

© Коллектив авторов, 2023
УДК 14.01.17 616-08-035
DOI – <https://doi.org/10.14300/mnnc.2023.18019>
ISSN – 2073-8137

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ УДВОЕНИЯ ПРЯМОЙ КИШКИ С ФОРМИРОВАНИЕМ СВИЩЕВОЙ ФОРМЫ ХРОНИЧЕСКОГО ПАРАПРОКТИТА У РЕБЕНКА

М. Г. Джилавян, И. В. Киргизов, А. М. Ефременков, И. А. Шишкин

Центральная клиническая больница с поликлиникой Управления делами Президента РФ, Москва, Российская Федерация

RECTAL DUPLICATION AS A CAUSE OF A FISTAL FORM OF CHRONIC PARAPROCTITIS IN A CHILD: REPORT OF A CASE

Dzhilavyan M. G., Kirgizov I. V., Efremenkov A. M., Shishkin I. A.

Federal State Budgetary Institution «Central Clinical Hospital with a Polyclinic», Moscow, Russian Federation

Удвоение прямой кишки – редкий врожденный порок развития, являющийся одним из видов дубликационных кист желудочно-кишечного тракта. О данном пороке следует помнить при наличии у пациентов со свищевой формой хронического парапроктита, устойчивого к стандартному хирургическому и консервативному лечению. В статье представлен клинический случай пациентки 9 лет с хроническим парапроктитом, рецидивирующими параректальными свищами. При обследовании установлено наличие двух параректальных свищей. По данным МРТ малого таза выявлено кистозное образование в ретроректальном пространстве. Ребенку четырежды проводилось вскрытие и дренирование пельвиоректального парапроктита. При госпитализации в «холодный» период проведено иссечение кистозного образования и параректальных свищей заднесагиттальным доступом. При гистологическом исследовании выявлено удвоение прямой кишки. Катамнез в течение 2 лет: осложнений и рецидивов не отмечено.

Ключевые слова: удвоение прямой кишки, дубликационная киста желудочно-кишечного тракта, перианальный свищ, парапроктит

Duplication of the rectum is a rare congenital malformation, one of the types of duplication cysts of the gastrointestinal tract. This malformation should be remembered if patients with a fistulous form of chronic paraproctitis resist standard surgical and conservative treatment. The article presents a clinical case of a 9-year-old patient with chronic paraproctitis and recurrent pararectal fistula. Examination revealed the presence of two pararectal fistulas. According to an MRI of the small pelvis, cystic formation in the retrorectal space was revealed. The child underwent incision and drainage of pelviorectal paraproctitis four times. During hospitalization in the «cold» period, cystic masses and pararectal fistulas were excised with a posterior approach excision. Histological examination revealed a doubling of the rectum. Follow-up for two years: no complications and relapses were noted.

Keywords: rectal duplication, duplication cyst of the gastrointestinal tract, perianal fistula, paraproctitis

Для цитирования: Джилавян М. Г., Киргизов И. В., Ефременков А. М., Шишкин И. А. КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ УДВОЕНИЯ ПРЯМОЙ КИШКИ С ФОРМИРОВАНИЕМ СВИЩЕВОЙ ФОРМЫ ХРОНИЧЕСКОГО ПАРАПРОКТИТА У РЕБЕНКА. *Медицинский вестник Северного Кавказа*. 2023;18(1):78-80. DOI – <https://doi.org/10.14300/mnnc.2023.18019>

For citation: Dzhilavyan M. G., Kirgizov I. V., Efremenkov A. M., Shishkin I. A. RECTAL DUPLICATION AS A CAUSE OF A FISTAL FORM OF CHRONIC PARAPROCTITIS IN A CHILD: REPORT OF A CASE. *Medical News of North Caucasus*. 2023;18(1):78-80. DOI – <https://doi.org/10.14300/mnnc.2023.18019> (In Russ.)

ЖКТ – желудочно-кишечный тракт
МРТ – магнитно-резонансная томография
МР-сигнал – сигнал от МРТ
ТЕМ – трансанальная эндоскопическая микрохирургия

УЗИ – ультразвуковое исследование
УЦ – условный циферблат
ЭГДС – эзофагогастродуоденоскопия

Дубликационные кисты желудочно-кишечного тракта представляют собой группу врожденных пороков развития, могут развиваться в любом месте вдоль кишечного тракта. Дубликационные кисты составляют 0,1–0,3 % всех врожденных пороков развития [1]. Среди них удвоение прямой кишки составляет 1–8 % [2]. Кистозные дубликации в 80 % случаев не связываются с просветом полого органа, к которому прилегают. Они содержат прозрачную слизистую массу, выделяемое слизистой оболочкой, иногда геморра-

гическое; расположены на антимезентериальной стороне и имеют общую стенку с кишечником, сообщаясь с его просветом. У большинства пациентов данная патология диагностируется в возрасте до 2 лет, причем более половины приходится на первые 6 месяцев жизни. В США было подсчитано, что почти 50 % кист бессимптомны и выявляются во время планового физикального осмотра и проведения УЗИ [3]. Возможны различные клинические проявления: боль в животе, тошнота, кровоизлияние, редко – кишечная инвагинация

или механическая окклюзия. При удвоении прямой кишки симптомы часто связаны с местной ректальной компрессией: запор, тенезмы, боль в нижней части живота, болезненная дефекация, выделение слизи/гноя из заднего прохода. Кистозные удвоения прямой кишки обычно проявляются различными осложнениями: местная инфекция (абсцесс с хроническим периаанальным свищом), обструкция толстой кишки, выпадение прямой кишки, полипы и ректальное кровотечение, возможно озлокачествление. Дифференцировать удвоение прямой кишки следует с ретро-ректальной кистозной гамартомой, с тератомой, дермоидной кистой, менингоцеле, с кистой и карциномой анальной железы [4]. Ректальные кисты можно отличить от остальных на основании гистологических данных: они в основном состоят из плоских клеток с гладкомышечным элементом, покрытым переходным эпителием. Могут быть обнаружены анальные протоки с апокриновой секрецией и инфильтрацией лимфоцитов [2].

Клиническое наблюдение.

Девочка 9 лет госпитализирована с жалобами на наличие свищей в периаанальной области. Из анамнеза заболевания: в июне 2017 г. впервые отмечена боль в промежности, нарастающая с течением времени. Диагностирован парапроктит. 13.06.2017 выполнено вскрытие и дренирование парапроктита на 4 часах по условному циферблату (УЦ), а 16.06.2017 увеличение объема на 6 часах УЦ с проведением вскрытия и дренированием пельвиоректального парапроктита. В феврале 2018 года отмечалось повышение температуры тела до 38 °С, умеренная гиперемия в области ануса. 18.02.2018 – повторное вскрытие и дренирование парапроктита на 4 часах по УЦ, удалено до 60–80 мл сливкообразного гноя (осмотрена промежность и задний проход, проведен ректальный осмотр на глубине пальца: выбухание левой стенки прямой кишки в просвет, резкое уплотнение вышеуказанного выбухания). На 6 часах по УЦ – два свищевых отверстия, располагающихся рядом, осмотрены зондом глубина до 4 см, отделяемого нет, явного сообщения с просветом кишки не выявлено. Бактериальный посев гноя: *Streptococcus viridians* умеренный рост, чувствительный к ампициллину, цефотаксиму, хлорамфениколу, эритромицину. 25.08.2019 – повышение температуры тела до 37,7 °С, выросла боль в периаанальной области. Повторно госпитализирована. По данным МР-томографии малого таза: по левой полуокружности прямой кишки, на 12–6 часах УЦ, распространяясь в седлищно-прямокишечную ямку, определяется неправильной формы полостная структура с неоднородным содержимым, признаками ограничения диффузии, общими аксиальными размерами 24x41 мм, сагиттальной протяженностью около 45 мм, приблизительным объемом около 120 мл с элементами капсулы – вероятно, абсцесс; левая стенка проксимальных отделов прямой кишки утолщена до 8–9 мм, отечна, дифференцируется; в среднеампулярном отделе стенка прямой кишки выражено инфильтрирована, утолщена, преимущественно по левой полуокружности со снижением дифференцировки границ; внутренняя запирающая мышца и левый леватор прямой кишки в прилежащих отделах инфильтрированы, отечны. Окружающая периаанальная клетчатка диффузно инфильтрирована, неравномерно уплотнена, в том числе за счет постоперационных изменений.

Имеются мелкие кистозные фрагменты на 6 часах условного циферблата, прилежащие к полости абсцесса. В проекции крестцово-остистой связки слева определяется дополнительная структура гиперинтенсивного МР-сигнала в T2-ВИ с ограничением диффузии размером 5x4 мм, возможно, микроабсцесс. Заключение: МР-картина пельвиоректального абсцесса слева с реактивными изменениями клетчатки полости

малого таза, прямой кишки, внутренней запирающей мышцы и мышцы, поднимающей задний проход. Тазовая лимфаденопатия. Минимальный выпот в полости малого таза (рис. 1).

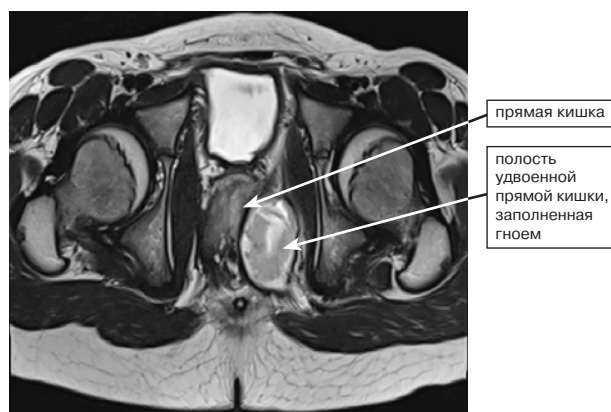


Рис. 1. МРТ органов малого таза

30.08.19 проведена сигмоскопия: слизистая не изменена. На осмотренных участках кишки просвет в соответствующих отделах характерной формы, гаустры выражены, складки сохранены, сосудистый рисунок не нарушен, отека и/или гиперемии слизистой нет. В прямой кишке в среднеампулярном отделе единичные очаги питехиальной слизистой до 0,5 см в диаметре. Заключение: органической патологии не выявлено.

При пальцевом исследовании на 3 часах определяется инфильтрат параректальной клетчатки, распространяющийся до области малого таза. Радиальным разрезом в периаанальной области произведено широкое вскрытие. Получено около 100 мл сливкообразного гноя с коли-бациллярным запахом. Полость промыта перекисью водорода, антисептиками, дренирована резиновым выпускником. Резиновый выпускник был удален на 3-и сутки.

В ноябре девочка была госпитализирована для проведения планового оперативного лечения. При осмотре периаанальной области: на 5 и 7 часах по условному циферблату имеются 2 свищевых отверстия. Данных за наличие гиперемии, отека и наличие патологического отделяемого не выявлено (рис. 2).

27.11.19 проведена операция: иссечение свищей заднесагиттальным доступом (в положении пациента на животе, срединно от копчика до ануса рассечена кожа, подкожно-жировая клетчатка, разведены правая и левая ножки прямокишечно-копчиковой мышцы, визуализирована задняя стенка прямой кишки, отсепарована по задней полуокружности (рис. 3). Оба свищевых устья



Рис. 2. Внешний вид промежности

взяты на держалки, в свищевые отверстия введен 1% раствора метиленового синего, свищи выделены на всем протяжении около 5 см проксимально, где они сливаются кзади от прямой кишки в одну общую полость, которая кзади в проксимальном направлении заканчивается слепо. Свищи вместе с полостью их сли-

яния иссечены. Связи с полостью прямой кишки не выявлено. Полость дренирована трубчатым дренажом через отдельный разрез, послойно ушита.

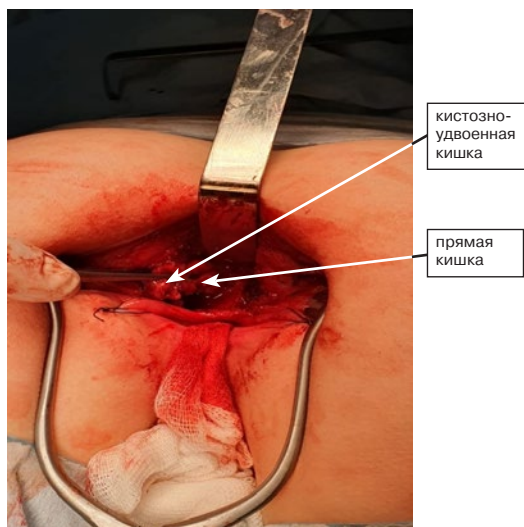


Рис. 3. Этап оперативного лечения: выделение участка кистозно-удвоенной кишки

По данным морфологического исследования (гистология № 22304 от 28.11.2019): в представленном материале иссеченная ткань представляет собой стенку прямой кишки с неравномерной атрофией слизистой оболочки; последняя местами практически отсутствует. Слизистая отчетная, полнокровная, с редкими железами, разлитыми кровоизлияниями, рассеянной преимущественно лимфоплазмоцитарной инфильтрацией. Представлены все слои стенки кишки с гипертрофией мышечного слоя. Прослежены ганглиозные клетки в виде цепочки, сохраняется интерстициальный отек. В окружающей жировой клетчатке полнокровие сосудов, воспалительная инфильтрация отсутствует, свежие кровоизлияния. В отдельных фрагментах гладкомышечная ткань.

Дренаж удален на 4-е сутки после операции. Ранний послеоперационный период протекал без особенностей. На 11-е послеоперационные сутки ребенок выписан под наблюдение хирурга по месту

жительства. Диагноз при выписке: удвоение прямой кишки, хронический парапроктит свищевая форма.

Катамнез ребенка прослежен в течение 2 лет. После выписки из стационара жалобы отсутствуют, стул регулярный, континенция кала полная, эпизодов парапроктита не отмечалось. На день выписки ребенка явлений воспаления в перианальной области не отмечено.

Хирургическое удаление является единственным радикальным методом лечения данных кист, обеспечивает нивелирование клинических проявлений, предотвращает осложнения со стороны кисты, включая перианальный сепсис, кровотечение и малигнизацию. Возможны различные доступы: трансанальный или транскокцигеальный [2, 4]. Ход операции зависит от расположения кисты и ее связи с соседними структурами. Трансанальное удаление может использоваться для кист, которые могут быть «вывернуты» в прямую кишку. Кисты, расположенные в средней части прямой кишки или тесно прилегающие к органам, находящимся рядом с прямой кишкой, лучше удалять через транскокцигеальный или задний сагиттальный доступ. В этом случае анальные сфинктеры сохраняются и разрез проводится до уровня ректальной дупликации кисты. Задний сагиттальный доступ чаще используется у детей, но также был описан для удаления кист у взрослых. Трансабдоминальный лапароскопический подход может быть использован, если кистозное удвоение прямой кишки имеет интраабдоминальный компонент. У подростков и взрослых пациентов в последнее время используется трансанальная эндоскопическая микрохирургия (ТЕМ). Данный метод делает возможным удаление более проксимальных кист, не имеющих признаков малигнизации [5].

Заключение. Дупликационные кисты желудочно-кишечного тракта – это редкие врожденные пороки развития, которые могут протекать бессимптомно в течение всей жизни или протекать с разнообразной клинической картиной. При наличии повторных, рецидивирующих свищей перианальной области следует провести более полное обследование пациента с целью исключения врожденных пороков развития.

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Литература/References

- Martini C., Pagano P., Perrone G., Bresciani P., Dell'Abate P. Intestinal duplications: incidentally ileum duplication cyst in young female. *BJR Case Rep.* 2019;5:20180077. <https://doi.org/10.1259/bjrcr.20180077>
- Cerioti M., Saccomani G., Lacelli F., Saccomani G. E. Wide rectal duplication cyst in an adult resected by anterior approach: efficacy and recurrence. *J. Surg. Case. Rep.* 2017;2017(6):115. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjx115>
- Kirgizov I. V., Minaev S. V. The ultrasonic way of the intraoperative assess of the resection volume of colon in children with chronic constipation. *Medical News of North Caucasus.* 2014;9(2):125-128. <https://doi.org/10.14300/mnnc.2014.09035>
- Anastasiadou S., Tekkis P., Kontovounisios C. An unusual rectal duplication cyst. *Surg. Case Rep.* 2019;5:75. <https://doi.org/10.1186/s40792-019-0631-8>
- Tang J., Zhang Y., Zhang D., Zhang C., Jin K. [et al.]. Total Mesorectal Excision vs. Transanal Endoscopic Microsurgery Followed by Radiotherapy for T2N0M0 Distal Rectal Cancer: A Multicenter Randomized Trial. *Front. Surg.* 2022;9:812343. <https://doi.org/10.3389/fsurg.2022.812343>

Поступила 21.03.2022

Сведения об авторах:

Джилаван Мане Гагиковна, кандидат медицинских наук, детский хирург; тел.: 89853134545; e-mail: drdzhilavyan@mail.ru

Киргизов Игорь Витальевич, доктор медицинских наук, профессор, научный руководитель по детской хирургии; тел.: (4955)300731; e-mail: drkirgizov@mail.ru

Ефременков Артем Михайлович, кандидат медицинских наук, заведующий детским хирургическим отделением; тел.: 89153001556; e-mail: efre mart@yandex.ru

Шिशкин Илья Александрович, кандидат медицинских наук, детский хирург; тел.: 89853454852; e-mail: i.a.shishkin@mail.ru