

· 病例报告 ·

完全腹腔镜治疗先天性直肠闭锁 1 例



全文二维码

李响^{1,2} 李颀¹ 李旭¹ 冯翠竹¹ 李龙^{1,2}¹ 首都儿科研究所附属儿童医院普通(新生儿)外科,北京 100020; ² 中国医学科学院北京协和医学院研究生院,北京 100730

通信作者:李龙,Email:lilong23@126.com

Treatment of rectal atresia with complete laparoscopy: one case report with a literature review

Li Xiang^{1,2}, Li Qi¹, Li Xu¹, Feng Cuizhu¹, Li Long^{1,2}¹ Affiliated Children's Hospital, Capital Institute of Pediatrics, Beijing 100020, China; ² Graduate School, Peking Union Medical College, Chinese Academy of Medical Sciences, Beijing 100730, China

Corresponding author: Li Long, Email: lilong23@126.com

【摘要】 先天性直肠闭锁(rectal atresia, RA)是一种罕见的肛门直肠畸形。本文报道首都儿科研究所附属儿童医院 1 例 RA 患儿的临床资料及诊治方案,并介绍一种新的手术方法-完全腹腔镜下直肠成形术,结合文献总结其临床特征、诊断及治疗方案,以提高对该病的认识及治疗水平。

【关键词】 先天性直肠闭锁;完全腹腔镜手术;肛门直肠畸形;外科手术;儿童

基金项目: 中国医学科学院小儿外科微创诊疗创新单元(2021RU015)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202301014-015

先天性直肠闭锁(rectal atresia, RA)是非常罕见的肛门直肠畸形,占肛门直肠畸形的 1%~2%^[1]。其特点为闭锁远端直肠形态大致正常,肛门会阴外观正常,生后早期可能难以被发现,直到发生低位肠梗阻及严重腹胀才引起医师的重视^[2]。由于其发病率极低,既往仅见个案及病例序列报道,以往治疗多采用后矢状入路肛门成形术和经肛门拖出直肠远端切除术等,这些手术会造成肛周括约肌损伤,术后需扩肛等长期治疗,目前应用完全腹腔镜下治疗直肠闭锁未见报道。首都儿科研究所附属医院收治 1 例 RA 患儿行完全腹腔镜下直肠成形术,在此予以报道,同时结合国内外相关文献进行分析,总结该病的临床特征、诊断及治疗方案,以期提高对该病的临床认识。本研究已通过首都儿科研究所附属儿童医院伦理委员会审查通过(SHERLL2022047)。

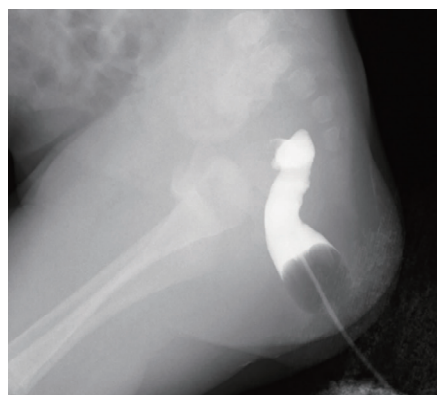
患儿,男,37 周⁺6 顺产,因“生后未排便伴腹胀”于生后 4 天在当地医院行回肠末端双腔造瘘术,术中诊断为直肠膜式闭锁。患儿造瘘后 3 月余为进一步治疗入住本院,入院查体见患儿肛门外观正常(图 1),置入肛管 5 cm 后可及直肠盲端。下消化道造影:用 8 号尿管球囊加压固定于肛门内,推入造影剂使闭锁远端充盈,测得闭锁处距肛门约 4.5 cm(图 2),自瘘口推入造影剂,可见闭锁近端结肠明显扩张。盆腔核磁:盆腔平扫核磁可见乙状结肠扩张,未见骶前肿物及其他畸形。术前考虑患儿直肠闭锁位置可能位于盆腔腹膜反折以上,决定术中经肛门置入肛管辅助暴露直肠盲端,于腹腔镜下进行直肠膜式闭锁切除吻合。



注 肛门位置及外观正常

图 1 直肠闭锁患儿肛门外观

Fig. 1 Appearance of rectal atresia

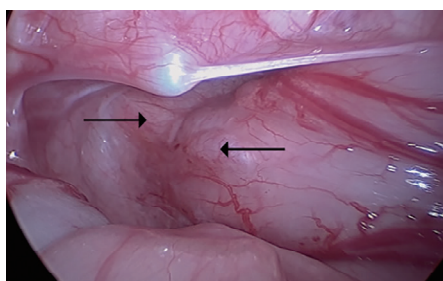


注 推入造影剂使闭锁远端充盈,测得闭锁处距肛门约 4.5 cm

图 2 直肠闭锁患儿下消化道造影检查结果

Fig. 2 Gastroenterographic imaging of rectal atresia

手术方法:于脐部切口 0.5 cm,置入 5 mm Trocar,建立 CO₂ 气腹,气腹压力 8 mmHg(1 mmHg = 0.133 kPa),置入腔镜,分别于脐下方、腹两侧置入 3 mm Trocar 3 枚。探查直肠乙状结肠连续,近端明显扩张肥厚,直径 3 cm,闭锁位于腹膜反折上 0.5 cm,直径约 1 cm(图 3)。肛门置入肛管顶起远端直肠后见闭锁远端可达腹膜反折上 2 cm。电钩在对系膜侧中间纵行切开直肠前壁,近端切开 2 cm,远端切开 1.5 cm,见膜式闭锁,厚度约 3 mm,闭锁瓣膜完整,未见孔洞,后壁劈开瓣膜至管腔无阻碍,用 5-0 PDS 线连续锁边缝合黏膜创面后,5-0 PDS 线连续横行缝合直肠前壁,行直肠纵切横缝成形术,吻合口通畅,直径约 1.5 cm,血运良好。术中出血约 5 mL;留置肛管穿过吻合口。本次手术未关闭回肠造瘘。患儿于腹腔镜下顺利完成手术,手术时长 34 min。术后按常规给予抗感染、补液等治疗,术后 4 h 开始经口饮水,术后 1 d 恢复肠内营养,术后 3 d 复查胃肠超声未见明确异常,复查血常规基本正常;伤口愈合良好,术后即刻肛管排出少量陈旧胎便,术后 1 周间断有肠液自肛管排出;于术后 8 d 拔除肛管后出院。术后 1 个月复查下消化道造影,无吻合口狭窄、吻合口瘘(图 4)。术后 3 个月关闭回肠造瘘,纳奶正常,无腹胀、便秘,无吻合口瘘、粘连性肠梗阻等术后并发症。



注 牵拉乙状结肠,暴露腹膜反折,图中左侧箭头标记为直肠闭锁远端,远端稍隆起于腹膜反折;右侧箭头标记为直肠闭锁近端,肠管扩张肥厚

图 3 直肠闭锁患儿术中图片

Fig. 3 Intraoperative image of rectal atresia



注 术后 1 个月复查消化道造影检查,无吻合口狭窄或吻合口瘘

图 4 直肠闭锁患儿术后消化道造影图片

Fig. 4 Gastroenterographic imaging of rectal atresia

讨论 RA 的临床表现为不排胎便,伴有低位肠梗阻症状,可以通过肛诊或直肠置管(肛管、棉签或肛门测温计等)诊断,其特点为闭锁远端直肠形态大致正常,肛门会阴外观正常,生后早期可能难以被发现,直到发生低位肠梗阻及严重腹胀引起医师的重视,部分患者因肠梗阻症状在手术探查中被确诊^[2]。为了早期诊断该病,若新生儿出现胎便排出延迟,首先要对其行肛门指诊,低位直肠闭锁可触及闭锁端,位置较高的 RA 可予直肠置管(肛管、棉签或肛门测温计等)检查直肠是否通畅,若置入肛管明显受阻,应行下消化道造影及盆腔核磁协助诊断;要注意与小肠闭锁、结肠闭锁、先天性巨结肠和胎粪性肠梗阻相鉴别。

RA 分为五种类型:Ⅰ型为直肠狭窄,包括壁内型和网状孔型;Ⅱ型为直肠隔膜闭锁伴缺损;Ⅲ型为直肠闭锁伴盲端间纤维索带;Ⅳ型为完全直肠闭锁;Ⅴ型为多发闭锁,包括直肠闭锁伴狭窄、多发性直肠闭锁和 Houston 瓣膜增厚或多发性直结肠狭窄;其中Ⅲ型最为常见^[1]。约 30% 患者存在合并症,其中泌尿系统畸形最为常见;其次为骶前畸胎瘤、心脏畸形及其他肛门直肠畸形。术前需完善下消化道造影,以明确闭锁远近端肠管情况;建议患者术前完善盆腔核磁,以明确是否存在骶前肿物,若存在骶前肿物,需同期手术切除^[3]。

先天性直肠闭锁的手术方法多样,目前国际上对于治疗直肠闭锁的术式尚未规范。先天性直肠闭锁的最终手术目的是保留肛管、齿状线和括约肌复合体^[4-5]。2005 年 Kisra 等^[6]报道经肛门拖出切除远端直肠,近端直肠-肛门吻合的手术方式。肛管的完全游离和切除会损伤肛门括约肌和固有感觉,还可能导致直肠壁、阴道或尿道的损伤;随后出现经肛门直肠闭锁远端切除吻合术^[1,7-9]。经远端瘘口扩张器辅助直肠吻合术、肠镜辅助磁吸吻合术、膀胱镜下经肛门闭锁切开术等术式偶见报道^[3,10-11]。目前国际上报道较多的手术方法是后矢状入路肛门成形术及其衍生手术^[4,6,12]。2012 年由 Hamrick 等^[4]报道保留肛管前壁的后矢状入路肛门成形术,手术方法为后矢状入路经肛门将全部直肠盲端完全游离,并与肛门吻合;该术式在之前手术方法的基础上保留直肠前壁,减少肛管前壁肌肉及齿状线的破坏,但仍会对直肠括约肌、齿状线造成损伤,为充分暴露术野需切除尾骨,并存在吻合口感染、瘢痕形成等风险,后期需持续扩肛。这种手术方式可以较为直观地重建肠管,其缺点如下:①肌肉损伤:包括盆底,括约肌损伤;②手术切口大,术后并发症多;③可能损伤齿状线,影响肛门感觉和功能。先天性直肠闭锁预后较好,文献报道中无死亡病例;术后并发症以便秘最为常见,其他少见的并发症包括吻合口狭窄、骶前脓肿、直肠阴道瘘;行肛门远端直肠切除术、后矢状入路肛门成形术及保留肛管前壁的后矢状入路肛门直肠成形术的患儿,术后需要规律扩肛^[5]。文献中先天性直肠闭锁患儿均于新生儿期接受肠造瘘手术,最为常见的位置是乙状结肠;接受根治手术后,通常于术后 3 个月左右行关瘘手术。

上述治疗先天性巨结肠及肛门闭锁的手术方案中,部分术式一定程度上增加了不必要损伤,术后恢复较慢。因直肠

闭锁和肛门闭锁、先天性巨结肠的解剖结构不同,其特点是直肠远端结构功能正常,肛门形态肌肉发育也无明显异常,因此我们亟需一种更加微创、更加合理的手术治疗方案。随着腹腔镜技术和器械的成熟,完全腹腔镜下十二指肠膜式闭锁成形术已经成为常规,因此我们首次尝试将此技术应用于直肠闭锁的治疗。完全腹腔镜下直肠闭锁切开成形术通过肛管辅助在腹腔镜下暴露闭锁处肠管,对系膜侧中间纵行切开直肠前壁,后壁劈开瓣膜至管腔无阻碍,用 5-0 PDS 线连续锁边缝合黏膜创面,5-0 PDS 线连续横行缝合直肠前壁,行直肠纵切横缝成形术;术中应注意切开瓣膜后锁边缝合,其理由在于:①扩大管腔,避免狭窄;②结肠内不清洁,避免创面裸露造成感染。切开深度不宜太浅,以避免术后形成狭窄,也不宜太深而损伤直肠后壁导致穿孔;吻合后于腹腔镜直视下确保 22 号肛管可顺利通过吻合口。较后矢状入路手术和经肛拖出手术,完全腹腔镜下直肠闭锁切开成形术的优点是不损伤盆底肌及括约肌,使直肠远端、肛门及齿状线保持完整,最大程度减少了对周围组织(神经、尿道等)的损伤,减少了并发症,手术时长短,出血少,术后无需扩肛,恢复快。借鉴新生儿腹腔镜下十二指肠闭锁的手术经验,直肠闭锁可于新生儿早期行一期成形术,若肠管扩张难以暴露闭锁端,可于切开肠管后予吸引器减压。

对于术式的选择方面,经肛门远端直肠切除术、后矢状入路肛门成形术及保留肛管前壁的后矢状入路肛门直肠成形术被报道的病例数最多,说明对于各种类型的直肠闭锁,这几种术式具有普适性,尤其适用于合并骶前肿物的患儿;闭锁近端位于腹膜反折以下的患儿,可行经肛门直肠吻合术、经扩张器/肠镜辅助直肠吻合术,适用于各种类型的低位直肠闭锁。闭锁近端位于腹膜反折以上的患儿,可行经腹部直肠狭窄切除术、腹会阴联合脱出手术。对于闭锁两端距离较近的患儿,虽有肠镜辅助磁吸吻合术被报道,但其不适用于 V 型闭锁。故对于不同的直肠闭锁,需要结合具体的类型、闭锁远近端的位置和有无合并症,选择合适的手术方案。总结现有腹腔镜手术治疗经验及文献分析结果,结合本次的治疗经验,我们认为:①对于 I-IV 型直肠闭锁,闭锁处位于腹膜反折以上,且不伴骶前肿物,均可参照本病例行腹腔镜下直肠成形术;②对于 I~IV 型直肠闭锁,闭锁处位于腹膜反折以下,且不伴骶前肿物,可行经肛门直肠闭锁吻合术,术中需要应用肠镜或扩张器将闭锁近端顶出肛门口,以暴露术野^[7];③对于伴有骶前肿物需要同期切除的 I~IV 型直肠闭锁及 V 型多发闭锁,可行经肛门直肠闭锁远端切除吻合术、保留肛管前壁的后矢状入路肛门成形术^[4-6,9]。

综上,先天性直肠闭锁为罕见的肛门直肠畸形,因其发病率低,肛门外观正常,早期难以被发现;确诊后需要结合闭锁远近端的位置和有无合并症,选择合适的手术方案;腹腔镜下直肠成形术安全可行,手术损伤小,恢复快,并发症少。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文章检索为李旭、冯翠竹;论文调查设计为李响、李

顾;数据分析与收集为李响、冯翠竹;论文结果撰写为李响;论文讨论分析为李响、李顾、李龙

参 考 文 献

- [1] Sharma S, Gupta DK. Varied facets of rectal atresia and rectal stenosis[J]. *Pediatr Surg Int*, 2017, 33(8): 829-836. DOI: 10.1007/s00383-017-4106-3.
- [2] Zia-w-Miraj Ahmad M, Brereton RJ, Huskisson L. Rectal atresia and stenosis[J]. *J Pediatr Surg*, 1995, 30(11): 1546-1550. DOI: 10.1016/0022-3468(95)90153-1.
- [3] Stenström P, Clementson Kockum C, Arnbjörnsson E. Rectal atresia-operative management with endoscopy and transanal approach: a case report[J]. *Minim Invasive Surg*, 2011, 2011: 792402. DOI: 10.1155/2011/792402.
- [4] Hamrick M, Eradi B, Bischoff A, et al. Rectal atresia and stenosis; unique anorectal malformations[J]. *J Pediatr Surg*, 2012, 47(6): 1280-1284. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2012.03.036.
- [5] Lane VA, Wood RJ, Reck C, et al. Rectal atresia and anal stenosis; the difference in the operative technique for these two distinct congenital anorectal malformations[J]. *Tech Coloproctol*, 2016, 20(4): 249-254. DOI: 10.1007/s10151-016-1435-5.
- [6] Kisra M, Alkadi H, Zerhoni H, et al. Rectal atresia[J]. *J Paediatr Child Health*, 2005, 41(12): 691-693. DOI: 10.1111/j.1440-1754.2005.00763.x.
- [7] Luo CC, Ming YC, Chu SM, et al. Individualized management of upper rectal atresia[J]. *J Pediatr Surg*, 2009, 44(12): 2406-2409. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2009.09.016.
- [8] Gieballa M, Alkharashi N, Al-Namshan M, et al. Outcomes of transanal endorectal pull-through for rectal atresia[J]. *BMJ Case Rep*, 2018, 2018: bcr2017224080. DOI: 10.1136/bcr-2017-224080.
- [9] Hamzaoui M, Ghribi A, Makni W, et al. Rectal and sigmoid atresia; transanal approach[J]. *J Pediatr Surg*, 2012, 47(6): e41-e44. DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2012.02.025.
- [10] Upadhyaya P. Rectal atresia; transanal, end-to-end, rectorectal anastomosis; a simplified, rational approach to management[J]. *J Pediatr Surg*, 1990, 25(5): 535-537. DOI: 10.1016/0022-3468(90)90567-s.
- [11] Russell KW, Rollins MD, Feola GP, et al. Magnamosis; a novel technique for the management of rectal atresia[J]. *BMJ Case Rep*, 2014, 2014: bcr2013201330. DOI: 10.1136/bcr-2013-201330.
- [12] Laamrani FZ, Dafiri R. Rectal atresia; a rare cause of failure to pass meconium[J]. *Pan Afr Med J*, 2014, 19: 198. DOI: 10.11604/pamj.2014.19.198.4057.

(收稿日期:2023-01-13)

本文引用格式:李响,李顾,李旭,等.完全腹腔镜治疗先天性直肠闭锁 1 例[J]. *J Clin Ped Sur*, 2024, 23(5): 479-481. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202301014-015.

Citing this article as: Li X, Li Q, Li X, et al. Treatment of rectal atresia with complete laparoscopy: one case report with a literature review[J]. *J Clin Ped Sur*, 2024, 23(5): 479-481. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202301014-015.