

· 专题 · 复杂肛门直肠畸形 ·

先天性巨结肠根治术后医源性
直肠阴道瘘的再手术治疗

全文二维码

吴东阳 陈亚军 王增萌 彭春辉 庞文博 黄心洁 王凯

国家儿童医学中心 首都医科大学附属北京儿童医院普外科, 北京 100045

通信作者: 陈亚军, Email: chenyaunmd@aliyun.com

【摘要】 目的 分析先天性巨结肠根治术后医源性直肠阴道瘘的发生原因, 探讨再次手术治疗的方法及效果。 **方法** 回顾性分析 2007 年 12 月至 2020 年 12 月首都医科大学附属北京儿童医院普外科收治的 6 例先天性巨结肠根治术后医源性直肠阴道瘘患儿临床资料。再次手术治疗的方式包括经腹经肛 Soave 术、经会阴或经肛门修补手术。分析发生直肠阴道瘘的原因, 总结手术经验, 随访预后情况。

结果 6 例患儿临床表现均为自阴道内漏出粪便, 其中 4 例出现在初次手术后, 2 例出现在再次手术后; 行再次手术的原因分别为手术后腹腔出血、存在肠无神经节细胞段残留。4 例合并吻合口回缩、狭窄, 采用经腹经肛 Soave 术治疗直肠阴道瘘及吻合口回缩、狭窄, 均经单次修复获成功; 2 例仅单纯局部修补直肠阴道瘘, 其中 1 例经肛门修补 2 次后瘘管闭合, 1 例经会阴/经肛门局部修补 5 次后瘘管仍未闭合。

结论 先天性巨结肠根治术后直肠阴道瘘是一种较为严重的医源性损伤, 在进行先天性巨结肠拖出手术时应紧贴直肠黏膜下层或直肠壁分离, 以避免损伤阴道。经腹经肛 Soave 手术修复直肠阴道瘘成功率高, 可同时处理吻合口回缩、狭窄。

【关键词】 巨结肠; 先天性巨结肠病; 直肠阴道瘘; 腹腔镜; 外科手术

DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202204093-005

Redo surgery for iatrogenic rectovaginal fistula after pull-through in Hirschsprung's disease

Wu Dongyang, Chen Yajun, Wang Zengmeng, Peng Chunhui, Pang Wenbo, Huang Xinjie, Wang Kai

Department of General Surgery, Beijing Children's Hospital, Capital Medical University, National Center for Children's Health, Beijing 100045, China

Corresponding author: Chen Yajun, Email: chenyaunmd@aliyun.com

【Abstract】 Objective To explore the causes of iatrogenic rectovaginal fistula after pull-through in Hirschsprung's disease (HD) and summarize the experiences and efficacies of reoperation. **Methods** From December 2007 to December 2020, retrospective review was conducted for clinical data of 6 HD children with iatrogenic rectovaginal fistula after pull-through. The surgical procedures for repairing rectovaginal fistula included transabdominal and transanal Soave, transperineal or transanal surgery. **Results** A total of six girls were included. Clinical manifestation was vaginal excretion. Injuries occurred in initial surgery ($n=4$) and during redo pull-through ($n=2$). The reasons for re-operation were postoperative abdominal hemorrhage and aganglionic segment residue. Rectovaginal fistula with anastomotic retraction and stenosis were successfully repaired by transabdominal and transanal Soave procedure in single time ($n=4$). The remaining two cases underwent simple local repair of rectovaginal fistula, including fistula closure after anal repair twice ($n=1$) and failed closure after five local (perineal/anal) repairs ($n=1$). **Conclusion** Rectovaginal fistula after pull-through in HD is a serious iatrogenic injury. It should be separated close to rectal submucosa/rectal wall to avoid vaginal injury. Transabdominal and transanal Soave procedure has a high success rate for repairing rectovaginal fistula and managing anastomotic retraction and stenosis.

【Key words】 Megacolon; Hirschsprung's Disease; Rectovaginal Fistula; Laparoscopes; Surgical Procedures, Operative

DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202204093-005

先天性巨结肠 (Hirschsprung's disease, HSCR) 根治术后直肠阴道瘘是一种较为罕见的并发症,需要再次手术修复以恢复正常的解剖结构与生理功能^[1-4]。由于前次手术的影响,患儿瘘管周围常存在严重瘢痕,且常合并其他并发症,使得再次手术面临巨大挑战。本研究通过回顾性分析 6 例先天性巨结肠根治术后直肠阴道瘘患儿的临床资料,探讨先天性巨结肠手术后直肠阴道瘘的发生原因,总结手术经验,评估预后。

资料与方法

一、研究对象

2007 年 12 月至 2020 年 12 月,首都医科大学附属北京儿童医院普外科共收治 6 例女性先天性巨结肠根治术后直肠阴道瘘患儿。收集 6 例患儿临床资料,包括临床表现、既往手术史、肛门指诊情况、影像学特点、再次手术方式及临床结果。

本研究已通过首都医科大学附属北京儿童医院医学伦理委员会批准([2022]-E-018-R)。

二、直肠阴道瘘的分型及定义

依据美国结直肠外科学会 2016 年制定的指南对本研究纳入的直肠阴道瘘分型^[5]。依据瘘管位置进行分型:低位直肠阴道瘘是指位于肛管(齿状线或以下)与阴唇系带内侧阴道间的瘘管;高位直肠阴道瘘是指位于宫颈水平阴道与直肠之间的瘘管;中位直肠阴道瘘是指位置介于上述两者之间的瘘管。依据复杂程度分型:简单瘘管为由产科损伤或感染导致、连接肛管和阴道的低位、直径<2.5 cm 的瘘管;复杂瘘管为直肠和阴道之间的高位瘘管,或由医源性、辐射、癌症或炎性肠病造成,或瘘口直径较大的瘘管^[5]。

三、手术方式

1. 经腹经肛 Soave 手术:患儿取平卧位,留置尿管,开腹,自近端向远端游离肠管至腹膜反折处,转会阴部手术,于齿状线上 0.8 cm 环形切开黏膜,紧贴黏膜下层游离至腹膜反折处后与近端汇合,下拖肠管在无张力下与肛门间断吻合。

2. 经会阴入路手术:患儿取截石位,留置尿管,于会阴部正中做纵行切口,前至阴道后壁,后至直肠前壁,根据情况切开直肠前壁,暴露直肠阴道瘘管后游离切除,分别修补阴道及直肠,缝合两侧肛提肌,恢复会阴体结构。

3. 经肛门入路手术:患儿取截石位,留置尿管,

牵开肛门,暴露直肠内瘘口,环瘘口缝牵引线,游离瘘管至阴道端切除,分别缝合、修补阴道及直肠。

四、术后随访

采取门诊复查或电话随访,随访内容包括直肠阴道瘘有无复发及肛门排便功能情况。

结 果

一、既往手术情况

6 例患儿均由其他医疗机构转诊至本院。4 例为初次手术后出现阴道漏出粪便,其中病例 3、病例 6 于初次巨结肠根治术后出现阴道内漏便,未经历其他手术。病例 1 为全结肠型巨结肠,于初次巨结肠根治术后出现阴道内漏便后曾接受回肠造瘘术及 2 次经肛门直肠阴道瘘修补术,但直肠阴道瘘仍未愈合。病例 2 在初次巨结肠根治术(Duhamel 术)后出现阴道漏便,行结肠造瘘术后 7 年再次行 Duhamel 术治疗直肠阴道瘘,但关闭肠瘘后仍有直肠漏便,行回肠造瘘后转诊至本院。病例 4、病例 5 为再次手术后出现阴道漏便。病例 4 在初次巨结肠根治术后 1 周因出血性休克再次接受开腹止血及拖出手术,术中行回肠造瘘,关闭肠瘘后 1 个月出现阴道漏便,再次行回肠造瘘术,随后又行经腹经肛 Soave 术及 2 次直肠阴道瘘修补术(具体术式不详),术后直肠阴道瘘仍存在。病例 5 在初次先天性巨结肠根治术后因肠梗阻接受剖腹探查术,后又因无神经节细胞段肠管残留而再次行经腹经肛巨结肠根治术,术后 1 年余发现阴道内漏出粪便,全身麻醉下探查发现齿状线上 1.5 cm 处存在直肠阴道瘘,但未予修补(表 1)。

二、临床症状及影像学检查

6 例均表现为经阴道内漏出大便。在进行肛门指诊时,除病例 5 外,其余 5 例肛门指诊时可在直肠前壁触及瘘口。术前行下消化道造影检查,在肠道内注入造影剂后,5 例可见前方阴道显影(图 1),仅病例 5 未见阴道内有造影剂溢出。

三、修复方式及临床结局

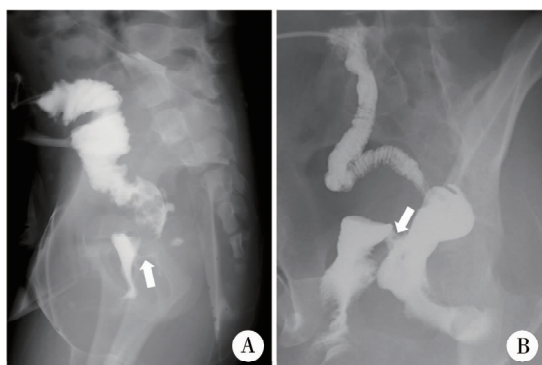
6 例患儿初次修复手术时年龄为(6.95±3.49)岁,均属于复杂型瘘管(医源性损伤),其中 2 例(病例 2、病例 6)为高位直肠阴道瘘,4 例为中位直肠阴道瘘。4 例采用经会阴或经肛门入路联合经腹经肛 Soave 手术修补直肠阴道瘘,同时治疗吻合口回缩、狭窄(图 2A、图 2B),此 4 例患儿均经单次手术成功闭合直肠阴道瘘。病例 2 入院前已在外院行肠造

表 1 6 例先天性巨结肠根治术后直肠阴道瘘患儿临床资料

Table 1 Clinical data of children with rectovaginal fistula after pull-through in Hirschsprung's disease

序号	修复年龄 ^a	既往根治手术方式	术后出现阴道漏便时间	瘘口至齿状线距离 (cm)	瘘口直径 (cm)	吻合口情况	修复术式 ^b	保护性肠造瘘	修复次数 ^c	手术结局
病例 1	4 岁	经腹经肛 Soave 术	初次手术后 1 年	2.00	1.50	回缩狭窄	经会阴修补术 + 经腹经肛 Soave 术	是	1	成功
病例 2	12 岁 3 个月	Duhamel 术	初次手术后 3 天	5.00	1.00	正常	经肛/经会阴修补术	否	5	失败
病例 3	4 岁 5 个月	经肛拖出术	初次手术后 1 个月	3.00	0.50	狭窄	经肛修补术	否	2	成功
病例 4	6 岁 7 个月	经腹经肛拖出术	再次手术后 1 个月	0.50	0.80	回缩狭窄	经肛修补术 + 经腹经肛 Soave 术	是	1	成功
病例 5	10 岁 2 个月	经腹经肛拖出术	再次手术后 1 年	1.50	0.10	回缩狭窄	经肛修补术 + 经腹经肛 Soave 术	是	1	成功
病例 6	4 岁 3 个月	Swenson 术	初次手术后 3 个月	5.00	0.50	回缩狭窄	经肛修补术 + 经腹经肛 Soave 术	否	1	成功

注 ^a: 在本院进行初次修复手术时年龄; ^b: 在本院进行修复的手术方式; ^c: 在本院进行修复的手术次数



注 A: 病例 1, 下消化道造影见前方阴道显影, 白色箭头所示变细处为直肠阴道瘘, 瘘管位于中部; B: 病例 2, 下消化道造影见前方阴道显影, 白色箭头所示为直肠及阴道瘘, 瘘管位置较高, 约位于阴道后穹窿

图 1 直肠阴道瘘患儿下消化道造影结果

Fig. 1 Lower gastrointestinal tract angiography in children with rectovaginal fistula

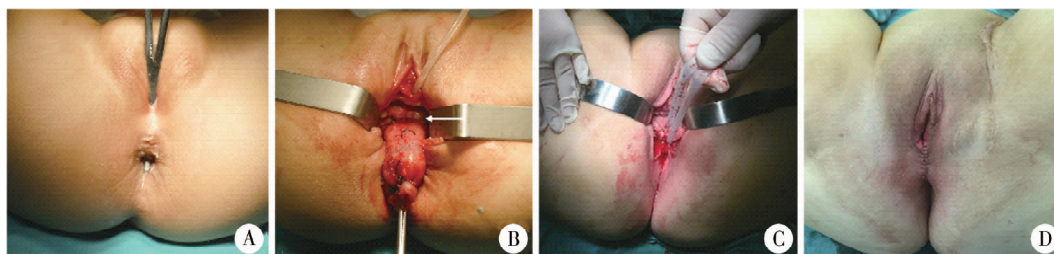
瘘术, 肛门指诊吻合口无狭窄, 术中探查见结肠仅剩回盲部, 为保留回盲部而未再行拖出手术, 先后经历 2 次经会阴入路修补术及 3 次经肛门修补术, 均未成功(图 2C、图 2D)。病例 3 仅有吻合口狭窄,

在经肛门直肠阴道瘘修补术的同时切开狭窄的吻合口, 并将直肠前壁游离下拖后覆盖瘘口, 经 2 次修补后获得成功。病例 1、病例 4、病例 5 因既往多次行开腹及拖出手术, 直肠周围及盆腔瘢痕严重, 术中游离广泛, 予保护性造瘘术以转流粪便(表 1)。

最终 5 例患儿术后直肠阴道瘘管成功闭合, 仅 1 例(病例 2)经历 5 次修复手术后瘘管仍未闭合, 需长期保留肠造瘘。3 例肠造瘘患儿经肛门指诊及下消化道造影证实直肠阴道瘘消失后还纳肠瘘, 还纳后未再出现阴道内漏出粪便。2 例未行肠造瘘的患儿术后未再出现阴道内漏出粪便, 同时经肛门指诊及下消化道造影证实直肠阴道瘘闭合。

四、随访情况

除 1 例修复失败患儿(病例 2)失访外, 其余 5 例均获随访, 随访中位时间 84 个月(42 ~ 147 个月), 均未再次出现阴道内漏出粪便, 5 例可自主排便, 3 例排便正常, 1 例偶有污粪, 1 例存在每日污粪。



注 A: 蚊氏钳经直肠阴道瘘穿过后自肛门露出(病例 1); B: 经腹经肛 Soave 术修补直肠阴道瘘(病例 1), 拖出肠管前方为阴道后壁(白色箭头); C: 经会阴入路修补, 尿管指示直肠阴道瘘走行(病例 2); D: 经会阴入路修补直肠阴道瘘术后外观(病例 2)

图 2 直肠阴道瘘修补手术情况

Fig. 2 Surgical procedure of repairing rectovaginal fistula

讨 论

先天性巨结肠根治术后直肠阴道瘘较罕见,其发生与手术操作不当有关,是一种医源性损伤^[2-3]。直肠阴道瘘常出现于经肛门直肠内拖出术后,当进行直肠内操作时,因阴道后壁与直肠紧贴,若操作不当极易被损伤^[1-3,6-7]。电刀是游离直肠的常用器械,Soave 手术是紧贴直肠黏膜下层自远端向近端分离肠管,而 Duhamel 或 Swenson 手术是自近端向远端紧贴直肠壁游离肠管。无论采取何种手术方式,若在操作过程中偏离解剖平面,均可能损伤前方阴道,最终形成直肠阴道瘘。直肠阴道瘘的主要临床表现是阴道漏便,而阴道漏便的发现与看护人的细致程度、患儿表达能力、大便性状及瘘口大小有关,因此阴道漏便可能于术后数天至数月内出现。

对严格遵守外科原则并接受过正规训练的结直肠外科医生而言,直肠阴道瘘的发生是一种可避免的并发症^[2]。有学者认为,手术中在阴道内放置支架作为指引是一种非常有效的预防措施,可降低直肠分离过程中损伤阴道的风险^[8]。实施经肛门 Soave 手术时,应均匀留置牵引线使黏膜袖环周均匀受力,全程应紧贴黏膜下层进行分离,控制好直肠黏膜的厚度,在腹膜反折水平打开直肠肌袖时,应从侧壁进入,避免损伤前方阴道。若采取经腹或经腹腔镜辅助,则在分离直肠周围组织时采取自近端向远端进行,此时应紧贴肠壁分离,因浆膜面较容易辨识,可保证剥离过程始终处于同一平面。对因各种原因需进行再次拖出手术的患儿而言,粘连瘢痕的存在可使游离直肠或盆腔的过程变得更为困难,这也意味着损伤风险的增加,因此术中需要仔细辨认解剖结构。本组有 2 例患儿是在再次拖出手术后出现直肠阴道瘘,因此,若再次行拖出手术则需更加谨慎。

关于直肠阴道瘘修补术前或术中是否需要行肠造瘘,目前尚无定论。有学者认为,通过肠造瘘可望出现瘘管自发闭合,也有学者认为应当更积极修复瘘管而非等待其自然闭合^[7,9-10]。当然,粪便转流手术的实施不仅仅是为了使瘘管自发闭合,其主要目的是控制局部及腹腔感染,以利于后续根治性修复手术的实施^[5]。本组有 3 例在术前因严重吻合口漏进行了肠造瘘。虽然目前暂无研究验证施行根治手术的最佳时机,但一般认为应与上次手术至少间隔 6 个月,并应在腹腔或局部感染控制

后进行,在此期间应予坐浴,以达到减轻局部感染和软化瘢痕的目的^[5,7,10-11]。本组所有患儿修复手术均与上次手术间隔 6 个月以上,并在此期间给予坐浴。

直肠阴道瘘的修复因失败率较高而成为外科医生面临的难题^[12-13]。本组 6 例直肠阴道瘘均为结直肠手术后出现的医源性损伤,按照美国结直肠外科学会直肠阴道瘘分类原则,均为复杂型瘘管,此种类型瘘管的修复成功率较低^[5,12-13]。本组有 3 例入院前有过头修复手术史但均失败,其中 1 例在本院再次经历数次手术后仍未成功,也证实了医源性直肠阴道瘘修复难度大,治疗困难。

直肠阴道瘘的修复手术入路繁多,包括:经会阴入路、经肛门入路、经括约肌入路、间置皮瓣、后矢状入路及经腹腔入路等^[1-4,7,12-13]。因此种并发症相对罕见,目前尚无适用于修复任何类型瘘管的通用术式,具体术式的选择主要取决于瘘管位置、大小、病因以及术者经验^[5,12-13]。本组 4 例在局部修复的同时行经腹经肛 Soave 手术,均经单次手术获成功。1 例中位直肠阴道瘘患儿通过两次经肛门修复并直肠前壁下拖覆盖后最终成功闭合瘘管。另 1 例高位瘘患儿(病例 2)因吻合口无明显回缩狭窄,且结肠仅剩回盲部,未再次行拖出手术,经历 5 次经会阴或经肛门修补后仍然失败。经腹经肛 Soave 手术在修补直肠阴道瘘的同时解除了并发的吻合口回缩与狭窄问题,拖出的正常肠管可以覆盖阴道侧修补后的创面,能够降低瘘管复发的风险,适用于因医源性损伤所致的复杂直肠阴道瘘^[5,14]。直肠阴道瘘患儿既往常有开腹手术史,部分患儿曾经历多次手术,不但直肠周围瘢痕粘连明显,腹盆腔内也常有明显粘连,因此在再次行拖出手术时应经腹辅助游离,避免单纯经直肠拖出而增加副损伤的风险。在分离直肠时应上下联合操作,术中仔细辨认解剖层次,避免再次损伤阴道。对腹盆腔有广泛游离、直肠瘢痕粘连严重、高位瘘及阴道缺损较大的患儿,推荐术中同时行保护性肠造瘘术,以转流粪便,降低感染风险,从而有助于吻合口的愈合,此观点与其他学者一致^[12-13]。

本组 5 例患儿获修复成功,随访过程中未再出现瘘管复发,但有 2 例存在不同程度污粪,1 例为全结肠型巨结肠患儿偶有污粪,1 例为巨结肠术后腹腔出血予再次手术止血及重新拖出的患儿存在每日污粪,此患儿在本院手术前还经历过数次经腹经肛拖出术,考虑可能与多次手术损伤了控便功能有

关,其余 3 例患儿排便正常。

综上所述,先天性巨结肠根治手术后直肠阴道瘘是一种较为严重的医源性损伤,应在行直肠内拖出手术时紧贴直肠黏膜下层或直肠壁分离,以避免损伤阴道。经腹经肛 Soave 手术修复直肠阴道瘘成功率高,可同时处理吻合口回缩、狭窄。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突。

作者贡献声明 吴东阳、陈亚军、王增萌负责研究的设计、实施和起草文章;吴东阳、彭春辉、庞文博、黄心洁、王凯进行病例数据收集及分析;吴东阳、陈亚军、王增萌负责研究设计与酝酿,并对文章知识性内容进行审阅

参 考 文 献

- [1] Huang XJ, Tan SS, Chen YJ, et al. Acquired rectovaginal and rectovaginal fistulas in children: a systematic review[J]. Front Pediatr, 2021, 9: 657251. DOI: 10.3389/fped.2021.657251.
- [2] Peña A, Elicevik M, Levitt MA. Reoperations in Hirschsprung disease[J]. J Pediatr Surg, 2007, 42(6): 1008-1014. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2007.01.035.
- [3] Sun S, Chen G, Zheng S, et al. Usefulness of posterior sagittal anorectoplasty for redo pull-through in complicated and recurrent Hirschsprung disease: experience with a single surgical group[J]. J Pediatr Surg, 2017, 52(3): 458-462. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2016.08.016.
- [4] Piper HG, Trussler A, Schindel D. Gracilis transposition flap for repair of an acquired rectovaginal fistula in a pediatric patient[J]. J Pediatr Surg, 2011, 46(8): e37-e41. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2011.05.004.
- [5] Vogel JD, Johnson EK, Morris AM, et al. Clinical practice guideline for the management of anorectal abscess, fistula-in-ano and rectovaginal fistula[J]. Dis Colon Rectum, 2016, 59(12): 1117-1133. DOI: 10.1097/DCR.0000000000000733.
- [6] Sowande OA, Adejuyigbe O. Posterior sagittal approach in complicated Swenson's pull-through[J]. J Indian Assoc Pediatr Surg, 2008, 13(1): 14-17. DOI: 10.4103/0971-9261.42567.
- [7] Liu GC, Xia HM, Wen YQ, et al. Considerations before repair of acquired rectovaginal and urethrovaginal fistulas in children[J]. World J Pediatr, 2008, 4(1): 53-57. DOI: 10.1007/s12519-008-0011-0.
- [8] Podevin G, Lardy H, Azzis O, et al. Technical problems and complications of a transanal pull-through for Hirschsprung's disease[J]. Eur J Pediatr Surg, 2006, 16(2): 104-108. DOI: 10.1055/s-2006-923995.
- [9] Kosugi C, Saito N, Kimata Y, et al. Rectovaginal fistulas after rectal cancer surgery: incidence and operative repair by gluteal-fold flap repair[J]. Surgery, 2005, 137(3): 329-336. DOI: 10.1016/j.surg.2004.10.004.
- [10] Nerli RB, Koura A, Prabha V, et al. Acquired recto-urethral fistula in children: long-term follow-up[J]. J Pediatr Urol, 2009, 5(6): 485-489. DOI: 10.1016/j.jpuro.2009.03.001.
- [11] Ramírez-Martín D, Jara-Rascón J, Renedo-Villar T, et al. Rectovaginal fistula management[J]. Curr Urol Rep, 2016, 17(3): 22. DOI: 10.1007/s11934-016-0578-2.
- [12] Corte H, Maggiori L, Treton X, et al. Rectovaginal fistula: what is the optimal strategy?: an analysis of 79 patients undergoing 286 procedures[J]. Ann Surg, 2015, 262(5): 855-861. DOI: 10.1097/SLA.0000000000001461.
- [13] Studniarek A, Abcarian A, Pan J, et al. What is the best method of rectovaginal fistula repair? A 25-year single-center experience[J]. Tech Coloproctol, 2021, 25(9): 1037-1044. DOI: 10.1007/s10151-021-02475-y.
- [14] 李颀, 张震, 李龙. 先天性巨结肠再次手术的技术和技巧[J]. 临床小儿外科杂志, 2021, 20(3): 208-211. DOI: 10.12260/lcxewkzz.2021.03.002.

Li Q, Zhang Z, Li L. Techniques and considerations of re-operations for Hirschsprung's disease[J]. J Clin Ped Sur, 2021, 20(3): 208-211. DOI: 10.12260/lcxewkzz.2021.03.002.

(收稿日期: 2022-04-25)

本文引用格式: 吴东阳, 陈亚军, 王增萌, 等. 先天性巨结肠根治术后医源性直肠阴道瘘的再手术治疗[J]. 临床小儿外科杂志, 2022, 21(11): 1024-1028. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202204093-005.

Citing this article as: Wu DY, Chen YJ, Wang ZM, et al. Redo surgery for iatrogenic rectovaginal fistula after pull-through in Hirschsprung's disease[J]. J Clin Ped Sur, 2022, 21(11): 1024-1028. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202204093-005.

• 编读往来 •

本刊关于工作单位的书写要求

原则上 1 位作者仅能标注 1 个单位(著录个人隶属的行政机构,如果作者隶属的行政机构与完成课题选、研究方案设计、进行研究工作并提供研究条件的机构不一致,或作者隶属不同机构时,以提供研究条件和完成研究工作的机构为作者单位),确需标注多个单位的,需在投稿介绍信加盖所有著录单位的公章(所有公章盖在同一张纸上),且第一作者单位必须为资料来源单位。

中文作者单位著录,在作者署名下方列出作者单位的名称(到科室,单位名称以公章为准)、城市名和邮政编码。如单位名称已体现城市名,邮政编码前仍需标注城市名,无论是否为省会城市或知名城市,城市名称前的省自治区名均可省略。