

直肠肛管测压对先天性巨结肠诊断价值的研究

王春燕¹ 向波¹ 陈咏梅¹ 钟麟¹ 李福玉¹ 蒋小平¹ 徐志诚¹ 李贵斌²

【摘要】 目的 以直肠全层活检病理诊断(FTB)为金标准,X线钡灌肠(CE)为对照,探讨直肠肛管测压(ARM)对先天性巨结肠(HD)及巨结肠类源病(HAD)的诊断意义。**方法** 收集2011年1月至2013年1月期间华西医院小儿外科收治的122例疑诊为HD患儿的病例资料。分析ARM诊断HD的敏感度、特异度、假阳性率、假阴性率、阳性预测值、阴性预测值、阳性似然比及阴性似然比;并以6月龄为度将病例分为大于6月龄组和小于6月龄组,采用卡方检验对两组间ARM及CE的阳性率进行相关性比较, $P < 0.05$ 为差异有统计学意义;分析ARM对HD及HAD的鉴别特点。**结果** 本组选取的所有病例均行CE、ARM及FTB三项术前诊断性检查。ARM的大部分诊断指标明显优于CE,但低于两项检查联合对HD的诊断价值。在小婴儿组(小于6月龄)中:CE的诊断价值普遍低于ARM。随着年龄的增长,CE的诊断率逐渐提高,但是仍然低于ARM。两组间CE阳性率为别为48.84%和68.35% ($P = 0.034$),而ARM阳性率为81.40%和83.54% ($P = 0.764$)。HAD的ARM诊断特点:RIAR波存在,但是表现为W型、U型等异常波形。**结论** ARM对HD有肯定的诊断价值,且优于CE,两者联合,更有助于提高HD的诊断价值。ARM诊断新生儿、小婴儿HD同样较准确且稳定。HAD出现“W”或“U”为主的异型RAIR波,有助于其与HD相鉴别。

【关键词】 直肠;肛管;Hirschsprung病;诊断

The research of clinical diagnosis value of anorectal manometry in Hirschsprung's disease. WANG Chun-yan, XIANG Bo, CHEN Yong-mei, et al. 1, Department of Pediatric Surgery, West China Hospital of Sichuan University, Chengdu 610041, China; 2, Department of Pediatric Surgery in Tianjin Fifth Central Hospital, Tianjin 300450, China, E-mail: yongyuan24911257@sina.cn

【Abstract】 Objective To explore the value of anorectal manometry in the diagnosis of Hirschsprung's disease and allied disease of Hirschsprung's disease with full-thickness rectal biopsy (FTB) as the gold standard and X-ray barium enema (CE) as control. **Methods** The clinical data of 122 patients suspected with Hirschsprung's disease from outpatient during January 2011 to January 2013 were investigated to analyze sensitivity, specificity, false positive rate, false negative rate, predictive value and likelihood ratio of anorectal manometry and x-ray barium enema in the diagnosis of Hirschsprung's disease. Meanwhile, cases were classified by age into two groups (< 6 months and > 6 months) to explore correlation of diagnosis rate of anorectal manometry and x-ray barium enema. **Results** X-ray barium enema, anorectal manometry and rectal biopsy were conducted in all patients. Most ARM diagnostic parameters were significantly better than CE, but less than the combination of both in the diagnostic value of the HD. Diagnostic value of CE was generally lower than ARM in small infants. It was increased in old infants, but still below the ARM. It was statistically significant between the small infants (48.84%) and old infants (68.35%) about the positive rate of CE ($P = 0.034$). However, the positive rate of anorectal manometry in old baby group was 83.54% which was similar to that of 81.40% in small infants group, the difference was not statistically significant ($P = 0.764$). The RIAR wave was present in HAD group, but the performance of it was abnormal, such as “W” and “U”. **Conclusion** ARM had a positive value in diagnosis of HD and was better than CE. Combination of both could help improve the diagnostic rate of HD. ARM

was also more accurate and stable in newborns and young infants. HAD should be suspected when RAIR wave was present with a shap of “W” and “U”, which was an importan identificationt feature.

【Key words】 Rectum; Anal Canal; Hirschsprung Disease; Diagnosis

小儿便秘病因复杂,大致包括功能性便秘和器质性便秘。HD 是器质性便秘中常见且严重的疾病之一,容易误诊和漏诊。婴幼儿、儿童期 HD 病史较为典型,辅助检查阳性率高,临床上容易确诊。而小婴儿、新生儿 HD 临床表现变化多端,且常伴有小肠结肠炎、腹胀、肠穿孔等严重并发症,若延误诊治,可危及患儿生命^[1,2]。典型的临床表现、直肠指检及 X 线钡灌肠是既往诊断 HD 的主要方法,误诊率偏高。近十几年来,直肠肛管测压被逐渐用于 HD 的诊断,但仍存在争议,特别是在小婴儿、新生儿 HD 诊断中争议更大。而且,近年来发现 HAD 在顽固性便秘中所占比例越来越高,其临床表现与 HD 极为相似,但组织病理改变与 HD 完全不同,两者鉴别诊断十分困难。本实验设计通过前瞻性研究我院 2011 年 1 月至 2013 年 1 月收治的 122 例患者的临床资料,全面探讨 ARM 对 HD 的临床诊断价值,提高临床医生的诊治水平。

材料与方法

一、临床资料

选取华西医院小儿外科 2011 年 1 月至 2013 年 1 月间门诊疑诊为 HD 患儿共 122 例。其临床资料见表 1。

二、先天性巨结肠诊断方法

(一)直肠肛管测压方法

1. 测压设备:瑞典 MedtronicSynectics 公司生产的 SGY-Ⅲ型多功能检测仪及 GZ-Ⅲ气囊测压管。灌注压力由袖带式压力计提供,压力为 300 mmHg (40 kPa),灌注液体为蒸馏水。测压导管为 4 导联导管。

2. 测压方法及检测指标:检查前 2 h 用温盐水灌肠或开塞露通便,不合作患儿检查前需口服镇静剂(水合氯醛 0.5 mL/kg)。检查时患儿取左侧卧位。测压导管经润滑剂润滑后经肛门插入至少 5 cm,使气囊充分伸展,确定肛门括约肌的位置及直肠肛管静息压和肛管蠕动波,固定测压导管于肛门周围。注气孔接 50 mL 一次性注射器,根据患儿年龄按每次增加 5 ~ 10 mL 梯度向直肠气囊注入气体,3 ~ 5 s 注完,观察患儿是否出现肛门内括约肌松

表 1 122 例患儿一般资料
Table 1 The clinical data of 122 patients

| 项目 | | 例数 (n) | 比例 (%) |
|------|----------------|--------|--------|
| 性别 | 男 | 91 | 74. 59 |
| | 女 | 31 | 25. 41 |
| 年龄 | <3 个月 | 25 | 20. 49 |
| | 3 ~ 6 个月 | 18 | 14. 75 |
| | 6 个月至 1 岁 | 27 | 22. 13 |
| | >1 岁 | 52 | 42. 62 |
| 伴发症状 | 胎粪延迟 | 99 | 81. 15 |
| | 营养不良 | 9 | 7. 34 |
| | 小肠结肠炎 | 26 | 21. 31 |
| | 结肠或回肠造瘘 | 17 | 13. 93 |
| | 肠穿孔 | 2 | 1. 64 |
| 伴发畸形 | 肠旋转不良 | 2 | 1. 64 |
| | 腹股沟斜疝 | 24 | 19. 67 |
| | 其他:脐疝,隐睾,幽门狭窄等 | 12 | 9. 83 |

弛反射。RAIR 消失,可拟诊为 HD。

(二)X 线钡灌肠检查

1. 钡灌肠使用方法:常规先摄腹立位平片了解患儿有否低位肠梗阻或穿孔;检查前一般不宜洗肠;用细导尿管插进肛门约 2 cm;用 50 mL 注射器低压缓慢注入,以免人为造成结肠扩张;扩张段显示后停止注入钡剂,在显示病变最清楚位置加摄局部斜位片,拔出导尿管摄取腹部正侧位 X 片;24 h 后复查是否有钡剂潴留。

2. X 线钡灌肠的评判指标:出现典型的狭窄段、移行段、扩张段,且 24 h 复查有钡剂滞留,判定为钡灌肠阳性。结肠扩张无狭窄段,24 h 复查有钡剂滞留,判定为可疑阳性,包括乙状结肠冗长。

三、直肠全层组织活检术

于齿状线上 2 cm、3 cm 处分别取直肠黏膜层及肌层组织行 HE 染色,查看黏膜及肌层组织有无神经节细胞。结果阳性即有 HD 根治术指征。

四、术后病理检查

HD 根治术中取至少包括直肠远端、扩张段以及近端结肠切断处标本作冰冻病理检查决定肠管切除部位。详细检查各标本的黏膜、黏膜下以及肌间的神经丛、节细胞以及神经元形态、数量等。病变肠

壁无神经节细胞为 HD 确诊依据。狭窄段等可见神经节细胞,数量减少或发育异常,提示 HAD。必要时行乙酰胆碱酯酶染色等帮助诊断。

五、统计学处理

以直肠全层组织活检病理诊断为诊断 HD 的金标准,分析直肠肛管测压、X 线钡灌肠在整体资料及各个年龄组的灵敏度、特异度、阳性预测值、阴性预测值、阳性似然比及阴性似然比。各年龄段两项检查的阳性率采用卡方检验, $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

结 果

本组 122 例患儿术前均行 CE、ARM 及 FTB 三项检查。结果显示 ARM 阳性 101 例,阴性 21 例;CE 阳性 75 例,阴性 47 例;FTB 阳性 107 例,阴性 15 例。FTB 阳性 107 例均行 HD 根治术,术后确诊 HD95 例,HAD 12 例。FTB 阴性 15 例,均保守治疗好转出院,门诊随访至今无便秘复发。

122 例疑诊为 HD 的患儿诊断性试验结果显示:CE 诊断 HD 的灵敏度、特异度、阳性预测值、阴性预测值、阳性似然比、阴性似然比、假阳性率、假阴性率分别为 68.42%、62.96%、86.67%、36.17%、1.85、0.50、37.04%、31.58%;ARM 为 97.89%、70.37%、92.08%、90.48%、3.30、0.03、29.63%、2.22%,ARM 的大部分诊断指标明显优于 CE,而两者联合诊断 HD 的各诊断指标为 100%、80%、98.11%、100%、5.0、20%、0。显示两项检查联合对 HD 的诊断价值比任何一项检查都高(见表 2)。

在小婴儿组(<6 月龄)中:CE 以上各诊断指标

表 2 CE、ARM 和两者联合诊断 HD 的可靠性(例)
Table 2 The reliability of CE in the diagnosis of HD、ARM、CE and ARM(Example)

| 检查项目 | | 金标准诊断结果 | | |
|------------------|----|---------|------|-----|
| | | HD | 非 HD | 合计 |
| CE 诊断 | 阳性 | 65 | 10 | 75 |
| | 阴性 | 30 | 17 | 47 |
| | 合计 | 95 | 27 | 122 |
| ARM 诊断 | 阳性 | 93 | 8 | 101 |
| | 阴性 | 2 | 19 | 21 |
| | 合计 | 95 | 27 | 122 |
| ARM 和 CE 联合诊断 | 阳性 | 52 | 1 | 53 |
| | 阴性 | 0 | 4 | 4 |
| | 合计 | 52 | 5 | 57 |

为 48.48%、50%、76.19%、22.73%、0.9696、1.0304、50%、51.52%,普遍低于 ARM 100%、80%、86.67%、36.17%、3.30、0.03、20%、0。在大于 6 月龄组,CE 各诊断指标为 79.03%、64.71%、90.74%、47.83%、0.9696、1.0304、35.29%、20.97%,而 ARM 为 96.77%、64.71%、90.91%、84.62%、2.74、0.05、35.29%、3.23%,随着年龄的增长,CE 的诊断率逐渐提高,但是仍然低于 ARM(表 3,图 1~2)。

表 3 CE、ARM 对小婴儿,大婴儿 HD 诊断的可靠性(例)
Table 3 The reliability of CE and ARM in the diagnosis of small infants HD(Example)

| 检查项目 | | 金标准诊断结果 | | |
|----------------|----|---------|------|----|
| | | HD | 非 HD | 合计 |
| CE 对小婴儿 诊断 | 阳性 | 16 | 5 | 21 |
| | 阴性 | 17 | 5 | 22 |
| | 合计 | 33 | 10 | 43 |
| ARM 对小婴儿 诊断 | 阳性 | 33 | 2 | 35 |
| | 阴性 | 0 | 8 | 8 |
| | 合计 | 33 | 10 | 43 |
| CE 对大婴儿 诊断 | 阳性 | 49 | 5 | 54 |
| | 阴性 | 13 | 12 | 25 |
| | 合计 | 62 | 17 | 79 |
| ARM 对大婴儿 诊断 | 阳性 | 60 | 6 | 66 |
| | 阴性 | 2 | 11 | 13 |
| | 合计 | 62 | 17 | 79 |

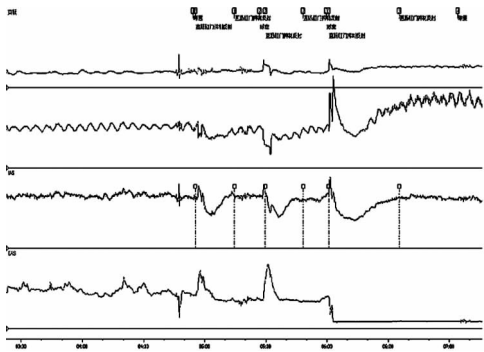


图 1 慢性便秘 20 d 的婴儿肛门直肠测压 RAIR 波形
Figure 1 Anorectal manometry showing RAIR wave in a 20 day old infant with chronic constipation

采用卡方检验分别对不同年龄组 ARM 阳性率和 CE 阳性率的差异性进行比较,结果显示:CE 在小于 6 月龄组的阳性率为 48.84%,大于 6 月龄组的阳性率为 68.35%,两组相比,差异有统计学意义($P = 0.034$);ARM 在小于 6 月龄组的阳性率为 81.40%,大于 6 月龄组的阳性率为 81.01%,两组相比,差异无统计学差异($P = 0.764$)。说明 ARM

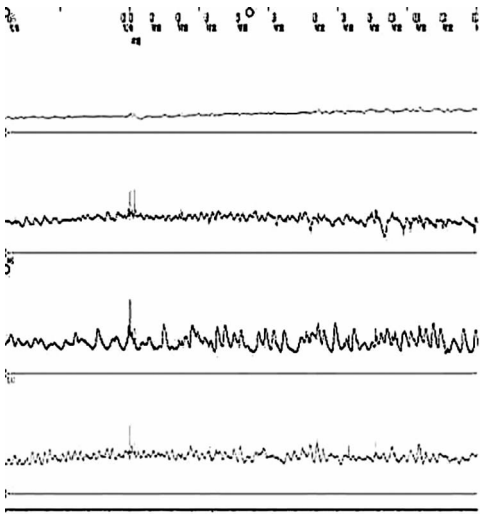


图 2 22 日龄 HD 男性婴儿肛门直肠测压显示没有 RAIR 波
Figure 2 Anorectal manometry showing no RAIR wave in a 22 day old male infant who was diagnosed of HD

在各年龄段 HD 的诊断价值比较稳定,而 CE 易受年龄因素的影响(表 4)。

表 4 不同年龄段 ARM、CE 阳性率比较

| 不同年龄 | ARM | | CE | |
|------------|-------|--------|-------|--------|
| | 阳性(例) | 阳性率(%) | 阳性(例) | 阳性率(%) |
| <6 个月 | 35 | 81.40 | 21 | 54 |
| >6 个月 | 66 | 83.54 | 48.84 | 68.35 |
| χ^2 值 | 0.090 | | 4.478 | |
| P 值 | 0.764 | | 0.034 | |

注:不同年龄 ARM 阳性率比较, $P>0.05$,差异无统计学意义;CE 阳性率比较; $P>0.05$,差异有统计学意义。

HAD 的 ARM 诊断特点:RIAR 波存在,但是表现为 W 型、U 型等异常波形。其 CE 有明显的结肠扩张和 24 h 钡滞留,但不能发现狭窄段和移行段(图 3~6)。

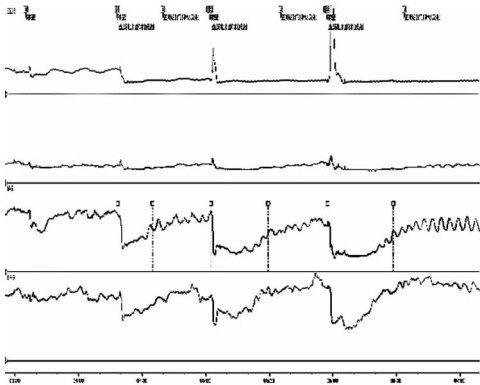


图 3 2 岁 HAD 女童肛门直肠测压显示 RAIR 波呈“W”形
Figure 3 Anorectal manometry showing RAIR wave with a shap of "W" in a 2 year old girl with HAD

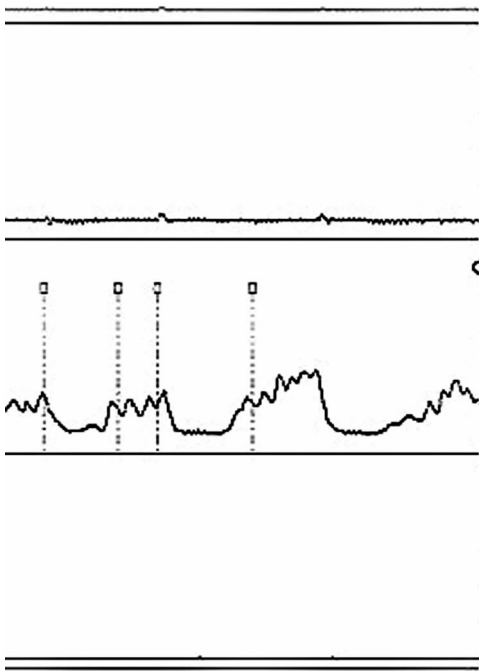


图 4 3 岁 HAD 男童肛门直肠测压显示 RAIR 波呈“U”形
Figure 4 Anorectal manometry showing RAIR wave with a shap of "U" in a 3 year old boy with HAD



图 5 HD 患儿对比灌肠显示肠管典型痉挛、扩张
Figure 5 Contrast enema showing the typical spastic, transitional and dilated segment in HD children



图 6 HAD 患儿对比灌肠显示肠管无痉挛、扩张
Figure 6 Contrast enema showing no spastic and transitional colon in HAD children

讨 论

先天性巨结肠是病变的肠管肠壁肌间神经丛(Auerbach)和黏膜下神经丛(Meissner)内缺乏神经节细胞,肛门直肠反射弧遭到破坏,导致远端病变肠段不能松弛而呈痉挛状态,蠕动消失而不能排便,致使近端肠管被动性扩张。典型的临床表现、CE、ARM是目前公认的术前诊断HD的重要方法。其中RAIR波消失是测压诊断HD的重要依据,文献报道其阳性率达90%以上^[3-5]。本组资料显示,ARM诊断HD的灵敏度为97.89%,高于CE 68.42%,且其预测值及似然比结果均提示ARM在诊断及排除HD方面较CE更具有优势,但是与两者联合相比,后者对HD的诊断价值更高(100%)。以上说明ARM对HD有肯定的诊断价值,且优于CE,是诊断或排除HD的有效检查手段。与CE联合,更有助于提高HD的诊断价值。临床中对疑似HD的患儿建议常规行ARM和CE检查,共同提高HD的诊断率。

本组ARM的假阳性率(误诊率)及假阴性率(漏诊率)为29.63%和2.22%,分析导致误诊的原因可能有:气囊漏气或便秘病程较久而充气不足,给予常规肛管压力后仍不足以引起括约肌松弛反射。本组3例便秘患儿病史均在5年以上,扩张肠管直径达10~15 cm,被误诊为HD。或者患儿不够安静,或者麻醉过浅,探头移动频繁时,RAIR波形态不规则、波幅低平,误认为测压阳性而诊断为HD。此外,关于ARM前是否灌肠,有学者认为直肠肛管内储存的大便会阻塞管腔出水口,易导致假阳性,建议检查前2 h患者使用灌肠液灌肠^[6]。但是李实忠等研究认为检查前进行灌肠,可影响肠黏膜、直肠肌肉运动达数小时之久,引起反射异常^[7]。根据我们的经验,普通灌肠或开塞露辅助排便可以防止患者在检查过程中大便排出而影响测压结果。至于灌肠是否影响RAIR的引出或形态,有待进一步研究。ARM假阴性的产生大多与操作技术及临床经验有关:肛管的松弛波与收缩波重叠出现,掩盖了松弛波的存在,或者将外括约肌松弛反射误认为是RAIR,误认为ARM阳性,常见于排便习惯差的患儿;或者测压传感器探头的位置过高,导致短段型和超短段型HD漏诊。综上所述,ARM检查结果的精确性与操作者的经验、仪器设备的情况,以及受试者的身体状态、配合度、周围环境等均有关^[8]。因此,严

格规范操作方法及临床经验,特别是精确辨认RAIR的异常波形,避免人为的假阳性及假阴性结果,至关重要。ARM的可重复性特点有助于增强准确性。本文ARM的漏诊率虽为2.22%,是排除HD的重要方法,但是不能单独诊断HD,直肠活检病理诊断仍为HD的术前诊断金标准^[9]。

约90%的HD患儿在出生后1周内或几月内发病,临床表现复杂,常因并发症就诊^[10]。其中,胆汁性呕吐占10%~37%,腹部膨隆占63%~91%,胎粪排出延迟占60%~90%,小肠结肠炎占5%~44%^[11]。若未及时诊治,可引起肠穿孔、腹膜炎、中毒性休克等,导致患儿死亡。因此,新生儿、小婴儿HD的早期诊断应十分慎重。文献报道CE对新生儿HD的诊断率较低,且差异较大,约为20%~96%^[12]。本资料显示<6个月患儿的CE敏感性48.48%及特异性(50%)低于大于6月龄患儿的敏感性(79.03%)及特异性(64.71%),且两组CE阳性率相比,差异有统计学意义。以上表明CE在小婴儿HD诊断中不占优势,误诊率和漏诊率均较高。分析病例认为,导致新生儿、婴儿CE诊断率较低的原因可能有:①发病时间短,移行段、扩张段不明显;②大多数患儿在检查前已行肛门指检、巨结肠清洁洗肠等,X线片上形态学表现不明显;③新生儿直肠肛管均较短,导管插入过深,远端显影不良,短段型容易漏诊;④导管过粗,特别是新生儿肠壁薄,容易导致狭窄段被动性扩张;⑤还可能与放射科医生的临床经验有关。有学者认为,与CE相比,ARM检查诊断率可达80%~90%以上^[13-15]。但也有人认为,ARM只适用于较大患儿,对<1岁病例特异性不高^[16]。而Lorijn F报道,早产儿也可在新生儿早期引出RAIR。孕周大于26周的早产儿引出率为81.0%,而孕周大于30周的早产儿可达95.5%,100%的足月新生儿存在RAIR,假阴性的出现主要与操作技术有关^[3]。本资料显示,ARM诊断<6个月患儿HD的敏感性及特异性分别为100%和80%,大于6月龄患儿的敏感性及特异性为96.77%和64.71%,且两组ARM阳性率相比,差异无统计学意义。以上资料表明,ARM对小婴儿HD的诊断同样适合。其优势在于:短段型及超短段型HD时ARM漏诊率低^[4];合并小肠结肠炎时CE为禁忌症;行造瘘术的HD患儿CE诊断率更低,本组资料有4例结肠造瘘术后CE均为阴性,而ARM阳性3例(3/4);ARM简便、无放射,可重复操作,对小婴儿HD的诊断同样较准确且稳定,早诊早治有助

于避免严重小婴儿并发症发生。

报道认为临床诊断为 HD 患儿中, HAD 约占 50%, 说明了 HAD 也是导致患儿便秘的主要原因之一^[17]。但 HAD 病变范围广泛, 分类复杂多样, 国内术前诊断困难。HD 术前经典的三联检查仍是诊断 HAD 的重要方法。本组资料显示, 临床初诊为 HD 的患儿中, 12 例术后病理确诊为 HAD, 其中有 8 例患儿 ARM 检查中出现以“W”或“U”为主的异常 RAIR 波, 提示 HAD 的 RAIR 反射弧依然存在, 这与 HD 的肠壁神经节细胞缺如, 反射通道完全中断, 继而 RAIR 消失是完全不同的。以上说明 ARM 中异常的“W”或“U”波形可以作为 HAD 的鉴别依据之一。至于 HAD 反射途径的病变, 尚需要进一步研究。此外, 本组 HAD 患儿的鉴别临床特点还包括: X 线钡灌肠表现为结肠扩张明显且广泛, 狭窄段及移行段少见, 伴有乙状结肠冗长, 24 h 复查有钡剂残留; 术后病理检查见异常神经节细胞, AchE 组化染色阴性。由于 HAD 患儿的治疗及预后与 HD 相差较大, 因此, 术前正确诊断 HD 及 HAD, 对选择合适的治疗方案, 提高患儿预后至关重要。

参 考 文 献

1 Frykman PK, Short SS, Frykman PK, et al. Hirschsprung-associated enterocolitis: prevention and therapy [J]. *Seminars in Pediatric Surgery*, 2012, 21(4): 328-335.

2 Menezes M, Puri P. Long-term outcome of patients with enterocolitis complicating Hirschsprung's disease [J]. *Pediatr Surg Int*, 2006, 22(4): 316-318.

3 De Lorijn F, Kremer LCM, Reitsma JB, et al. Diagnostic Tests in Hirschsprung Disease: A Systematic Review [J]. *J Pediatric Gastroenterology and Nutrition*, 2006, 42(5): 496-505.

4 Kristiina J, Antti K, Risto J, et al. Anorectal manometry with reference to operative rectal biopsy for the diagnosis/exclusion of Hirschsprung's disease in children under 1 year of age [J]. *Int J Colorectal Dis*, 2009, 24(4): 451-454.

5 王伟, 贾慧敏, 王一. 直肠肛门抑制反射诊断先天性巨结肠符合率的临床分析 [J]. *临床小儿外科杂志*, 2012, 11

(1): 30-31.

6 Azpiroz F, Enck P, Whit ehead WE. Anorectal functionalt est ing: review of collect ive experience [J]. *Am J Gast roen terol*, 2002, 97(2): 232.

7 李实忠. 结肠直肠肛管动力学改变及其临床意义 [J]. *肛门病外科杂志*, 2002, 8(2): 118-130.

8 Chitkara DK, Bredenoord AJ, Cremonini F, et al. The rol eof pelvic f loor dysfunct ion and slow colonic t ransit in adoles cent sw ith refractory const ipat ion [J]. *Am J Gastroen terol*, 2004, , 99(8): 1579.

9 Rahman N, Chouhan J, Gould S, et al. Rectal biopsy forHirschsprung's disease are we performing too many? [J]. *Eur JPediatr Surg*, 2010; 20(2): 95-97.

10 Reid JR, Buonomo C, Moreira C, et al. The barium enema in constipation: comparison with rectal manometry and biopsy to exclude Hirschsprung's disease after the neonatal period [J]. *Pediatric radiology*, 2000, 30(10): 681-684.

11 Haricharan RN, Georgeson KE. Hirschsprung disease [J]. *Semin Pediatr Surg*, 2008, 17(4): 266-275.

12 Diamond IR, Casadiego G, Traubici J, et al. The contrast enema for Hirschsprung disease: predictors of a false-positive result [J]. *J Pediatr Surg*, 2007, 42: 792-795.

13 Yanlei Huang, Shan Zheng, Xianmin Xiao. Preliminary evaluation of anorectal manometry in diagnosingHirschsprung's disease in neonates [J]. *Pediatr Surg Int*, 2009, 25(1): 41-45.

14 Lukong CS, Mshelbwala PM, Anumah MA, et al. Anorectal malformation coexisting with Hirschsprung's disease: a report of two patients [J]. *Afr J Paediatr Surg*, 2012, 9(2): 166-168.

15 黄焱磊, 郑珊, 肖现民. 直肠肛管测压对新生儿先天性巨结肠诊断意义的研究 [J]. *临床小儿外科杂志*, 2007, 6(3): 3-5.

16 Noviello C, Cobellis G, Romano M, et al. Diagnosis of Hirschsprung's Disease: an age-related approach in children below or above one year [J]. *Colorectal ansparent disease*, 2012, 12(10): 1044-1048.

17 Holschneider AM, Meier-Ruge W, Ure BM. Hirschsprung's disease and allied disorders—review [J]. *Eur J Pediatr Surg*, 1994, 4: 260-266.