

·论著·

乙状结肠重建阴道术治疗小儿阴道畸形的疗效分析

王 勇 梁子建 陈运培 徐晓刚

【摘要】 目的 探讨乙状结肠重建阴道术治疗小儿阴道畸形的可行性,并总结手术技巧及治疗经验。**方法** 回顾性分析2013—2017年在广州市妇女儿童医疗中心接受阴道重建术患儿的临床资料。其中一穴肛4例,先天型阴道闭锁1例。接受手术时年龄6个月至3岁10个月,体重6~20 kg。**结果** 一穴肛重建手术时间为265~510 min,术中出血量10~50 mL,重建阴道长度6~8 cm,术后患处可见少量分泌物,无异味、狭窄、脱垂,未见明显瘢痕组织。1例先天型阴道闭锁患儿手术时间为335 min,术后阴道伤口无异味、脱垂,稍狭窄,术后1个月出现盆腔积液,膀胱镜检查提示成形阴道愈合良好,子宫及阴道交界处可见脓性分泌物,诊断为肠道分泌物积聚,予以生理盐水冲洗,术后一年复查未见明显异常。**结论** 乙状结肠重建阴道术治疗小儿阴道畸形的术后并发症发生率低,治疗小儿阴道畸形安全、有效,但仍需大量的病例积累及长期随访研究。

【关键词】 泌尿生殖系统畸形; 外科, 整形

【中图分类号】 R729 R656.9 R699.7

Clinical treatment of vaginal replacement with sigmoid colon in children. Wang Yong, Liang Zijian, Chen Yunpei, Xu Xiaogang. Department of Pediatric Surgery, Guangzhou Women & Children's Medical Center, Guangzhou, 510000, China. Corresponding author: Wang Yong, Email: summer660@163.com

【Abstract】 Objective To explore the feasibility of vaginal reconstruction with sigmoid colon in children. **Methods** A total of five children underwent vaginoplasty during 2013–2017. The mean operative age was 21 months and the mean weight 13 kg. The initial diagnosis was persistent cloaca ($n=4$) and congenital vaginal atresia ($n=1$). Surgery was performed via a simultaneous abdomino-perineal approach. Neovaginal cavity was dissected and sigmoid segment mobilized and transected down to the base of sigmoid arteries. The segment was guided in an iso-peristaltic way through a neovaginal tunnel on to perineum. Distal staple line was opened and sutured to perineum. **Results** In cloaca cases, operative duration was from 265 to 510 min and intraoperative blood loss 10 to 50 ml. Except for minimal secretion, there was no odor, stenosis or prolapse. Wound healing was excellent. There was no obvious scar tissue. Vaginal length for reconstruction was 6–8 cm. The operative duration of congenital vaginal atresia was 335 min. There was neither odor nor prolapse. Only mild stenosis was present. Pelvic effusion recurred at 1 month post-operation. Cystoscopy indicated an excellent healing of vaginal anastomosis. Suppurative secretion appeared at the junction of uterus and vagina. New vagina was flushed daily until a disappearance of pelvic fluid. Re-examination at 1 year revealed no obvious abnormality. **Conclusion** - With a low incidence of complications, sigmoid colon reconstruction is both safe and effective for children with vaginal malformation. However, a large number of cases are required for long-term follow-up studies.

【Key words】 Urogenital Abnormalities; Surgery, Plastic

先天性阴道发育异常通常由胚胎时期发育异常所致,发病率为1/10 000~1/5 000^[1]。在小儿外科领域,以性腺发育不全、一穴肛和先天性阴道闭

锁最为常见。先天性阴道发育异常重建术是小儿外科手术的棘手问题之一,因为既要达到外观满意的目的,还要满足阴道空间、润滑度等功能上的要求。关于成人阴道重建的报道很多,生物取材的范围从皮肤、口腔黏膜、肠到专业的生物工程材料,整体效果满意,但术后仍会出现阴道狭窄、回缩、阴道干燥、阴道积液等问题^[2-5]。而国内外关于小儿阴道重建的相关文献较少,本文旨在回顾广州市妇女

DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2019.07.013

基金项目:诱导多能干细胞治疗肠道神经损伤的实验研究(编号:2017070010369)

作者单位:广州市妇女儿童医疗中心胃肠外科(广东省广州市, 510000)

通信作者:王勇, Email: summer660@163.com

儿童医疗中心 2013—2017 年收治的 5 例小儿阴道重建患儿的临床资料,总结小儿结肠代阴道手术的治疗经验,以期指导临床。

材料与方法

一、一般资料

收集广州市妇女儿童医疗中心 2013—2017 年 5 例小儿阴道重建患者的临床资料,排除采用尿道、阴道整体下移术成形阴道的病例。有并发症的阴道闭锁病例纳入治疗,无任何症状的阴道闭锁患儿暂时临床观察。5 例中 4 例为一穴肛,1 例为先天性阴道闭锁。患儿接受手术时年龄 6 个月至 3 岁 10 月,体重 6~20 kg。

二、前期治疗史

4 例一穴肛患儿均接受三期手术。其中一期为结肠造瘘术;二期为阴道重建术,也最为关键,术前经过造瘘口远端造影、腰骶尾部核磁共振及膀胱镜会阴检查充分评估解剖畸形后对肛门、阴道和尿道进行重建;三期为肠造瘘口封瘘术,为会阴伤口愈合做好前期准备。

1 例阴道闭锁患儿因反复发热 1 个月且伴排尿、排便困难 2 周入院,影像学检查结果提示腹腔巨大脓肿,腹腔镜探查术中发现盆腔炎症充血明显,阴道闭锁并积脓,予以阴道冲洗及阴道造瘘术,术后 6 个月在排除泌尿系统、神经系统异常后择期行

阴道重建术。

三、手术方法:

1. 一穴肛:双乳以下部位消毒铺巾,首先俯卧位放置抬高臀部,切口选择会阴部后矢状位入路,纵向切开共同通道,找到尿道开口后留置 8 号导尿管,共同通道原位卷管成形尿道;探查阴道证实阴道缺如或寻找到阴道残端标记后准备下一步手术。翻转患儿体位,手术转为仰卧位,行耻骨至脐前正中切口。首先游离直肠盲端,缝牵引线拟牵引至会阴,留待下一步行肛门成形。然后分离出膀胱颈部和子宫,游离至标记的阴道闭锁残迹处。乙状结肠起自左髂嵴至第 3 骶椎上缘而续于直肠,有较长的系膜,其血运由起自于左结肠动脉的乙状结肠动脉供应。游离乙状结肠系膜,明确辨认乙状结肠动脉的支数及走行,保留靠近移植肠段一端血运良好的 1 支动脉,结扎离断其它乙状结肠动脉支,切取移植肠段约 6~8 cm,以满足下一步手术长度为标准,余结肠断端行端端吻合。留取肠段一端和阴道残端予以端端吻合,移植肠段会阴端缝丝线牵引至会阴。再次转换体位为俯卧位,经原后矢状位切口将带蒂结肠拖至尿道后壁行阴道成形,结肠会阴端和会阴皮肤间断吻合。会阴体成形后,在电刺激仪下寻找到肌肉复合体,将标记的直肠盲端固定于括约肌中心,形成成形的肛门(图 1)。

2. 阴道闭锁:全身麻醉,双乳以下部位消毒铺巾。于下腹部正中部位做一切口,封闭腹壁阴道造

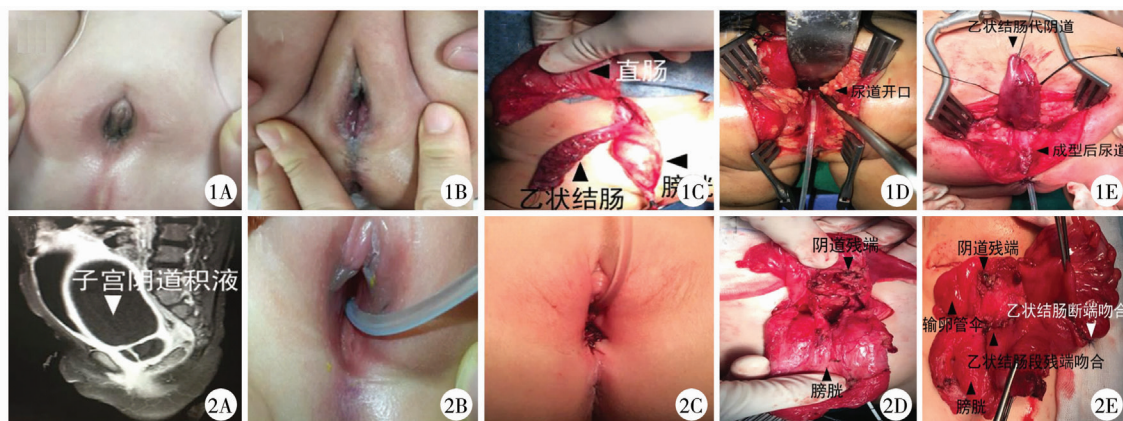


图 1 乙状结肠代阴道成形术治疗一穴肛合并阴道缺如 注 A. 术前外观,会阴仅能见到一个开口,无明显的尿道、阴道、肛门开口区分; B. 肛门、尿道、阴道成形术后 1 个月图片,可见阴道(乙状结肠代阴道)开口; C. 术中图片 1:直肠、乙状结肠、膀胱各留一段用于乙状结肠拟拖至会阴行阴道成形术; D. 术中图片 2:手术转至后矢状位,将共同通道卷管用以尿道成形,尿道后壁即为阴道前壁; E. 术中图片 3:尿道成形后将乙状结肠自腹腔拖出,用以阴道成形。图 2 乙状结肠代阴道成形术治疗先天性阴道闭锁 注 A. 术前 MR 检查结果显示膀胱被挤压,阴道子宫积液,阴道闭锁及子宫炎症性增厚; B. 术前图片:会阴未见阴道开口; C. 阴道成形术后照片,会阴处可见阴道开口; D. 术中图片 1:于腹腔内沿着子宫游离阴道,寻找到阴道闭锁残端; E. 术中图片 2:留取约 6 cm 带蒂乙状结肠,和阴道断端吻合为新阴道,拟拖至会阴。

Fig. 1 Sigmoid colon vaginoplasty for acupuncture anovaginal absence Fig. 2 Sigmoid colon vaginoplasty for congenital vaginal atresia

瘻口,分离出阴道残端,游离出长约6 cm乙状结肠后与阴道残端吻合,会阴端缝牵引线。转至会阴,患儿取截石位,置入10F硅胶尿管。在阴道闭锁处避开尿道注射肾上腺生理盐水,分离尿道膀胱与直肠间隙,使人工阴道穴可容纳2~3指,在医生配合下分离至膀胱直肠窝处横行切开盆底腹膜约5 cm,会阴及腹部两个方向互相引导、配合,上下相通后进一步扩张洞穴使之宽度为3.0~4.5 cm,将准备好的乙状结肠段拉入人工阴道穴腔,形成阴道(图2)。

五、术后观察及处理

术后6 h正常饮食,使用抗生素3 d。术后观察成形阴道的色泽血运,术后4~5 d出现分泌物予以及时清理,保持外阴清洁、干燥,术后一周给予高锰酸钾坐浴,每日一次,每次10 min。

结 果

5例手术移植肠段均存活。4例一穴肛患儿成形阴道无脱垂、外翻及分泌物体内残留。阴道闭锁患儿术后4周通过腹部超声发现盆腔阴道积液,膀胱镜检查阴道发现子宫颈无红肿,阴道色泽良好,可见少量分泌物,但无糜烂、溃疡,考虑为结肠阴道的分泌物积聚。采用脸谱疼痛评分表(face rating scale)对患儿疼痛程度进行评估发现,予以冲洗后患儿疼痛程度有所缓解^[6],患儿自行回流冲洗新阴道2周后改为一周冲洗一次,一年后复查未见异常,停止阴道冲洗。

讨 论

阴道闭锁最初于1829年、1838年分别由Mayer和Rokitansky报道,在1898年McIndoe和Banister首次报道采用皮肤组织行阴道成形手术,并获得了非常理想的术后外观。随着科技的发展,阴道重建术式已经多样化,重建手术的目的不仅是为了获得满意的外观,还要保证女性的月经和性生活正常。目前常用于阴道重建的材料包括皮肤、腹膜、膀胱黏膜、羊膜及专业的生物材料等,但是术后需要进行阴道扩张,而扩张引起的不适及疼痛容易对患儿心理造成影响,且出现管道狭窄、异味、回缩甚至局部坏死感染等并发症的几率较高。最常用的成人全厚带蒂皮瓣术式发展历史最久,也是最常见的重建术式。由于皮肤无分泌功能,因此容易出现术后

阴道干燥的问题,皮肤血供及阴道长度均受到一定的影响。此外也有关于皮肤移植后发生癌变的报道^[7]。

自1904年Baldwin首创游离肠成形阴道术以来,现已相继开展了小肠、结肠、直肠代阴道等术式,但各有优缺点^[8-10]。成形阴道的小肠仍保留着因体积扩张而触发肠绞痛的特性,故容易引起性交疼痛,且术后容易出现肠黏膜脱垂^[4,8,11]。小儿患者不建议接受回盲部阴道成形术,因为切除回盲部后对患儿营养吸收的影响较大,继而影响其生长发育。由此看来,乙状结肠似乎是用于小儿阴道成形的最佳取材部位。首先,乙状结肠相对比较游离,且肠系膜最长,最易到达会阴部位,故乙状结肠重建阴道术后出现回缩、狭窄的概率很低;此外,代替阴道的肠管可以随着年龄的增加而生长,结肠黏膜的质地最接近真实的阴道皱襞,肠黏膜的分泌功能可以保证新生阴道自然的润滑度;最后,乙状结肠成形阴道术后无需行常规扩张^[12,13]。

一穴肛重建手术中最常应用的是尿道阴道整体下移术,但由于没有涉及到阴道替代重建,所以本研究并未纳入。本研究4例一穴肛重建术患儿中,采用乙状结肠代阴道的3例,而有1例选择了直肠代阴道,因为术中发现该患儿乙状结肠系膜拖下张力较大,而直肠在保留供养血管后可无张力拖下。因此,术中的肠段选择原则就是系膜张力大小以及是否可给予足够血供及吻合口张力,尽量减少因术后回缩而致的阴道狭窄甚至再次闭锁。在重建手术中,阴道重建的定位是在尿道和肛门定位后再进行选择的。在后矢状位切口,充分暴露自尾骨到共同通道的术野,首先重建尿道,而新生阴道则紧贴尿道后壁,在电刺激引导下寻找肛门位置(即直肠括约肌中心),直肠括约肌和阴道之间的结构即为会阴体。

阴道闭锁患儿的阴道重建术则把重点放在了阴道通道的建立上。由于患儿年龄比较小,会阴的位置比较狭小、易出血、且紧贴尿道,因此容易对尿道造成损伤。我们在手术操作的过程中,首先在会阴阴道闭锁处注射肾上腺素生理盐水,既能充分扩大手术操作区域,又能充分止血。为避免尿道损伤,我们放置了较粗的10F尿管,且在腹腔内及会阴同时由单人操作建立通道,尽量做到钝性分离。

阴道重建术的成功与充分的术前准备密切相关。由于一穴肛及阴道闭锁患儿经常合并心血管、泌尿系统及骶尾部神经异常,重建手术前需要确定

其他系统并发症不会影响重建手术的顺利进行^[14,15]。另外,一穴肛为复杂的泄殖腔畸形,所以术前还需要进行复杂的特殊检查。除常规的骶尾部MR、造瘘口造影外还需进行膀胱镜检查,以精确评估会阴畸形、明确共同通道的长度及确定阴道的缺损情况,现已广泛应用于一穴肛患儿的术前诊断^[16,17]。

对于儿童期进行阴道重建术尚有争议。一些外科医生主张在儿童期完成阴道重建,以达到更好的美容效果^[18,19];Adam^[20]更建议在患儿刚出生时即接受阴道及小阴唇的重建,因为在母体的激素调控下,患儿的会阴组织更易游离,从而加快伤口愈合。而另一部分医生认为儿童期重建术后更容易出现术后狭窄,青春期仍需要进一步接受手术,且操作空间小,容易出现尿道损伤等并发症^[21]。对于一穴肛患儿,如果阴道在儿童期未予以特殊处理,尿道和阴道仍存在共同通道,因为活瓣效应易形成阴道积液,从而引起尿路梗阻继而导致尿路感染^[22];此外,一穴肛重建手术操作面积较大,成年后因局部瘢痕明显导致阴道重建手术的过程更加复杂,所以目前一穴肛的重建手术多建议由熟练的肛肠外科、妇产科医生共同协作,阴道、尿道和肛门重建均在一期完成,即使术后出现狭窄等并发症,在青春期进行纠正也相对容易。另外本文中的阴道闭锁患儿因出现较严重的感染,且保守治疗未见好转的情况下才考虑在儿童期行阴道重建术。手术分为两期,一期因局部感染明显予以阴道造瘘术,术后6个月待炎症消退后才行阴道重建术。

文献报道的结肠重建阴道术后常见并发症(腹膜炎、肠梗阻、吻合口瘘、肠管脱垂)在本次研究中均未出现。但有1例术后出现阴道内积液,经膀胱镜检查未见吻合口异常,宫颈开口未见异常,但新阴道内有大量分泌物,需予以生理盐水冲洗。据文献报道,结肠重建阴道术后6个月肠道分泌物会明显减少^[23]。

综上所述,乙状结肠重建阴道术治疗小儿阴道畸形短期来看是安全、有效的,但需要通过长期的随访结果进一步评价。并且随着腹腔镜手术技术的不断成熟,全腔镜下结肠代阴道重建术也会得到进一步发展^[24,25]。

参考文献

- Evans TN, Poland ML, Boving RL, et al. Vaginal malformations[J]. Am J Obstet Gynecol, 1981, 141(8):910-920. DOI:10.1016/s0002-9378(16)32683-7.
- Chan JL, Levin PJ, Ford BP, et al. Vaginoplasty with an autologous buccal mucosa fenestrated graft in two patients with vaginal agenesis: a multidisciplinary approach and literature review[J]. J Minim Invasive Gynecol, 2017, 24(4):670-676. DOI:10.1016/j.jmig.2016.12.030.
- Barbara G, Facchin F, Buggio L, et al. Vaginal rejuvenation: current perspectives[J]. Int J Womens Health, 2017, 9:513-519. DOI:10.2147/IJWH.S99700.
- Van der Sluis WB, Bouman MB, Buncamper ME, et al. Revision vaginoplasty: a comparison of surgical outcomes of laparoscopic intestinal versus perineal full-thickness skin graft vaginoplasty[J]. Plast Reconstr Surg, 2016, 138(4):793-800. DOI:10.1097/PRS.0000000000002598.
- Amies Oelschlager AM, Kirby A, Breech L, et al. Evaluation and management of vaginoplasty complications[J]. Curr Opin Obstet Gynecol, 2017, 29(5):316-321. DOI:10.1097/GCO.0000000000000391.
- Bieri D, Reeve R, Champion G, et al. The faces pain scale for the self-assessment of the severity of pain experienced by children: development, initial validation and preliminary investigation for ratio scale properties[J]. Pain, 1990, 41(2):139-150.
- Gallup DG, Castle CA, Stock RJ. Recurrent carcinoma in situ of the vagina following split-thickness skin graft vaginoplasty[J]. Gynecol Oncol, 1987, 26(1):98-102. DOI:10.1016/0090-8258(87)90075-8.
- Bouman MB, van Zeij MC, Buncamper ME, et al. Intestinal vaginoplasty revisited: a review of surgical techniques, complications, and sexual function[J]. J Sex Med, 2014, 11(7):1835-1847. DOI:10.1111/jsm.12538.
- Garcia-Roig M, Castellan M, Gonzalez J, et al. Sigmoid vaginoplasty with a modified single Monti tube: a pediatric case series[J]. J Urol, 2014, 191(5 Suppl):1537-1542. DOI:10.1016/j.juro.2013.08.073.
- Johnston GW. Vaginoplasty in excision of the rectum[J]. Proc R Soc Med. 1974 Jan;67(1):56-57.
- Georgas K, Belgrano V, Andreasson M, et al. Bowel vaginoplasty: a systematic review[J]. J Plast Surg Hand Surg, 2018, 24:1-9. DOI:10.1080/2000656X.2018.1482220.
- Ekinci S, Karnak I, Ciftci AO, et al. Sigmoid colon vaginoplasty in children[J]. Eur J Pediatr Surg, 2006, 16(3):182-187. DOI:10.1055/s-2006-924301.
- O'Connor JL, DeMarco RT, Pope JC, et al. Bowel vaginoplasty in children: a retrospective review[J]. J Pediatr Surg, 2004, 39(8):1205-1208.
- Livingston JC, Elicevik M, Breech L, et al. Persistent cloa-

- ca: a 10-year review of prenatal diagnosis [J]. J Ultrasound Med, 2012, 31 (3): 403-407.
- 15 Gupta A, Bischoff A. Pathology of cloaca anomalies with case correlation [J]. Semin Pediatr Surg, 2016, 25 (2): 66-70. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2015.11.003.
 - 16 Andrea Bischoff. The surgical treatment of cloaca [J]. Seminars in Pediatric Surgery, 2016, 25 (2): 102-107. DOI: 10.1053/j.sempedsurg.2015.11.009.
 - 17 Speck KE, Arnold MA. Cloaca and hydrocolpos: laparoscopic-, cystoscopic- and colposcopic-assisted vaginostomy tube placement [J]. Journal of Pediatric Surgery, 2014, 49 (12): 1867-1869. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2014.08.027.
 - 18 Kregel S, Walz KH, Hauffa BP, et al. Long-term follow-up of female patients with congenital adrenal hyperplasia from 21-hydroxylase deficiency, with special emphasis on the results of vaginoplasty [J]. BJU Int, 2000, 86 (3): 253-258. DOI: 10.1046/j.1464-410x.2000.00789.x.
 - 19 Yerkes EB, Rink RC. Surgical Management of Female Genital Anomalies, Disorders of Sexual Development, Urogenital Sinus, and Cloacal Anomalies [J]. Pediatric Urology, 2010, 31 (10): 476-499.
 - 20 Rink RC, Adams MC. Feminizing genitoplasty: state of the art [J]. World J Urol, 1998, 16 (3): 212-218. DOI: 10.1007/s003450050055.
 - 21 Burgu B, Duffy PG, Cuckow P, et al. Long-term outcome of vaginal reconstruction: Comparing techniques and timing [J]. J Pediatr Urol, 2007, 3 (4): 316-320. DOI: 10.1016/j.jpuro.2006.09.008.
 - 22 Levitt MA, Bischoff A, Peña A. Pitfalls and challenges of cloaca repair: how to reduce the need for reoperations [J]. J Pediatr Surg, 2011, 46 (6): 1250-1255. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2011.03.064.
 - 23 Kwun Kim S, Hoon Park J, Cheol Lee K, et al. Long-term results in patients after rectosigmoid vaginoplasty [J]. Plast Reconstr Surg, 2003, 112 (1): 143-151. DOI: 10.1097/01.PRS.0000066169.78208.D4.
 - 24 Bouman MB, Buncamper ME, van der Sluis WB, et al. Total laparoscopic sigmoid vaginoplasty [J]. Fertil Steril, 2016, 106 (7): 22-23. DOI: 10.1016/j.fertnstert.2016.08.049.
 - 25 Van der Sluis WB, Bouman MB, Buncamper ME, et al. Revision vaginoplasty: a comparison of surgical outcomes of laparoscopic intestinal versus perineal full-thickness skin graft vaginoplasty [J]. Plast Reconstr Surg, 2016, 138 (4): 793-800. DOI: 10.1097/PRS.0000000000002598.

(收稿日期: 2018-12-15)

本文引用格式: 王勇, 梁子建, 陈运培, 等. 乙状结肠重建阴道术治疗小儿阴道畸形的疗效分析 [J]. 临床小儿外科杂志, 2019, 18 (7): 583-587. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2019.07.013.

Citing this article as: Wang Y, Liang ZJ, Chen YP, et al. Clinical treatment of vaginal replacement with sigmoid colon in children [J]. J Clin Ped Sur, 2019, 18 (7): 583-587. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2019.07.013.

霍桑效应对研究结论的潜在影响

霍桑效应的诞生初期只是一个心理学领域的概念,是指人们因为成了研究中特别感兴趣和受注意的目标而改变其行为的一种趋向,与他们接受的干预措施的特异性作用无关。如果我们在开展临床研究的时候忽视了霍桑效应的存在,没有在研究设计的时候就采取一些方法来避免霍桑效应的影响。因为不同疾病、不同研究内容的研究中,霍桑效应的大小不一致,单纯通过统计学处理是难以从根源上消除霍桑效应的。那么我们的研究结果里试验组和对照组的差别很可能就是研究的干预措施的效应和霍桑效应的和,而不单纯是干预措施的效应,此时措施效应的作用会在一定程度上被夸大,因此研究者在针对结果讨论的部分可以围绕可能产生霍桑效应的环节对研究结论进行更加严谨的认证。