.05.016.
Zhang YJ, Wang Y, Liu AP, et al. Diagnostic value of pressure colostogram for fistula between rectum and lower urological tract[J]. Chinese Journal of Medical Imaging, 2014, 22(5): 380-382. DOI: 10.3969/j.issn.1005-5185.2014.05.016.
- 5 Kavalcova L, Skaba R, Kynel M, et al. The diagnostic value of MRI fistulogram and MRI distal colostogram in patients with anorectal malformations[J]. J Pediatr Surg, 2013, 48(8): 1806-1809. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2013.06.006.
- 6 Currarino G, Coln D, Votteler T. Triad of anorectal, sacral, and presacral anomalies[J]. AJR Am J Roentgenol, 1981, 137(2): 395-398. DOI: 10.2214/ajr.137.2.395.
- 7 Elsayed RF, Kamal HA, El-Liethy NE. Recent advances in MRI in the preoperative assessment of anorectal malformations[J]. Egyptian Journal of Radiology and Nuclear Medicine, 2016, 47(3): 711-721. DOI: 10.1016/j.ejnm.2016.05.014.
- 8 赵焱滨, 侯金平, 侯金凤, 等. 先天性复杂肛门直肠畸形合并脊髓发育异常患儿排便功能的临床研究[J]. 第三军医大学学报, 2019, 41(12): 1167-1173. DOI: 10.16016/j.1000-5404.201812104.
Zhao HB, Hou JP, Hou JF, et al. Defecatory function in children with congenital complex anorectal malformations complicated by spinal cord dysplasia[J]. Journal of Third Military Medical University, 2019, 41(12): 1167-1173. DOI: 10.16016/j.1000-5404.201812104.
- 9 Madhusmita, Ghasi R, Mittal MK, et al. Anorectal malformations: Role of MRI in preoperative evaluation[J]. Indian J Radiol Imaging, 2018, 28(2): 187-194. DOI: 10.4103/ijri.IJRI_113_17.
- 10 Nievelstein RA, Vos A, Valk J, et al. Magnetic resonance imaging in children with anorectal malformations: Embryologic implications[J]. J Pediatr Surg, 2002, 37(8): 1138-1145. DOI: 10.1053/jpsu.2002.34459.
- 11 杜秀明, 冷忠诚, 荆彦平, 等. 磁共振成像在小儿先天性肛门闭锁的诊断价值[J]. 实用医学影像杂志, 2019, 20(6): 571-573. DOI: 10.16106/j.cnki.cn14-1281/r.2019.06.009.
Du XM, Leng ZC, Jin YP, et al. Diagnostic value of MRI in children with congenital anal atresia[J]. Journal of Practical Medical Imaging, 2019, 20(6): 571-573. DOI: 10.16106/j.cnki.cn14-1281/r.2019.06.009.

(收稿日期: 2020-03-10)

本文引用格式: 孙静, 王至立, 张敏, 等. 两种影像学检查对中高位先天性肛门直肠畸形的诊断价值研究[J]. 临床小儿外科杂志, 2021, 20(12): 1159-1162. DOI: 10.12260/lxewkzz.2021.12.011.

Citing this article as: Sun J, Wang ZL, Zhang M, et al. Evaluation of two imaging examination in the diagnosis of anorectal malformation[J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(12): 1159-1162. DOI: 10.12260/lxewkzz.2021.12.011.