

· 临床研究与实践 ·

儿童肛管重复畸形 2 例并文献复习



全文二维码

黄燕炳¹ 何渊彬¹ 庄小津² 许可¹ 谢斯琦¹ 方一凡¹ 吴典明¹ 林宇¹¹ 福建省儿童医院 上海儿童医学中心福建医院普外科, 福州 350001; ² 福建省儿童医院 上海儿童医学中心福建医院病理科, 福州 350001

通信作者: 林宇, Email: 171433750@qq.com

【摘要】 目的 探讨儿童肛管重复畸形的临床特征及治疗方法。 **方法** 回顾性分析福建省儿童医院 2 例肛管重复畸形(anal canal duplication, ACD)患儿临床资料;同时检索中国知网、万方医学网、PubMed、Medline、Web of Science 1992—2022 年相关文献,中英文检索词分别为:“肛管/肛门重复畸形”、“anal canal duplication”。收集本院以及符合纳排标准文献中 ACD 患儿一般资料(性别、诊断年龄)、临床特征(开口位置、类型、长度、与肛管直肠之间的关系、临床症状、合并畸形)、治疗方案及随访情况等进行分析。 **结果** 本院 2 例于新生儿期发现正常肛门正后方异常开口,无肛周感染病史及不适,影像学检查未发现其他合并畸形。异常开口造影提示 2 例均为管状结构,1 例管腔近端与直肠相通,均采用后矢状入路小切口 ACD 剥离术,术后病理结果显示 ACD 与正常肛管具有类似病理学特征,术后 2 个月随访肛门外观及功能恢复良好。文件检索共获得符合要求文献 23 篇,共 74 例 ACD 患儿,包括本院 2 例在内共 76 例,男女比例为 1 : 7.4;诊断年龄 3.5(0~16)岁;71 例(71/76,93%)ACD 位于正常肛门截石位 6 点方向;91%(69/76)为管状型,9%(7/76)为囊肿型;约 87%(66/76)的患儿(平均年龄 2.8 岁)无临床症状或仅有轻度症状,约 13%(10/76)的患儿(平均年龄为 7.7 岁)出现严重并发症,主要表现为骶前感染;约 33%(25/76)的患儿合并其他异常,以骶前包块最常见(11/25,44%)。70 例予手术切除 ACD(其中 34 例经会阴入路,36 例取后矢状入路),术后并发症发生率约为 4%(3/70)。76 例 ACD 患儿平均随访时间 3.6 年,肛门功能均正常。 **结论** ACD 多见于女性,当发现肛门正后方异常开口时应考虑 ACD,予进一步影像学检查以排除其他合并异常。一旦诊断 ACD 应早期手术治疗,建议采取后矢状入路 ACD 剥离术,手术安全,疗效良好。

【关键词】 肛管, 畸形; 先天畸形; 诊断; 治疗; 儿童

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202211022-016

Anal canal duplication in children: a report of two cases with a literature reviewHuang Yanbing¹, He Yuanbin¹, Zhuang Xiaojin², Xu Ke¹, Xie Siqi¹, Fang Yifan¹, Wu Dianming¹, Lin Yu¹¹ Department of General Surgery, Fujian Children's Hospital (Fujian Branch of Shanghai Children's Medical Center), Fuzhou 350001, China; ² Department of Pathology, Fujian Children's Hospital (Fujian Branch of Shanghai Children's Medical Center), Fuzhou 350001, China

Corresponding author: Lin Yu, Email: 171433750@qq.com

【Abstract】 Objective To explore the clinical characteristics and treatments of anal canal duplication (ACD) in children. **Methods** The relevant clinical data were retrospectively reviewed for two ACD children. More related cases were retrieved from the relevant Chinese and English literature reports of the databases of PubMed, Medline, Web of Science, CNKI and Wanfang from 1993 to 2022. **Results** Two neonates presented with sagittal anal orifice discovered by their mothers. There were no other associated anomalies. Fistulography revealed a tubular structure in two cases and proximal end of lumen communicated with rectum in case 2. Dissection was performed via a posterior sagittal approach. Histological examination hinted at squamous epithelium with smooth muscle bundles. Both cases achieved excellent cosmetics with normal sphincter control. A total of 76 cases of ACD have been reported. There were 9 boys and 67 girls with a mean diagnostic age of 3.5(0-16) year; 93%(71/76) of lesion were located at 6 o'clock behind anus; 91%(69/76) was tubular and 9%(69/76) cystic. And 87%(66/76) were asymptomatic or mildly symptomatic (a mean age of 2.8 year); 13%(10/

76) developed presacral abscesses (a mean age of 7.7 year); 33% (25/76) presented associated anomalies, including presacral mass (44%); 70 children underwent surgical removal (perineal approach, $n=34$; posterior or sagittal approach, $n=36$) and postoperative complications occurred (4%, 3/70). Bowel function normalized during a mean follow-up period of 3.6 years (1 month to 19 years). **Conclusions** A clinical diagnosis of ACD should be suspected for an opening in posterior anal midline, particularly in girls. Associated anomalies should be ruled out. Early surgery is recommended. ACD removal via a posterior sagittal approach is both safe and effective.

【Key words】 Anal Canal, Abnormalities; Congenital Abnormalities; Diagnosis; Therapy; Child

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202211022-016

肛管重复畸形(anal canal duplication, ACD)是一种罕见的先天性消化道重复畸形,好发于女性,通常位于正常肛门后方,常分为管状型及囊肿型,远端借一窦口与外界相通,近端为盲端,绝大部分与直肠肛管不相通^[1-2]。30%~50%的 ACD 合并其他异常,如骶前包块、肛门直肠畸形、Currarino 综合征、泌尿生殖系统畸形、神经管缺陷等^[1,3-5]。患儿大多无临床症状,但随着年龄增长,可出现复发性瘘管、骶前脓肿、脓毒血症、甚至恶性病变等严重并发症^[6-8]。目前认为可通过会阴或后矢状入路完整切除 ACD,也有少数学者认为对于单纯的浅表 ACD 可随访观察^[1,9-10]。本文通过回顾性分析福建省儿童医院 2 例 ACD 的诊治经过,并系统复习国内外相关文献,总结该病的临床特征与治疗方法,供临床参考。

资料与方法

一、临床资料

病例 1:女性,6 岁,因出生后发现肛门后方异常开口于 2022 年 8 月入院,患儿无肛周异常分泌物、瘙痒、感染等,每日大便 1 次,无排便困难及大便失禁。体格检查:腹部平软,未扪及明显包块;截石位见生理肛门存在,6 点方向距肛门 2 mm 处见直径约 3 mm 异常开口(图 1A),长度约 1 cm,末端为盲端。肛门指检:无狭窄,肠壁柔软,未扪及明显肿块。心脏超声及腹部 B 超未发现明显异常。经后方异常开口插入细导管注入稀释优维显造影,见管状结构,近端为盲端,与直肠或其他组织不相通,盲端距肛窝标记约 1.5 cm;结肠造影无明显异常。腰骶尾椎 MRI 平扫:骶前、脊髓未见明显异常信号,脊髓圆锥位于第十二腰椎水平,未见脊髓及脊膜膨出征像,肛周括约肌形态正常。

病例 2:男性,6 月龄,因出生后发现肛门后方异常开口于 2022 年 9 月入院。患儿无肛周感染病史

及其他不适,每日排便 2 次。查体:截石位 6 点方向距正常肛门 2 mm 处见一直径约 2 mm 异常开口(图 1B),肛门指检无异常。心脏超声、腹部 B 超未见明显异常;经异常开口造影见管腔结构,依次显影至直肠末端,直肠末端距肛周标记物约 3 cm(图 1C),结肠造影无明显异常。腰骶尾部 MRI:第二骶椎以下两侧椎弓板未完全融合,未发现其他合并异常;肛周括约肌形态正常。本研究通过福建省儿童医院医学伦理委员会审核批准(2022ETKLR12058),患儿家属均知情同意并签署知情同意书。

二、手术方法

两例均于手术前一日晚和手术日晨予开塞露通便,在全身麻醉下行后矢状入路小切口肛管重复畸形剥离术。术中取俯卧位抬高臀部,用肌肉刺激器刺激会阴部,明确正常肛门位于括约肌中心;探针经异常开口探查重复肛管走向及深浅;自重复肛管外口注入 2% 亚甲蓝确认重复肛管位置;于重复肛管外口周围做梭形切口,多条丝线牵引重复肛管远端黏膜与皮肤交界处,保持局部张力,靠近蓝染黏膜层潜行钝、锐性剥离重复肛管至近端,注意避免伤及正常肛管直肠。病例 1 完整切除重复肛管近端(盲端),病例 2 重复肛管与直肠后壁相连,近直肠后壁结扎重复肛管近端,并完整切除,残端予电刀烧灼;依次缝合皮下肌层及皮肤,封闭腔隙。两例患儿手术情况见图 1D、图 1E。

三、文献检索方法

检索中国知网、万方医学网, PubMed、Medline、Web of Science 等中英文数据库。检索关键词:“肛管/肛门重复畸形”、“anal canal duplication”。检索年份:1992—2022 年。文献纳入标准:①关于肛管重复畸形的个案报道或病例系列报道;②初诊年龄 ≤ 18 岁。排除标准:仅在文章摘要及会议论文中描述、信息缺失过多或笼统描述病例数而无具体临床信息的文献。

收集符合纳排标准的文献中 ACD 患儿一般资

料(性别、诊断年龄)、临床特征(开口位置、类型、长度、与肛管直肠之间的关系、临床症状、合并畸形)、治疗方案以及随访情况等进行分析。

结 果

一、本院 2 例患儿术后病理检查及随访结果

两例切除重复肛管长度分别为 10 mm、15 mm,管腔均内衬复层鳞状上皮,伴周围灶性炎症细胞浸润,管腔外周围可见平滑肌组织(图 1G)。术后随访 2 个月,患儿肛周外观满意(图 1H),肛门排便功能良好,Rintala 肛门功能评分 ≥ 17 分。

二、文献分析结果

共获得符合纳入及排除标准文献 23 篇,报道 74 例 ACD 患儿,结合本文 2 例共 76 例,患儿临床资料见表 1。66 例无临床症状或仅有轻微症状患儿平均诊断年龄 2.8(0~13)岁;10 例出现严重并发症,患儿平均诊断年龄 7.7 岁(1 个月至 16 岁);25 例合并其他异常,包括 11 例骶前肿物(病理表现为成熟性畸胎瘤、错构瘤、皮样囊肿、室管膜瘤等),4 例泌尿系统畸形(重复肾、重复输尿管等),3 例肛门直肠畸形(肛门狭窄、直肠前庭瘘等),3 例 Currarino 综合征,2 例神经管缺陷(脊柱裂、脊髓脊膜膨出),1 例唇腭裂畸形,1 例骶尾骨发育不良。70 例予手术切除 ACD,其中 34 例采取会阴入路,术后出现并发症 3 例(3/70,4%),其中 1 例因肛门外括约肌损伤,术后存在大便失禁,经二次手术修补括约肌,大便失禁改善;1 例出现肛门损伤,经手术修补康复,但早期存在便秘;1 例 ACD 伴骶腔脓肿且瘘管形成患儿术后出现伤口感染,瘘管复发,经二次手术治愈;36 例采取后矢状入路,无一例术后并发症。所有手术患儿末次随访时,肛门功能均正常,平均随访时间 3.6 年。6 例无临床症状患儿未行手术治疗,近期随访效果良好,无远期随访资料。

讨 论

消化道重复畸形可发生于食管至肛管的任何部位,ACD 最早由 Dukes 等于 1956 年描述,截至 2021 年,英文文献报道约 100 例^[1,8]。Hamada 等^[11]首次定义 ACD 为位于正常肛门后矢状位的第二肛门,包括一些骶骨发育不良和先天性肛门直肠畸形。ACD 具有正常肛管类似的组织学特征,Ochiai 等^[12]提出 ACD 的诊断需基于 3 个病理学特

征:①远端黏膜为鳞状上皮;②近端为移行上皮;③管壁周围为平滑肌细胞。本院 2 例符合 ACD 病理诊断。除此之外,文献报道 ACD 病理表现还存在柱状上皮,管壁周围有炎性细胞浸润及肛腺组织^[13-15]。

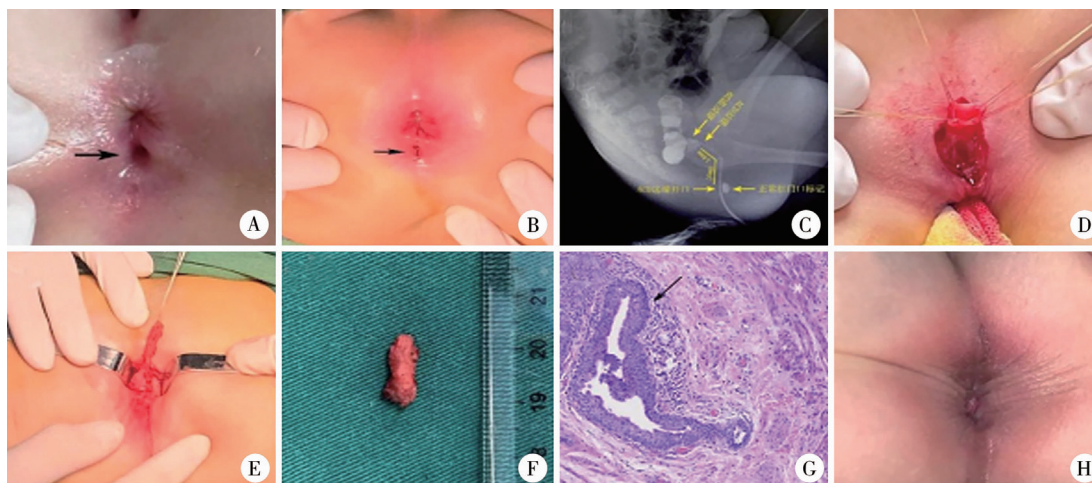
肛门直肠的正常发育是一个复杂的过程,目前对于 ACD 的发生存在两种理论。Hamada 等^[11]基于 vanderPutte^[16]的肛门直肠发育模型认为,ACD

表 1 76 例 ACD 患儿临床资料总结^[1-5,7,9-14,18-22,24,28-32]

Table 1 Clinical profiles of 76 ACD children

变量	数值
性别[例(%)]	
女	67(88)
男	9(12)
平均诊断年龄(岁)	3.7
ACD 开口位置[例(%)]	
截石位 6 点	71(93)
其他 ^a	5(7)
ACD 类型[例(%)]	
管状型	69(91)
囊肿型	7(9)
平均长度/最大径(mm)	
管状型	17
囊肿型	38
与肛管直肠关系[例(%)]	
无	71(93)
有	5(7)
临床表现 ^b [例(%)]	
无	53(70)
轻症	13(17)
严重并发症	10(13)
合并其他异常(例)	
骶尾前包块	11
泌尿生殖系统畸形	4
肛门直肠畸形	3
Currarino 综合征	3
其他	4
无	51
手术情况(例)	
经会阴入路	34
经后矢状入路	36
未手术	6
术后并发症[例(%)]	3(4)
末次随访情况[例(%)]	
肛门功能良好	73(96)
未具体描述	3(4)
平均随访时间(年)	3.6

注 ^a:2 例 ACD 开口分别位于截石位 5 点、7 点;2 例同时存在两个异常开口;1 例正常肛门附近未见异常开口;^b:轻症是指肛周潮红、疼痛、瘙痒、黏性分泌物、腹泻、便秘;严重并发症是指骶前脓肿、复发性瘘管



注 A、B:病例1、2 肛周外观,距正常肛门下约5 mm 正中可见“重复肛门”(↑); C:病例2 经异常开口造影可见管腔远端与直肠相通; D:后矢状入路小切口,重复肛管远端黏膜牵引; E:重复肛管与直肠共壁,仔细靠近黏膜剥离至近端,近端与直肠后壁相连; F:切除重复肛管长度(病例2:15 mm); G:组织病理学结果(HE 染色, ×100):管腔黏膜层内衬复层鳞状上皮(↑),管腔外可见平滑肌束(*); H:术后肛周外观满意

图1 2例ACD患儿术前检查、术中情况、术后病理检查及随访情况

Fig.1 Preoperative examination, intraoperative status, pathological examination and follow-up results of 2 ACD children

可能是胚胎发育30 d左右背侧泄殖腔重复,向下转移至尾部形成肛门的过程中所形成,这一理论解释了ACD与某些特定合并畸形(如Currarino三联症、肛门直肠畸形等)的高发生率相关。Choi等^[14]基于Nievelstein等^[17]的研究提出ACD的形成可能与晚期胚胎发育缺陷有关,他们认为ACD患儿胎儿期比正常胎儿有更长的泄殖腔背膜(肛膜),在肛门外括约肌正常发育后,多余的肛膜再通导致ACD,这一理论可以解释为什么ACD常发生在肛门后方的中线且不累及肛门括约肌,不延伸至提肛肌上方,也不与肛管管腔相通。ACD女性发病率高,其发生可能与性染色体相关遗传因素有关^[18]。此外,ACD是否为肛门直肠畸形(anorectal malformation, ARM)的一种亚型目前也在争议当中^[19]。

典型ACD表现为正常肛门后正中线上出现一个异常开口,而不典型ACD表现为肛门后正中线上出现两个异常开口,极少数病例在正常肛门附近未见异常开口^[9]。ACD以管状型为主,绝大部分与直肠不相通,瘘管造影可准确评估其形态、长度以及是否与肛管直肠连通,具有重要诊断价值。本中心1例患儿瘘管造影清晰显示ACD远端与正常肛管共壁,近端与直肠远端相通,为后续手术治疗提供了参考。文献复习中,我们发现ACD的临床表现与其类型相关,绝大部分管状型ACD无症状或仅有轻微的非特异性临床表现(如肛周潮红、瘙痒、黏性分泌物等);而对于囊肿型ACD,约85%(6/7)的患儿存在骶前感染、脓肿形成等严重并发症,部分患儿

因感染迁延不愈,形成复发性瘘管。因此,囊肿型ACD一般临床症状较重,应予以重视。本文总结的76例ACD患儿中,10例出现严重并发症,约50%(5/10)的患儿术后病理检查提示ACD管腔黏膜除鳞状上皮外,同时存在柱状上皮,提示ACD感染可能来源于具有分泌功能的柱状上皮^[7,13,20-22]。Biervliet等^[4]总结55例ACD发现随着年龄增长,出现症状和严重并发症的可能性增加,无症状患儿平均年龄0.8岁,出现轻微症状的患儿平均年龄4岁,出现严重并发症患儿平均年龄6.5岁。本研究76例出现严重并发症的患儿平均年龄7.7岁。Mirzaei等^[23]报告4例成人ACD中有3例存在肛周感染、脓肿形成及复发性瘘管。Dukes等^[8]于1956年报道8例疑似ACD向胶质癌转化的患者,中位年龄65岁,但此后再无ACD恶变的病例报道,ACD远期是否存在恶性转化目前证据尚不足。因此,尽早发现ACD并治疗可能对结局至关重要。

ACD通常被误诊为肛瘘及直肠重复畸形。肛瘘瘘口通常位于正常肛门左右两侧,且在肛瘘形成前有肛周脓肿病史;直肠重复畸形大部分为囊性结构,与直肠共壁,开口多位于会阴区,且病理类型与ACD存在较大差异^[24-27]。本研究中约33%的ACD患儿同时合并其他异常,最常见为骶前包块,病理以良性病变(包括成熟性畸胎瘤、错构瘤、皮样囊肿、室管膜瘤)为主,其次是泌尿系统畸形、肛门直肠畸形、Currarino综合征。因此,当怀疑ACD时,需同时行骶尾部MR、泌尿系B超等影像学检查以

排除其他合并异常。虽然骶尾部 MRI 对诊断 ACD 灵敏度较低,但其对骶前包块的鉴别具有较高价值^[2,19]。

ACD 远期存在脓肿形成、复发性瘘管等严重并发症甚至发生恶变的风险,因此目前大部分学者建议早期手术治疗,文献报道平均手术年龄为 24 个月^[1,26-27]。手术方式包括 ACD 完全切除术或黏膜剥离术,手术入路包括经会阴入路或后矢状入路^[1,9,16 20,28-29]。也有学者提出对于无症状的浅表管状 ACD 可长期随访,手术并非必要^[10]。通过文献复习,我们发现对于复杂性 ACD(如合并骶前包块、严重骶前感染、复发性瘘管、肛门直肠畸形、Currarino 综合征)的患儿,手术主要选择后矢状入路,术后肛门功能恢复良好,无相关并发症^[9,13,16,17,30]。但 Carpentier 等^[31]报告 1 例 ACD 合并骶前脓肿的患儿通过会阴入路手术切除重复肛管,术中出现肛管损伤。同样,Mitsuyuki 等^[18]也报道了 1 例 ACD 合并骶前严重感染伴瘘管形成的患儿,通过会阴入路手术切除 ACD 及瘘管,术后出现伤口感染及瘘管复发,需要二次手术。这些个案报道提示对于合并严重骶前感染的 ACD 患儿,会阴入路手术可能不具优势。有学者认为对于管状型 ACD 长度小于 30 mm 且无其他合并异常的患儿,不必行 ACD 完整切除,仅行黏膜剥离术也可获得良好疗效^[28,32]。本中心 2 例 ACD 均为管状,长度不超过 30 mm,且未合并其他畸形,我们采用小切口后矢状入路 ACD 剥离术,操作简单,术后随访 2 例患儿肛门外观及功能均恢复良好。虽然 ACD 手术治疗并不复杂,手术后总体预后良好,但由于 ACD 远端开口距离肛门口近,与肛管直肠存在共壁,术中应尽可能靠近 ACD 黏膜层剥离,以减少肛管直肠损伤风险。对于极少部分术前造影评估 ACD 与肛管直肠相通的患儿,术中需剥离 ACD 至直肠后壁,紧贴直肠后壁缝扎瘘管,以免远期复发。

综上,ACD 好发于女性,远端开口通常位于正常肛门后正中线上,以管状型为主,平均长度约 17 mm,绝大部分近端为盲端,不与肛管直肠相通,囊肿型临床症状较重。当发现肛门正后方异常开口时应怀疑 ACD,进一步完善骶尾部 MRI、腹部 B 超等检查以排除其他合并异常,特别是骶前包块。虽然 ACD 患儿大部分无临床症状,但随着年龄增长,可引起严重骶前感染甚至存在恶变风险,应早期手术治疗,手术入路可选择经会阴及后矢状入路,建议经后矢状入路行 ACD 剥离术,手术安全,疗

效良好。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明 黄燕炳、何渊彬、庄小津负责文献检索;林宇、黄燕炳负责论文设计;黄燕炳、何渊彬、庄小津、许可、谢斯琦负责数据收集;黄燕炳、林宇、何渊彬、庄小津负责研究结果分析与讨论;黄燕炳负责论文撰写;林宇、吴典明、方一凡负责对全文知识性内容进行审阅

参 考 文 献

- [1] Ailhaud A, Alao O, Sole Cruz E, et al. Anal canal duplication in children: a monocentric experience of 12 cases [J]. *Pediatr Surg Int*, 2021, 37 (8): 1007-1012. DOI: 10. 1007/s00383-021-04910-5.
- [2] Trecartin AC, Peña A, Lovell M, et al. Anal duplication: is surgery indicated? A report of three cases and review of the literature [J]. *Pediatr Surg Int*, 2019, 35 (9): 971-978. DOI: 10. 1007/s00383-019-04509-x.
- [3] Connor SJ, Brisighelli G, Patel N, et al. Clinical quiz-a rare case of anal canal duplication in the context of currarino syndrome [J]. *European J Pediatr Surg Rep*, 2021, 9 (1): e68-e71. DOI: 10. 1055/s-0041-1735595.
- [4] Van Biervliet S, Maris E, Vande Velde S, et al. Anal canal duplication in an 11-year-old child [J]. *Case Rep Gastrointest Med*, 2013, 2013: 503691. DOI: 10. 1155/2013/503691.
- [5] Özbey H. Anal canal duplication in a 12-year-old girl [J]. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*, 2021, 72 (1): e21. DOI: 10. 1097/MPG. 0000000000002850.
- [6] Li DD, Liu SB, Feng JX, et al. Anal canal duplication mimicking recurrent abscess: a case report and review of the literature [J]. *Front Surg*, 2022, 9: 908390. DOI: 10. 3389/fsurg. 2022. 908390.
- [7] Honda S, Minato M, Miyagi H, et al. Anal canal duplication presenting with abscess formation [J]. *Pediatr Int*, 2017, 59 (4): 500-501. DOI: 10. 1111/ped. 13222.
- [8] Dukes CE, Galvin C. Colloid carcinoma arising within fistulae in the anorectal region [J]. *Ann R Coll Surg Engl*, 1956, 18 (4): 246-261.
- [9] Palazon P, Julia V, Saura L, et al. Anal canal duplication and triplication: a rare entity with different presentations [J]. *Pediatr Surg Int*, 2017, 33 (5): 609-617. DOI: 10. 1007/s00383-017-4074-7.
- [10] Akova F, Altınay S, Aydın E. The controversy of surgical intervention for anal canal duplication in children [J]. *Pak J Med Sci*, 2020, 36 (6): 1330-1333. DOI: 10. 12669/pjms. 36. 6. 1832.
- [11] Hamada Y, Sato M, Hioki K. Anal canal duplication in childhood [J]. *Pediatr Surg Int*, 1996, 11 (8): 577-579. DOI: 10. 1007/BF00626072.
- [12] Ochiai K, Umeda T, Murahashi O, et al. Anal-canal duplication in a 6-year-old child [J]. *Pediatr Surg Int*, 2002, 18 (2/3): 195-197. DOI: 10. 1007/s003830100691.
- [13] Kratz JR, Deshpande V, Ryan DP, et al. Anal canal duplication associated with presacral cyst [J]. *J Pediatr Surg*, 2008, 43 (9): 1749-1752. DOI: 10. 1016/j. jpedisurg. 2008. 05. 026.
- [14] Choi SO, Park WH. Anal canal duplication in infants [J]. *J Pediatr Surg*, 2003, 38 (5): 758-762. DOI: 10. 1016/jpsu. 2003. 50161.
- [15] Mateescu T, Tarta C, Stanciu P, et al. Anal canal duplication in an

- adult female-case report and pathology guiding [J]. *Medicina (Kaunas)*, 2021, 57 (11): 1205. DOI: 10. 3390/medicina5711205.
- [16] van der Putte SCJ. Normal and abnormal development of the anorectum [J]. *J Pediatr Surg*, 1986, 21 (5): 434 - 440. DOI: 10. 1016/S0022-3468(86)80515-2.
- [17] Nievelstein RAJ, van der Werff JFA, Verbeek FJ, et al. Normal and abnormal embryonic development of the anorectum in human embryos [J]. *Teratology*, 1998, 57 (2): 70 - 78. DOI: 10. 1002/(SICI)1096-9926(199802)57:2<70::AID-TERA5>3.0.CO;2-A.
- [18] Koga H, Okazaki T, Kato Y, et al. Anal canal duplication: experience at a single institution and literature review [J]. *Pediatr Surg Int*, 2010, 26 (10): 985 - 988. DOI: 10. 1007/s00383-010-2653-y.
- [19] Narci A, Dilek FH, Çetinkuşun S. Anal canal duplication [J]. *Eur J Pediatr*, 2010, 169 (5): 633 - 635. DOI: 10. 1007/s00431-009-1094-x.
- [20] Lisi G, Illiceto MT, Rossi C, et al. Anal canal duplication: a retrospective analysis of 12 cases from two European pediatric surgical departments [J]. *Pediatr Surg Int*, 2006, 22 (12): 967 - 973. DOI: 10. 1007/s00383-006-1801-x.
- [21] Lippert SJ, Hartin CW Jr, Ozgediz DE. Communicating anal canal duplication cyst in an adolescent girl [J]. *Colorectal Dis*, 2012, 14 (5): e270 - e271. DOI: 10. 1111/j. 1463-1318. 2011. 02870. x.
- [22] Nakata M, Mitsunaga T, Terui E, et al. Recurrence of anal canal duplication with abscess formation [J]. *J Pediatr Surg Case Rep*, 2018, 33: 68 - 71. DOI: 10. 1016/j. epsc. 2018. 04. 007.
- [23] Mirzaei R, Mahjubi B, Alvandipoor M, et al. Late presentation of anal canal duplication in adults: a series of four rare cases [J]. *Ann Coloproctol*, 2015, 31 (1): 34 - 36. DOI: 10. 3393/ac. 2015. 31. 1. 34.
- [24] Karamatzanis I, Kosmidou P, Harmanis S, et al. Early diagnosis of anal canal duplication: the importance of a physical examination [J]. *Cureus*, 2022, 14 (5): e25040. DOI: 10. 7759/cureus. 25040.
- [25] 陈希琳, 冯六泉, 姜国丹, 等. 肛瘘的诊治专家共识 (2020 版) [J]. *实用临床医药杂志*, 2020, 24 (17): 1 - 7. DOI: 10. 7619/jc-mp. 202017001.
- Chen XL, Feng LQ, Jiang GD, et al. Expert Consensus on Diagnosing and Treating Anal Fistula (2020 Edition) [J]. *J Clin Med Pract*, 2020, 24 (17): 1 - 7. DOI: 10. 7619/jc-mp. 202017001.
- [26] Nosek M, Golonka A, Kalińska-Lipert A, et al. Rectal duplication with sciatic hernia [J]. *Wideochir Inne Tech Malo Inwazyjne*, 2015, 10 (2): 282 - 285. DOI: 10. 5114/witm. 2015. 52708.
- [27] 孙琳, 王燕霞, 刘予. 小儿直肠重复畸形 (附 7 例报告) [J]. *中国普外基础与临床杂志*, 1996, 3 (4): 214 - 216.
- Sun L, Wang YX, Liu Y. Rectal duplications in children: a report of 7 cases [J]. *Chin J Bas Clin Gen Surg*, 1996, 3 (4): 214 - 216.
- [28] Tiryaki T, Senel E, Atayurt H. Anal canal duplication in children: a new technique [J]. *Pediatr Surg Int*, 2006, 22 (6): 560 - 561. DOI: 10. 1007/s00383-006-1654-3.
- [29] Jacquier C, Dobremez E, Piolat C, et al. Anal canal duplication in infants and children-a series of 6 cases [J]. *Eur J Pediatr Surg*, 2001, 11 (3): 186 - 191. DOI: 10. 1055/s-2001-15482.
- [30] Sinnya S, Curtis K, Walsh M, et al. Late presentation of anal canal duplication in an adolescent female: a rare diagnosis [J]. *Int J Colorectal Dis*, 2013, 28 (8): 1175 - 1176. DOI: 10. 1007/s00384-012-1608-2.
- [31] Carpentier H, Maizlin I, Bliss D. Anal canal duplication: case reviews and summary of the world literature [J]. *Pediatr Surg Int*, 2009, 25 (10): 911 - 916. DOI: 10. 1007/s00383-009-2474-z.
- [32] 高群, 黄河, 潘祝彬, 等. 肛门重复畸形一例 [J]. *中华小儿外科杂志*, 2010, 31 (5): 403 - 404. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 0253-3006. 2010. 05. 027.
- Gao Q, Huang H, Pan ZB, et al. Anal canal duplication: one case report [J]. *Chin J Pediatr Surg*, 2010, 31 (5): 403 - 404. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 0253-3006. 2010. 05. 027.
- (收稿日期: 2022-11-11)
- 本文引用格式:** 黄燕炳, 何渊彬, 庄小津, 等. 儿童肛管重复畸形 2 例并文献复习 [J]. *临床小儿外科杂志*, 2024, 23 (2): 184 - 189. DOI: 10. 3760/cma. j. cn101785-202211022-016.
- Citing this article as:** Huang YB, He YB, Zhuang XJ, et al. Anal canal duplication in children: a report of two cases with a literature review [J]. *J Clin Ped Sur*, 2024, 23 (2): 184 - 189. DOI: 10. 3760/cma. j. cn101785-202211022-016.

· 编者 · 作者 · 读者 ·

本刊常年办理征订

本刊邮发代号 42-261, 欢迎广大读者通过全国各地邮局、编辑部或微信公众号“菁医汇”(微信号 cmayouth)、中华医学网 (<http://medline.org.cn/>) / 中华医学期刊网 (<http://medjournals.cn/>) 订阅。另外, 本刊编辑部常年办理破季、破月征订及补订手续。编辑部联系地址: 410007, 长沙市梓园路 86 号 (湖南省儿童医院内), 临床小儿外科杂志编辑部, 联系人: 贾佩君, E-mail: china_jcps@sina.com