

ISSN 1560-9510 (Print)
ISSN 2412-0677 (Online)

Детская хирургия

Russian Journal
of Pediatric Surgery



5

Том 27 • 2023

Volume 27 • Issue 5 • 2023

ISSN 1560-9510



9 771560 951002



СОЮЗ МЕДИЦИНСКОГО СООБЩЕСТВА
«НАЦИОНАЛЬНАЯ МЕДИЦИНСКАЯ ПАЛАТА»



ОАО «ИЗДАТЕЛЬСТВО "МЕДИЦИНА"»



НАУЧНО-ПРАКТИЧЕСКИЙ РЕЦЕНЗИРУЕМЫЙ ЖУРНАЛ

Детская хирургия

Основан в 1997 году
Выходит один раз в 2 месяца

UNION OF THE MEDICAL COMMUNITY
"NATIONAL MEDICAL CHAMBER"
PUBLISHING HOUSE "MEDICINE"

SCIENTIFIC-PRACTICAL PEER REVIEWED JOURNAL

Detskaya Khirurgiya

Russian Journal of Pediatric Surgery

Since 1997
Published once every 2 months

Том 27
2023
Volume 27

5
Number

Журнал входит в рекомендованный Высшей аттестационной комиссией (ВАК) при Министерстве науки и высшего образования Российской Федерации Перечень рецензируемых научных изданий, в которых должны быть опубликованы основные научные результаты диссертаций на соискание учёной степени кандидата наук, на соискание учёной степени доктора наук по специальностям: 14.01.19 – Детская хирургия (медицинские науки), 14.01.20 – Анестезиология и реаниматология (медицинские науки), 14.01.23 – Урология (медицинские науки). Журнал включён в Russian Science Citation Index на базе Web of Science, представлен в международном информационно-справочном издании Ulrich's International Periodicals Directory.

The journal is included in the List of peer-reviewed scientific publications recommended by the Higher Attestation Commission under the Ministry of Science and Higher Education of the Russian Federation, in which the main scientific results of dissertations for the degree of Candidate of Sciences should be published, for the degree of Doctor of Sciences.

The Russian Journal of Pediatric Surgery is included in the Russian Science Citation Index based on the Web of Science, presented in the international information and reference publication Ulrich's International Periodicals Directory.

РЕДАКЦИОННАЯ КОЛЛЕГИЯ

РОШАЛЬ Леонид Михайлович, главный редактор
доктор медицинских наук, профессор, (Москва, Россия)

ШАРКОВ Сергей Михайлович, заместитель главного редактора
доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

КАРАСЕВА Ольга Витальевна, ответственный секретарь
доктор медицинских наук (Москва, Россия)

РАЗУМОВСКИЙ Александр Юрьевич, научный редактор
доктор медицинских наук, профессор, член-корреспондент РАН
(Москва, Россия)

АЛЕКСАНДРОВ А.Е., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

АМЧЕСЛАВСКИЙ В.Г., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

АФУКОВ И.И., кандидат медицинских наук, доцент (Москва, Россия)

БАИРОВ В.Г., доктор медицинских наук, профессор (Санкт-Петербург, Россия)

БЛАНДИНСКИЙ В.Ф., доктор медицинских наук, профессор (Ярославль, Россия)

ВЕЧЕРКИН В.А., доктор медицинских наук, профессор (Воронеж, Россия)

ВРУБЛЕВСКИЙ С.Г., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

ВЫБОРНОВ Д.Ю., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

ГУМЕРОВ А.А., доктор медицинских наук, профессор (Уфа, Россия)

ЗОРКИН С.Н., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

КОВАРСКИЙ С.Л., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

КОЗЛОВ Ю.А., доктор медицинских наук, профессор, член-корреспондент РАН
(Иркутск, Россия)

КУЧЕРОВ Ю.И., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

МИТИШ В.А., кандидат медицинских наук, доцент (Москва, Россия)

МОРОЗОВ Д.А., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

НАЛИВКИН А.Е., доктор медицинских наук (Москва, Россия)

НОВОЖИЛОВ В.А., доктор медицинских наук, профессор (Иркутск, Россия)

ОКУЛОВ А.Б., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

ПОДДУБНЫЙ И.В., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

ПОДКАМЕНЕВ А.В., доктор медицинских наук, профессор (Санкт-Петербург, Россия)

ПОЛЯЕВ Ю.А., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

ПОЛЯКОВ В.Г., доктор медицинских наук, профессор, академик РАН (Москва, Россия)

САФРОНОВ Б.Г., доктор медицинских наук, профессор (Иваново, Россия)

СТЕПАНЕНКО С.М., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

СОКОЛОВ Ю.Ю., доктор медицинских наук, профессор (Москва, Россия)

ТЕН Ю.В., доктор медицинских наук, профессор (Барнаул, Россия)

ТОЙЧУЕВ Р.М., доктор медицинских наук, профессор (Ош, Кыргызстан)

ЦАП Н.А., доктор медицинских наук, профессор (Екатеринбург, Россия)

ЧУПРОВА А.Ю., доктор юридических наук, профессор (Москва, Россия)

ШАМСИЕВ А.М., доктор медицинских наук, профессор (Самарканд,
Республика Узбекистан)

ЯЦЫК С.П., доктор медицинских наук, профессор, член-корреспондент РАН
(Москва, Россия)

Научно-практический рецензируемый журнал «ДЕТСКАЯ ХИРУРГИЯ»
Том 27, № 5, 2023

Выходит 6 раз в год.
Основан в 1997 г.

Журнал зарегистрирован Федеральной службой по надзору в сфере связи, информационных технологий и массовых коммуникаций.

Свидетельство о регистрации ПИ № ФС77-84477 от 26 декабря 2022 г.

Все права защищены.

Никакая часть издания не может быть воспроизведена без согласия редакции.

При перепечатке публикаций с согласия редакции ссылка на журнал «Детская хирургия» обязательна.

Ответственность за содержание рекламных материалов несут рекламодатели.

УЧРЕДИТЕЛИ

СМС «Национальная Медицинская Палата»
ОАО «Издательство "Медицина"»

ИЗДАТЕЛЬ

СМС «Национальная Медицинская Палата»
119180, г. Москва,
ул. Малая Якиманка, дом 22, стр. 2

РЕДАКЦИЯ

117296, г. Москва,
Ломоносовский проспект, дом 2/62

Заведующая редакцией

Валентина Ивановна Легонькова
Тел.: +7 915 205 95 44
E-mail: legonkova.v@yandex.ru

САЙТ ЖУРНАЛА:

<https://ps.elpub.ru>

ПОДПИСКА

на электронную версию журнала:
<https://www.ivis.ru>

ООО «ИВИС»

Тел.: +7 495 777 65 57

Факс: +7 499 232 68 81

E-mail: sales@ivis.ru

(абонентам доступны выпуски журнала с 2014 г.)

РЕКЛАМА

Тел.: +7 915 205 95 44

E-mail: legonkova.v@yandex.ru

Оригинал-макет

С.М. Мешкорудникова

Переводчик *А.А. Алексеева*

Техническое редактирование, вёрстка,
обработка графического материала

С.М. Мешкорудникова

ISSN 1560-9510 (Print)

ISSN 2412-0677 (Online)

Детская хирургия. 2023; 27(5). С. 317–396.

Сдано в набор 20.10.2023.

Подписано в печать 25.11.2023.

Опубликовано 30.11.2023.

Формат 60 × 88 1/8. Печать офсетная.

Печ. л. 10,0. Усл. печ. л. 9,5. Уч.-изд. л. 5,5.

Цена свободная.

© СМС «Национальная Медицинская Палата», 2023
© ОАО «Издательство "Медицина"», 2023

EDITORIAL BOARD

LEONID M. ROSHAL, Editor-in-Chief

MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

SERGEY M. SHARKOV, Assistant Editor-in-Chief

MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

OLGA V. KARASEVA, Editorial Secretary

MD, PhD, DSc (Moscow, Russian Federation)

ALEXANDER Yu. RAZUMOVSKIY, Scientific Editor

MD, PhD, DSc, Prof., Corresponding Member of the Russian Academy of Sciences (Moscow, Russian Federation)

ANDREY E. ALEKSANDROV, MD, PhD, DSc (Moscow, Russian Federation)

VALERY G. AMCHESLAVSKIY, MD, PhD, DSc (Moscow, Russian Federation)

IVAN I. AFUKOV, MD, PhD (Moscow, Russian Federation)

VLADIMIR G. BAIROV, MD, PhD, DSc, Prof. (St. Petersburg, Russian Federation)

VALERY F. BLANDINSKIY, MD, PhD, DSc, Prof. (Yaroslavl, Russian Federation)

VLADIMIR A. VECHERKIN, MD, PhD, DSc, Prof. (Voronezh, Russian Federation)

SERGEY G. VRUBLEVSKIY, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

DMITRIY Yu. VYBORNOV, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

AITBAY A. GUMEROV, MD, PhD, DSc, Prof. (Ufa, Russian Federation)

SERGEY N. ZORKIN, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

SEMYON L. KOVARSKIY, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

YURII A. KOZLOV, MD, PhD, DSc, Prof., Corresponding Member of the Russian Academy of Sciences (Irkutsk, Russian Federation)

YURII I. KUCHEROV, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

VALERY A. MITISH, MD, PhD (Moscow, Russian Federation)

DMITRIY A. MOROZOV, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

ALEXANDER E. NALIVKIN, MD, PhD, DSc (Moscow, Russian Federation)

VLADIMIR A. NOVOZHILOV, MD, PhD, DSc, Prof. (Irkutsk, Russian Federation)

ALEXEY B. OKULOV, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

IGOR V. PODDUBNY, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

ALEXEY V. PODKAMENEV, MD, PhD, DSc (St. Petersburg, Russian Federation)

YURII A. POLJAEV, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

VLADIMIR G. POLYAKOV, MD, PhD, DSc, Prof., Academician of the Russian Academy of Sciences (Moscow, Russian Federation)

BORIS G. SAFRONOV, MD, PhD, DSc, Prof. (Ivanovo, Russian Federation)

SERGEY M. STEPANENKO, MD, PhD, DSc (Moscow, Russian Federation)

YURII Yu. SOKOLOV, MD, PhD, DSc, Prof. (Moscow, Russian Federation)

YURII V. TEN, MD, PhD, DSc, Prof. (Barnaul, Russian Federation)

RAHMANBEK M. TOICHUEV, MD, PhD (Osh, Kyrgyzstan)

NATALIA A. TSAP, MD, PhD, DSc (Ekaterinburg, Russian Federation)

ANTONINA YU. CHUPROVA, Dr. Sc (Law), Prof. (Moscow, Russian Federation)

AZAMAT M. SHAMSIEV, MD, PhD, DSc, Prof. (Samarkand, Republic of Uzbekistan)

SERGEY P. YATSYK, MD, PhD, DSc, Prof., Corresponding Member of the Russian Academy of Sciences (Moscow, Russian Federation)

Scientific-Practical Peer Reviewed Journal
DETSKAYA KHIRURGIYA
(Russian Journal of Pediatric Surgery)
Volume 27, Number 5, 2023

6 times a year.
Founded in 1997.

The journal is registered with the Press Committee of the Russian Federation. Certificate of registration ПИ No. ФC77-84477 of December 26, 2022.

All rights reserved.

No part of the publication can be reproduced without the written consent of editorial office.

Any reprint of publications with consent of editorial office should obligatory contain the reference to the Russian Journal of Pediatric Surgery provided the work is properly cited.

The content of the advertisements is the advertiser's responsibility.

FOUNDERS

Union of the Medical Community
"National Medical Chamber".

Open Joint-Stock Company
"Publishing "Medicine".

PUBLISHER

Union of the Medical Community
"National Medical Chamber"
Malaya Yakimanka str., 22/2
Moscow, 119180, Russian Federation

EDITORIAL OFFICE

Lomonosovsky prospekt, 2/62
Moscow, 117296, Russian Federation

Head of the editorial office

Valentina I. Legonkova
Phone: +7 915 205 95 44
E-mail: legonkova.v@yandex.ru

THE JOURNAL'S WEBSITE:

<https://ps.elpub.ru>

SUBSCRIBE

to electronic journal version: <https://www.ivis.ru>

Limited Liability Company "IVIS"

Phone: +7 495 777 65 57

Fax: +7 499 232 68 81

E-mail: sales@ivis.ru

(subscribers will have access to issues of the magazine from 2014)

ADVERTISE

Phone: +7 915 205 95 44

E-mail: legonkova.v@yandex.ru

Translator: *A.A. Alekseeva*

Original layout, technical editing,
layout editor, processing of graphic material:
S.M. Meshkorudnikova

ISSN 1560-9510 (Print)

ISSN 2412-0677 (Online)

Russian Journal of Pediatric Surgery. 2023;
27(5). P. 317–396.

Put in a set: October 20, 2023

Signed to the press: November 25, 2023

Published: November 30, 2023

Format 60 × 88 1/8. Offset printing.

Printed sheet 10.0. Free price.

© Union of the Medical Community
"National Medical Chamber", 2023

© Open Joint-Stock Company "Publishing "Medicine", 2023

ОРИГИНАЛЬНЫЕ ИССЛЕДОВАНИЯ

- Карасева О.В., Голиков Д.Е., Харитонов А.Ю., Горелик А.Л., Тимофеева А.В., Фролов Е.А., Лукьянов В.И.* Обоснование консервативного лечения инвагинации кишок без учёта возраста ребёнка и срока заболевания. **321**
- Мелёхина О.В., Соколов Ю.Ю., Ефременков А.М., Солодина Е.Н., Зыкин А.П., Уткина Т.В., Барская К.А.* Чрескожная чреспеченочная холангиостомия у детей. **331**
- Чехова О.Г., Останина В.А., Шмаков А.Н.* Влияние проводниковой анестезии на систему гемостаза при ре-перфузионном синдроме конечности в детской травматологии-ортопедии. **338**

ОБЗОР

- Петрова А.Ф., Коварский С.Л., Петров А.В.* Сравнение резекционных и эндопиелотомических методов лечения рецидивирующей обструкции пиелoureтерального сегмента у детей: систематический обзор и мета-анализ **343**

КЛИНИЧЕСКАЯ ПРАКТИКА

- Петров Д.А., Щербакова О.В.* Поздняя диагностика болезни Гиршпрунга у девочки 17 лет. **353**
- Аксельров М.А., Разин М.П., Сергиенко Т.В., Сударева Д.И., Танзыбаев А.В.* Успешное торакоскопическое лечение двусторонней врожденной ложной диафрагмальной грыжи у новорожденного. **357**
- Козлов Ю.А., Полоян С.С., Марчук А.А., Рожанский А.П., Быргазов А.А., Ковальков К.А., Очиров Ч.Б., Капуллер В.М., Наркевич А.Н.* Лапароскопическое лечение гидронефроза у детей с подковообразной почкой: описание серии случаев. **361**
- Мустакимов Б.Х., Ростовцев Н.М.* Лечение спонтанного гемопневмоторакса у ребёнка 16 лет **367**
- Асадов Р.Н., Текоев А.Р., Туманян Л.Р., Индерейкин М.В., Врублевская Е.Н., Крапивкин А.И., Врублевский С.Г., Романов П.А., Прокопьев Г.Г., Сарафанова М.Е.* Хирургическое лечение множественных билатеральных абсцессов головного мозга и субдуральных эмпием у ребёнка 6 лет с гнойным риносинуситом **370**
- Бардеева К.А., Мишкин В.В., Писклаков А.В., Пономарев В.И., Павленко Н.И.* Хирургическое лечение новорожденного ребёнка с врожденной аплазией кожи волосистой части головы. **377**
- Окунев Н.А., Окунева А.И., Калабкин Н.А., Павкина А.Г.* Случай эмфизематозного остеомиелита в педиатрической практике. **383**
- Холостова В.В., Смирнов А.Н., Война С.А., Шумихин В.С., Горохова М.М.* Приобретённый ректо-перинеальный свищ в исходе лечения крестцово-копчиковой тератомы у новорожденного **390**

ORIGINAL RESEARCH

- Karaseva O.V., Golikov D.E., Kharitonova A.Yu. Gorelik A.L., Timofeeva A.V., Frolov E.A., Lukyanov V.I.* Justification of the conservative treatment of intestinal intussusception in children without age and disease duration considerations **321**
- Melekhina O.V., Sokolov Yu.Yu., Efremenkov A.M., Solodinina E.N., Zykin A.P., Utkina T.V., Barckaja K.A.* Percutaneous transhepatic cholangiostomy in children **331**
- Chekhova O.G., Ostanina V.A., Shmakov A.N.* The impact of conduction anesthesia at the hemostatic system in the limb reperfusion syndrome in pediatric traumatology-orthopedic practice **338**

REVIEW

- Petrova A.F., Kovarskiy S.L., Petrov A.V.* Comparison of resection and pyelotomic techniques for treating the recurrent pyeloureteral segment in children: A systematic review and meta-analysis **343**

CLINICAL PRACTICE

- Petrov D.A., Shcherbakova O.V.* Late diagnostics of Hirschsprung's disease in a 17-year-old girl: **353**
- Akselrov M.A., Razin M.P., Sergienko T.V., Sudareva D.I., Tanzybaev A.V.* A successful thoracoscopic treatment of bilateral congenital false diaphragmal hernia in a newborn **357**
- Kozlov Yu.A., Poloyan S.S., Marchuk A.A., Rozhanski A.P., Byrgazov A.A., Kovalkov K.A., Ochirov Ch.B., Kapuller V.M., Narkevich H.N.* Laparoscopic treatment of hydronephrosis in children with the horseshoe kidney: description of a case series **361**
- Mustakimov B.Kh., Rostovcev N.M.* Treatment of spontaneous hemopneumothorax in a 16-year-old child **367**
- Asadov R.N., Tekoyev A.R., Tumanyan L.R., Indereykin M.V., Vrublevskaya E.N., Krapivkin A.I., Vrublevskiy S.G., Romanov P.A., Prokopen G.G., Sarafanova M.E.* Surgical treatment of multiple bilateral brain abscesses and subdural empyas in a 6-year-old child with purulent rhinosinuitis **370**
- Bardeeva K.A., Mishkin V.V., Pisklavkov A.V., Ponomarev V.I., Pavlenko N.I.* Surgical treatment of a newborn child with congenital aplasia of the scalp **377**
- Okunev N.A., Okuneva A.I., Kalabkin N.A., Pavkina A.G.* A case of emphysematous osteomyelitis in the pediatric practice **383**
- Kholostova V.V., Smirnov A.N., Vojna S.A., Shumikhin V.S., Gorokhova M.M.* An acquired recto-perineal fistula as the outcome of sacrococcygeal teratoma treatment **390**

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-321-330>

Оригинальная статья

© Карасева О.В.^{1,2}, Голиков Д.Е.¹, Харитонов А.Ю.¹, Горелик А.Л.¹, Тимофеева А.В.¹, Фролов Е.А.¹, Лукьянов В.И.¹

Обоснование консервативного лечения инвагинации кишок без учёта возраста ребёнка и срока заболевания

ГБУЗ г. Москвы «Научно-исследовательский институт неотложной детской хирургии и травматологии» Департамента здравоохранения города Москвы, 119180, Москва, Российская Федерация;

²ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр здоровья детей» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 119296, Москва, Российская Федерация

Введение. С середины XX века у детей доминирует консервативное лечение илеоцекальной инвагинации (ИЦИ) кишок. Однако открытыми остаются вопросы выбора метода консервативного лечения и показаний к хирургическому лечению. Цель исследования – определить эффективность гидроэзоколоноскопии (ГЭК) при ИЦИ у детей при применении метода без учёта возраста ребёнка и длительности заболевания.

Материал и методы. В исследование были включены 160 детей с подтверждённым диагнозом ИЦИ. Всем детям с впервые возникшей неосложнённой ИЦИ, независимо от возраста ребёнка и срока заболевания, выполняли ГЭК. Безуспешность гидростатической дезинвагинации, как и рецидив заболевания после ГЭК, являлись показанием к хирургическому лечению (лапароскопия, колоноскопия, лапаротомия). Для оценки эффективности консервативного лечения в различных возрастных группах и при различных сроках заболевания мы провели два сравнительных исследования: 1) стратификация пациентов по возрасту: основная группа (n = 130) – дети старше 1 года, группа сравнения (n = 30) – дети младше 1 года; 2) стратификация пациентов по длительности заболевания: основная группа (n = 107) – срок заболевания более 12 ч, группа сравнения (n = 53) – срок заболевания до 12 ч. В исследованиях оценивали эффективность и осложнения ГЭК, частоту ранних рецидивов после ГЭК, а также причины неэффективности ГЭК и рецидивов после ГЭК, частоту и методы хирургического лечения ИЦИ.

Результаты. При стратификации пациентов по возрасту эффективность ГЭК составила 95,4% в основной группе и 93,3% в группе сравнения, p = 0,216. Ранние рецидивы возникли в 10,3% в основной группе и в 3,3% в группе сравнения, p = 0,128. При стратификации пациентов по сроку заболевания эффективность ГЭК составила 93,5% в основной группе и 98,1% в группе сравнения, p = 0,204. Ранние рецидивы возникли в 10,3% (11) в основной группе и в 11,3% (6) наблюдений в группе сравнения, p = 0,841. Осложнений при выполнении ГЭК не было. Основной причиной неэффективности консервативного лечения были анатомические причины (АП), рецидивов – лимфоидная гиперплазия брюшной полости и АП. Таким образом, ГЭК была эффективна в 95% наблюдений, рецидивы после ГЭК составили 10,6%. Хирургическое лечение (15,6%) начинали с лапароскопии, лапароскопическая дезинвагинация была эффективна в 68% наблюдений. Колоноскопия после успешной лапароскопической дезинвагинации была выполнена в 5,6%, конверсия на лапаротомию составила 5% от общего числа наблюдений.

Заключение. ГЭК является высокоэффективным и безопасным методом консервативного лечения ИЦИ у детей независимо от возраста и длительности заболевания. Показанием к хирургическому лечению при неосложнённой ИЦИ являются безуспешность гидростатической дезинвагинации и рецидивы заболевания.

Ключевые слова: дети, инвагинация кишок; кишечная инвагинация; илеоцекальная инвагинация; гидростатическая дезинвагинация; гидроэзоколоноскопия; ГЭК; дезинвагинация; анатомическая причина; рецидив; лапароскопическая дезинвагинация, колоноскопия

Соблюдение этических стандартов. Исследование одобрено локальным этическим комитетом ГБУЗ г. Москвы «Научно-исследовательский институт неотложной детской хирургии и травматологии» Департамента здравоохранения города Москвы (Протокол № 6 от 29.10.2018 г.) и проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Карасева О.В., Голиков Д.Е., Харитонов А.Ю., Горелик А.Л., Тимофеева А.В., Фролов Е.А., Лукьянов В.И. Обоснование консервативного лечения инвагинации кишок без учёта возраста ребёнка и срока заболевания. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 321-330. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-321-330>

Для корреспонденции: Голиков Денис Евгеньевич, научный сотрудник отделения сочетанной травмы, детский хирург ГБУЗ г. Москвы «НИИ неотложной детской хирургии и травматологии» ДЗМ, 119180, Москва. E-mail: den-izym@rambler.ru

Участие авторов: Карасева О.В. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста, редактирование; Голиков Д.Е. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста; Горелик А.Л., Харитонов А.Ю., Тимофеева А.В., Фролов Е.А. – сбор и обработка материала; Лукьянов В.И. – статистическая обработка. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 21 сентября 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

ORIGINAL RESEARCH

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-321-330>

Original article

© Karaseva O.V.^{1,2}, Golikov D.E.¹, Kharitonova A.Yu.¹, Gorelik A.L.¹, Timofeeva A.V.¹, Frolov E.A.¹, Lukyanov V.I.¹

Justification of the conservative treatment of intestinal intussusception in children without age and disease duration considerations

¹Clinical and Research Institute of Emergency Pediatric Surgery and Trauma, 119180 Moscow, Russian Federation;

²National Medical Research Center for Children's Health, 119296 Moscow, Russian Federation

Introduction. Since the middle of the last century, the conservative treatment of ileocecal intussusception (ICI) has dominated in children. However, questions on choosing a technique for conservative treatment and indications for surgical treatment remain open. **Purpose.** To assess the effectiveness of hydroecho colonoscopy (HEC) for ICI in children regardless of their age and disease duration. **Material and methods.** 160 children with confirmed ICI were enrolled in the study. All children, who had developed uncomplicated ICI for the first time, had HEC regardless of their age and disease duration. Failed hydrostatic disinvagination and disease relapse after HEC were indications for surgical management (laparoscopy, colonoscopy, laparotomy). To evaluate the effectiveness of conservative treatment at different age groups and at different terms of disease duration, two comparable trials were performed: 1 – stratification of patients by age: main group (n=130) – children older than one year, comparison group (n=30) – children younger than one year; 2 – stratification of patients by disease duration: main group (n=107) – more than 12 hours, comparison group (n=53) – up to 12 hours. To assess outcomes, the following parameters were analyzed: HEC effectiveness and complications, incidence of early relapses after HEC, causes of HEC failure and relapses after HEC, frequency and surgical techniques applied for treating ICI.

Results. In the groups stratified by age, HEC effectiveness was 95.4% in the main group and 93.3% in the comparison group, $p=0.216$. Early relapses occurred in 10.3% in the main group and in 3.3% in the comparison group, $p=0.128$. In the groups stratified by the disease duration, HEC effectiveness was 93.5% in the main group and 98.1% in the comparison group, $p=0.204$. Early relapses occurred in 10.3% (11) in the main group and in 11.3% (6) of cases in the comparison group, $p=0.841$. There were no any complications during HEC procedure. Basic reasons for the conservative treatment failure were anatomical ones; for relapses – lymphoid hyperplasia of the abdominal cavity and anatomical reasons. Thus, HEC was effective in 95% of cases; relapses after HEC amounted up to 10.6%. Surgical interventions (in 15.6%) were started with laparoscopy; laparoscopic disinvagination was effective in 68% of cases. Colonoscopy after successful laparoscopic disinvagination was performed in 5.6%, conversion to laparotomy was in 5% of the total number of observations.

Conclusion. HEC is a highly effective and safe option for HEC conservative management in children regardless of child's age and disease duration. Indications for surgical treatment for uncomplicated ICI are hydrostatic disinvagination failure and disease relapse.

Key words: children; intestinal intussusception; ileocecal intussusception; hydrostatic disinvagination; hydroecho colonoscopy; HEC; disinvagination; anatomical cause; relapse; laparoscopic disinvagination; colonoscopy; relapse

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Karaseva O.V., Golikov D.E., Kharitonova A.Yu., Gorelik A.L., Timofeeva A.V., Frolov E.A., Lukyanov V.I. Justification of the conservative treatment of intestinal intussusception in children without age and diseases duration considerations. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 321-330. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-321-330> (In Russian)

For correspondence: Denis E. Golikov, researcher, department of combined trauma, Clinical and Research Institute of Emergency Pediatric Surgery and Trauma, 119180 Moscow, Russian Federation. E-mail: den-izym@rambler.ru

Information about authors:

Karaseva O.V., <https://orcid.org/0000-0001-9418-4418>

Golikov D.E., <https://orcid.org/0000-0001-5982-5494>

Kharitonova A.Yu., <https://orcid.org/0000-0001-6218-3605>

Gorelik A.L., <https://orcid.org/0000-0003-1746-8446>

Timofeeva A.V., <https://orcid.org/0000-0002-6940-4535>

Frolov E.A., <https://orcid.org/0000-0003-1561-5510>

Lukyanov V.I., <https://orcid.org/0000-0003-1489-2719>

Author contribution: Karaseva O.V. – study concept and design, material collection and processing, text writing, editing; Golikov D.E. – study concept and design, material collection and processing, text writing; Gorelik A.L., Kharitonova A.Yu., Timofeeva A.V., Frolov E.A. – material collection and processing; Lukyanov V.I. – statistical processing. All co-authors – approval of the final version of the article and the responsibility for the integrity of all parts of the article.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: September 21, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

История лечения кишечной инвагинации началась за несколько веков до наших дней. Первое описание заболевания относится к XVII веку. Учёный из Амстердама Paul Barbette в 1674 г. выделил инвагинацию в отдельную форму кишечной непроходимости и высказался в пользу хирургического лечения заболевания: «прежде чем больной с инвагинацией умрёт, разрезать брюшные мышцы и извлечь инвагинат пальцами» [1]. Первое подробное описание заболевания дал J. Hunter в 1793 г. [2]. Первую успешную операцию по поводу кишечной инвагинации в 1784 г. выполнил британский хирург А. Nuck 50-летнему мужчине [3] и только в 1871 г. J. Hutchinson успешно прооперировал двухлетнего ребёнка [4].

Несмотря на публикации об успешном хирургическом лечении инвагинации кишок (ИК), в XVIII–XIX вв. превалировала выжидательная тактика, а летальность составляла около 90% [5, 6]. Идею об использовании воздуха, введённого в прямую кишку, для механического расправления инвагинации впервые высказал J. Hunter. Первую успешную пневмостатическую дезинвагинацию у ребёнка выполнил S. Mitchell (Англия) в 1836 г. [5]. В 1876 г. датский педиатр Н. Hirschsprung опубликовал работу о применении с положительным эффектом клизмы с одновременной пальпацией живота, что привело к снижению летальности до 35% [7], что и однозначно являлось прорывом в лечении заболевания. В 1905 г. он опубликовал отчёт о 107 пациентах, причём в серии из 84 случаев, где он применял только клизму, летальность составила 23% [8]. В 1913 г. W.E. Ladd впервые опубликовал рентгенологическое контрастное изображение инвагината [9]. После выхода работы известного американского детского хирурга М. Ravich в 1948 г. методика гидростатической дезинвагинации с использованием бариевой взвеси под рентгенологическим контролем на многие годы стала «золотым» стандартом в лечении илеоцекальной инвагинации (ИЦИ) у детей во многих странах [3].

В отечественной литературе сообщения об инвагинации кишок, как самостоятельном виде кишечной непроходимости, появились в 30-х гг. XX века. Значительным вкладом в развитие учения о кишечном внедрении стало издание в 1935 г. руководства Н.В. Шварца «Хирургия детского возраста», где инвагинация кишок выделена в отдельную главу [10]. Г.Я. Дорон в 1937 г. на съезде украинских хирургов сообщил о 19 детях с кишечным внедрением, которых он наблюдал в течение 13 лет [11].

С развитием анестезиологии хирургическое лечение ИК находило всё больше сторонников. Врачи, склонявшиеся к хирургическому методу лечения, аргументировали это тем, что при применении консервативных методов можно перфорировать кишку или не полностью расправить инвагинацию. Во второй половине XX в. в нашей стране сформировались подходы к диагностике и лечению ИК у детей. Основным методом диагностики и одновременно консервативного лечения ИЦИ стала дезинвагинация воздухом под рентгеноскопическим контролем – пневмоирригоскопия [12–14]. Модификации метода были детально разработаны В.М. Портным (1962) [15] и Л.М. Рощалем (1964) [16]. Авторами были описаны показания, техника выполнения и самое главное – экспериментально рассчитано безопасное давление для предотвращения баротравмы кишки. При сроке заболевания более 12 ч и возрасте ребёнка старше 1 года выполняли лапаротомию [13, 14]. Позднее лапароскопическая дезинвагинация заменила лапаротомию в большинстве случаев хирургического лечения [17–24].

Широкое использование ультразвукового исследования (УЗИ) в наше время внесло кардинальные изменения в диагностику и лечение ИК [25–28]. В 1988 г. китайскими учёными G.D. Wang и S.I. Lin была опубликована работа об успешном применении гидростатической дезинвагинации под УЗ-контролем у 377 пациентов [29]. Однако вопросы выбора метода консервативного лечения и показаний к хирургическому лечению остаются открытыми и сегодня [30–33]. Несмотря на отсутствие лучевой нагрузки, гидростатическую дезинвагинацию в нашей стране используют только отдельные клиники [34–36], тогда как метод доказал свою высокую эффективность и получил высокую популярность в странах Европы, Азии и Северной Америки [37–39]. Клиническая практика и публикации последних лет показали эффективность консервативных методов лечения у детей старше 1 года, а возможность цветового доплеровского картирования (ЦДК) при УЗИ позволяет пренебречь сроками заболевания для определения показаний к хирургическому лечению [33, 39, 40].

До 2007 г. в нашу клинику госпитализировали детей старше 2 лет, и основным методом лечения ИЦИ была лапароскопическая дезинвагинация согласно рекомендациям о хирургическом лечении ИЦИ у детей старше 1 года. Накопленный нами многолетний опыт и проведённый анализ показали частоту анатомических причин ИЦИ в группе детей старше 1 года не более 6% [34], что сопоставимо с успешностью консервативного лечения, по данным литературы [39–43]. Длительность заболевания у большинства детей превышала 12 ч, однако с некрозом кишки мы сталкивались крайне редко. После введения в строй нового хирургического корпуса и отмены возрастных ограничений для госпитализации детей в клинику, нами было принято решение о переходе на консервативное лечение, как на основной метод, и проведении ретроспективно-проспективного клинического исследования по оптимизации лечебно-диагностического алгоритма при ИЦИ. Как метод консервативного лечения была выбрана гидростатическая дезинвагинация под УЗ-контролем. Исследование было одобрено локальным этическим комитетом ГБУЗ «НИИ НДХиТ ДЗМ» (Протокол № 6 от 29.10.2018 г.). Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Цель исследования – определить эффективность гидростоколоноскопии при ИЦИ у детей при применении метода без учета возраста ребенка и длительности заболевания.

Материал и методы

В исследование вошли 160 детей с подтверждённым диагнозом ИЦИ, получавших лечение в ГБУЗ г. Москвы «Научно-исследовательский институт неотложной детской хирургии и травматологии» ДЗМ (НИИ НДХиТ) с 2011 по 2022 гг. Мальчики преобладали – 108 (67,5%), девочек было 52 (32,5%), средний возраст детей – $2,9 \pm 2,02$ года, дети старше 1 года составили 81,2% (130), младше 1 года – 18,8% (30). Всем детям при впервые возникшей ИЦИ и отсутствии клинико-лабораторной картины перитонита лечение начинали с гидростоколоноскопии.

Методика гидростоколоноскопии (ГЭК) [34]: ГЭК проводили в условиях операционной под общей многокомпонентной анестезией, что при необходимости обеспечивало возможность незамедлительного перехода на лапароскопию (рис. 1). При помощи катетера Фолея (18–22 Fr), введённого в прямую кишку, после раздува-



Рис. 1. Проведение процедуры ГЭК в операционной.
Fig. 1. HES procedure done in the surgical room.

ния баллона (10–15 мл) вводили изотоническую жидкость (0,9% раствор NaCl) в объёме до 1000 мл под постоянным давлением 80–100 см вод. ст. Продвижение жидкости контролировали УЗИ. Критерием успешной дезинвагинации являлось визуальное расправление инвагинации, попадание жидкости в терминальные отделы тонкой кишки и появление симптома «сот» (рис. 2). Проводили 3 попытки гидростатической дезинвагинации с интервалом 10–15 мин и при отсутствии расправления инвагината переходили на лапароскопию.

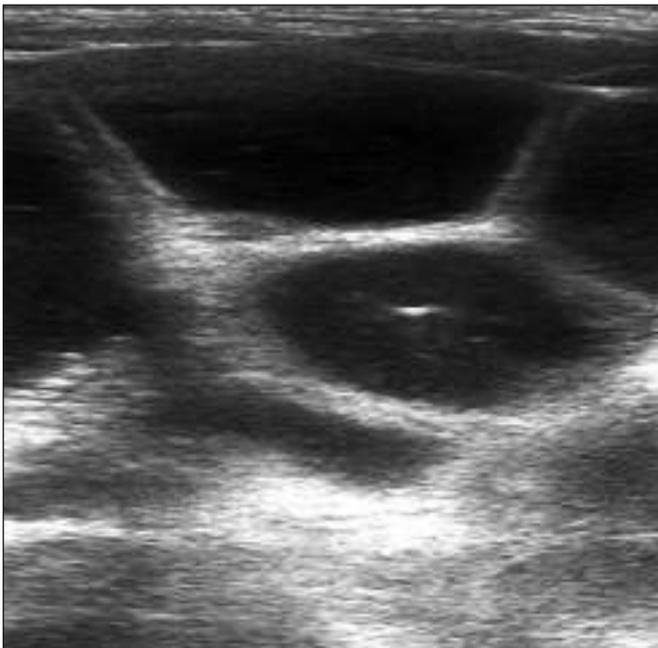


Рис. 2. УЗИ: симптом «сот» – жидкость в петлях тонкой кишки.
Fig. 2. Ultrasound examination: "honeycomb" symptom – fluid in small intestine loops.

Таблица 1 / Table 1

Характеристика групп исследования (стратификация по возрасту)

Characteristics of study groups (stratification by age)

Показатель	Основная группа старше 1 года <i>n</i> = 130	Группа сравнения младше 1 года <i>n</i> = 30	<i>p</i>
Девочки, абс. (%)	42 (32,2)	9 (32,3)	0,807
Форма (ИЦИ), абс. (%)	130 (100)	30 (100)	1,0
Время (часы), <i>M</i> ± <i>m</i>	16,7 ± 25,3	15,9 ± 24,7	0,982
Температура тела, <i>M</i> ± <i>m</i>	37,1 ± 0,62	36,9 ± 0,57	0,812
Лейкоциты (•10 ⁹ /л), <i>M</i> ± <i>m</i>	10,7 ± 4,81	10,2 ± 4,37	0,939

Примечание. Здесь и в табл. 2: *p* > 0,05 по критерию χ^2 и *t*-критерию Стьюдента.

При эффективно проведённой лапароскопической дезинвагинации (ЛД) и отсутствии интраабдоминальных АП для исключения внутрипросветных АП в послеоперационном периоде выполняли колоноскопию. При неэффективности ЛД переходили на лапаротомию.

Основной задачей нашего исследования было опровергнуть положение, которое много лет господствовало в научном сообществе и существует по сей день: при длительности заболевания более 12 ч и возрасте ребёнка старше 1 года показано хирургическое лечение. Аргументы в пользу хирургического лечения понятны: 1) если анамнез заболевания более 12 ч, то нарушение кровообращения может привести к некрозу кишечной стенки; 2) у детей старше 1 года основной причиной ИЦИ является анатомическая причина [12–14]. Данные литературы последних лет [32, 33] и собственный опыт [34] позволили нам усомниться в этих положениях. Для обоснования расширения показаний к консервативному лечению мы выполнили два сравнительных исследования по оценке эффективности ГЭК. Группы исследования формировали путём стратификации пациентов по возрасту и сроку заболевания. В исследованиях оценивали эффективность и осложнения ГЭК, частоту ранних рецидивов после ГЭК, а также причины неэффективности ГЭК и рецидивов после ГЭК, частоту и методы хирургического лечения ИЦИ.

Исследование 1. Изучение эффективности ГЭК при ИЦИ у детей разных возрастных групп:

- Основная группа (*n* = 130) – дети старше 1 года.
- Группа сравнения (*n* = 30) – дети младше 1 года.

Характеристика групп исследования 1 представлена в табл. 1. По полу, форме, тяжести и сроку заболевания группы не имели различий.

Исследование 2. Изучение эффективности ГЭК при ИЦИ у детей в зависимости от длительности заболевания:

- Основная группа (*n* = 107) – срок заболевания более 12 ч.
- Группа сравнения (*n* = 53) – срок заболевания менее 12 ч.

Характеристика групп исследования 2 представлена в табл. 2. По полу и возрасту детей, а также форме и тяжести заболевания группы не имели различий.

Анатомические причины при инвагинации кишок играют роль лидирующей точки внедрения (lead point). Мы разделили анатомические причины на первичные и вторичные. К первичным относили врождённые пороки развития (дивертикул Меккеля, энтерокиста и др.) и новообразования (лимфома Беркитта, ювенильный полип и др.), к вто-

Таблица 2 / Table 2

Характеристика групп исследования (стратификация по сроку заболевания)

Characteristics of study groups (stratification by disease duration)

Число наблюдений	Основная группа более 12 ч n = 107	Группа сравнения до 12 ч n = 53	p
Мальчики, абс. (%)	71 (66,3)	35 (66)	0,969
Девочки, абс. (%)	36 (33,7)	18 (34)	0,969
Форма (ИЦИ), абс. (%)	107 (100)	53 (100)	1,000
Возраст (годы), M ± m	2,8 ± 2,03	2,9 ± 2,02	0,972
Температура тела (°C), M ± m	37,0 ± 0,41	36,9 ± 0,38	0,858
Лейкоциты (•10 ⁹ /л), M ± m	10,5 ± 4,53	10,3 ± 4,39	0,962

ричным – воспалительные изменения илеоцекального угла, когда воспалительный процесс в нормальных анатомических структурах приводил к формированию объёмных образований, выполняющих роль "lead point" (гиперплазия Пейеровых бляшек, гиперплазия мезентериальных лимфатических узлов).

Дополнительно для оценки основных причин и прогноза неэффективности ГЭК мы провели логистический регрессионный анализ, где зависимой переменной являлась ГЭК, а за факторы, которые коррелируют с её неэффективностью и рецидивами заболевания, были взяты пол, возраст, срок заболевания больше 12 ч, кровь в стуле, анатомическая причина и лимфоидная гиперплазия.

Статистическую обработку данных выполняли при помощи программ Statistica 10,0 (StatSoft, США), StatTech (ООО «Статтех», Россия). Использовали вычислительные и графические возможности программ Microsoft Office.

Результаты

При стратификации пациентов *по возрасту* в основной группе (старше 1 года) эффективность ГЭК составила 95,4% (124), в группе сравнения (младше 1 года) – 93,3% (28), p = 0,216. Таким образом, ГЭК имела высокую эффективность, как у детей грудного возраста, так и у детей старше 1 года.

В группе «старше 1 года» инвагинацию гидростатически не удалось расправить у 6 (4,6%) детей, в группе «младше 1 года» – у 2 (6,7%). Во всех наблюдениях была выполнена лапароскопия. В 4 наблюдениях в группе «старше 1 года» и в 2 – в группе «младше 1 года» лапароскопическую дезинвагинацию выполнить не удалось, что потребовало перехода на лапаротомию. Во всех наблюдениях была выполнена ручная дезинвагинация и обнаружена анатомическая причина кишечного внедрения: дивертикул Меккеля – у 3, гиперплазия Пейеровой бляшки – у 3. В 2 наблюдениях была выполнена дивертикулэктомия, в 3 – резекция илеоцекального угла с наложением тонко-толстокишечного анастомоза конец-в-бок; в одном – резекция подвздошной кишки с наложением тонко-тонкокишечного анастомоза. В 2 наблюдениях в основной группе лапароскопическая дезинвагинация оказалась эффективна, причём в одном была диагностирована протяжённая подвздошно-ободочная инвагинация, в другом – в инвагинате был ущемлён лимфатический узел, который препятствовал консервативной дезинвагинации.

Рецидивы после ГЭК возникли в 12,3% (16) наблюдений в основной группе и в 3,3% (1) в группе сравнения, p = 0,151. Основной причиной ранних рецидивов после

Таблица 3 / Table 3

Причины неэффективности ГЭК и рецидивов ИЦИ у детей разных возрастных групп, абс. (%)

Reasons for HEC ineffectiveness and ICI recurrence in children of different age groups, abs. (%)

Причина	Основная группа старше 1 года n = 130	Группа сравнения младше 1 года n = 30	Всего	p
<i>Гидростатическая дезинвагинация неэффективна (n = 8; 5,0%)</i>				
Дивертикул Меккеля	3 (2,3)	0	3 (1,9)	0,401
Пейерова бляшка	1 (0,8)	2 (6,7)	3 (1,9)	0,032
Лимфатический узел	1 (0,8)	0	1 (0,6)	0,630
Терминальный илеит + мезаденит	1 (0,8)	0	1 (0,6)	0,630
Всего,	6 (4,6)	2 (6,7)	8 (5,0)	0,643
из них некроз кишки	2 (1,5)	2 (3,3)	4 (2,5)	0,105
<i>Рецидив ИЦИ (n = 17; 10,6%)</i>				
Лимфома Беркитта	2 (1,5)	0	2 (1,25)	0,495
Ювенильный полип	1 (0,8)	1 (3,3)	2 (1,25)	0,255
Пейерова бляшка	1 (0,8)	0	1 (0,6)	0,630
Терминальный илеит + мезаденит	12 (9,2)	0	12 (7,5)	0,084
Всего,	16 (12,3)	1 (3,3)	17 (10,6)	0,151
из них некроз кишки	1 (0,8)	1 (3,3)	2 (1,25)	0,255
Всего,	22 (16,9)	3 (10,0)	25 (15,6)	0,347
из них АП	9 (6,9)	3 (10,0)	12 (7,5)	0,565
первичные	6 (4,6)	1 (3,3)	7 (4,4)	0,734
вторичные	3 (2,3)	2 (6,7)	5 (3,1)	0,217

Примечание. p > 0,05 по критерию χ².

ГЭК являлась лимфоидная гиперплазия (12; 70,6%) в виде терминального илеита и мезаденита. Однако в 5 (29,4%) наблюдениях имела место анатомическая причина, требующая хирургического или специального лечения, что однозначно подтверждает необходимость последовательного выполнения лапароскопии и колоноскопии при возникновении рецидива заболевания. В основной группе наиболее часто рецидивы возникали на фоне неспецифического мезаденита и терминального илеита (12; 9,2%), лимфома Беркитта была диагностирована в 1,5% (2) наблюдений, ювенильный полип – в 0,8% (1), гиперплазия Пейеровой бляшки – в 0,8% (1). В группе детей младше 1 года рецидив ИЦИ возник на фоне ювенильного полипа слепой кишки (1; 3,3%). Причины неэффективности ГЭК и рецидивов ИЦИ в разных возрастных группах представлены в табл. 3.

При стратификации пациентов *по длительности заболевания* в основной группе (срок заболевания более 12 ч) эффективность гидростатической дезинвагинации составила 93,5% (100), в группе сравнения (срок заболевания менее 12 ч) – 98,1 % (52), p = 0,204. При длительности заболевания более 12 ч инвагинацию не удалось расправить в 6,5% (7) наблюдений. Во всех наблюдениях была выполнена лапароскопия. Лапароскопическая дезинвагинация была эффективна только в 1 (0,9%) случае при неспецифическом мезадените, когда гиперплазированный лимфатический узел препятствовал консервативной дезинвагинации. В 6 (5,6%) наблюдениях потребовалась конверсия. Во всех наблюдениях при лапаротомии была установлена анатомическая причина, выполняющая роль

Таблица 4 / Table 4

Причины неэффективности ГЭК и рецидивов ИЦИ у детей при разном сроке заболевания, абс. (%)
Reasons for HEC ineffectiveness and ICI recurrence in children at different disease terms, abs. (%)

Причина	Основная группа (более 12 ч) n = 107	Группа сравнения (менее 12 ч) n = 53	Всего	p
<i>Гидростатическая дезинвагинация неэффективна (n = 8; 5,0%)</i>				
Дивертикул Меккеля	3 (2,8)	0	3 (1,9)	0,219
Пейерова бляшка	3 (2,8)	0	3 (1,9)	0,219
Лимфатический узел	1 (0,9)	0	1 (0,6)	0,481
Терминальный илеит + мезаденит	0	1 (1,9)	1 (0,6)	0,155
Всего,	7 (6,5)	1 (1,9)	8 (5,0)	0,204
из них некроз кишки	4 (3,7)	0	4 (2,5)	0,155
<i>Рецидив ИЦИ (n = 17; 10,6%)</i>				
Лимфома Беркитта	2 (1,9)	0	2 (1,25)	0,317
Пейерова бляшка	0	1 (1,9)	1 (0,6)	0,155
Ювенильный полип	2 (1,9)	0	2 (1,25)	0,317
Терминальный илеит + мезаденит	7 (6,5)	5 (9,4)	12 (7,5)	0,514
Всего,	11 (10,3)	6 (11,3)	17 (10,6)	0,841
из них некроз кишки	1 (0,9)	1 (1,9)	2 (1,15)	0,610
<i>Анатомические причины (n = 12; 7,5%)</i>				
Из них АП	11 (10,3)	1 (1,9)	12 (7,5)	0,058
первичные	7 (6,5)	0	7 (4,4)	0,057
вторичные,	4 (3,7)	1 (1,9)	5 (3,1)	0,527
из них некроз кишки	5 (4,7)	1 (1,9)	6 (3,75)	0,383

лидирующей точки внедрения: дивертикул Меккеля – у 3; гиперплазия Пейеровой бляшки – у 3. В 3 случаях была выполнена резекция илеоцекального угла с наложением тонко-толстокишечного анастомоза, в одном – резекция подвздошной кишки в связи с некрозом внутреннего цилиндра инвагинации, в 2 – дивертикулэктомия.

Рецидивы после ГЭК в основной группе составили 10,3% (11) в группе детей со сроком заболевания менее 12 ч – 11,3% (6), p = 0,841. Некроз кишки был диагностирован у 1 (0,9%) ребёнка в основной группе и у 1 (1,9%) – в группе детей со сроком заболевания менее 12 ч,

Таблица 5 / Table 5

Влияние факторов риска на эффективность консервативного лечения ИЦИ
Risk factor impacts at the effectiveness of ICI conservative treatment

Фактор	Переменная	p
Const. B0	Постоянная составляющая	p = 0,0006; p < 0,05
Анатомическая причина	F27	p = 0,0002; p < 0,001
Мезаденит	F28	p = 0,066; p > 0,05
Кровь в стуле	F17	p = 0,736; p > 0,05
Время	F10a	p = 0,4872; p > 0,05
Пол	F6	p = 0,739; p > 0,05
Возраст	F5	p = 0,9049; p > 0,05

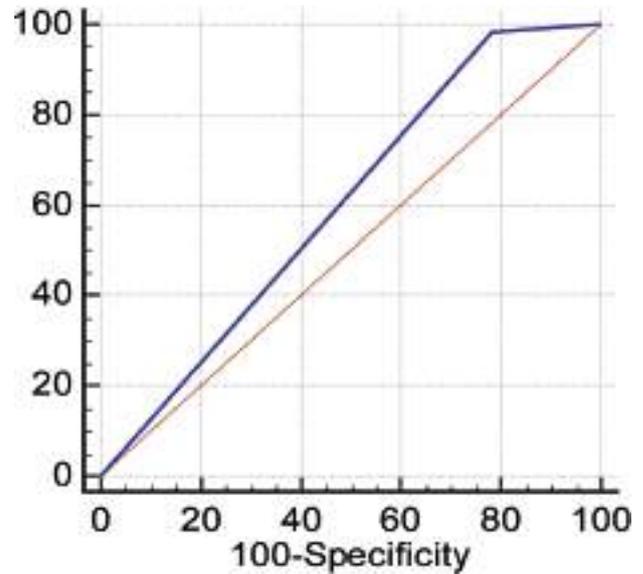


Рис. 3. ROC кривая для анатомической причины.
Fig. 3. ROC curve for anatomical causes.

p = 0,610. В этих наблюдениях была выполнена лапаротомия, резекция кишки с наложением кишечного анастомоза. В остальных наблюдениях была выполнена лапароскопическая дезинвагинация. При успешной ЛД и отсутствии внутрибрюшных анатомических причин всем детям была выполнена колоноскопия, при которой у одного ребёнка был диагностирован и удалён ювенильный полип, у двоих диагностирована лимфома Беркитта. Основными причинами рецидивов в группах сравнения были неспецифический мезаденит и анатомические причины. Эффективность ГЭК и рецидивы при ИЦИ в группах с разным сроком заболевания представлена в табл. 4.

Дополнительно нами был проведён логистический регрессионный анализ, где зависимой переменной являлась ГЭК, а за основные факторы, которые могли бы коррелировать с ней и прогнозировать её неэффективность и рецидивы после ГЭК были взяты пол, возраст, анатомическая причина, время заболевания больше 12 ч, кровь в стуле, мезентериальный лимфаденит. Анализ проводился по формуле:

$$F(Z) = \frac{1}{1 + e^{-Z}}$$

где Z = a1•F5+a2•F6+a3•F10a+a4•F17+a5•F27+a6•F28+B0 представляет уравнение из независимых переменных и постоянной составляющей – B0. В нашем случае Z = 0.0644•F5+1.0207•F6+0.3209•F10a+0.9884•F17+3.406•F27+0.1923•F28–2.7563

Ранжированные значения переменных по степени влияния на неэффективность ГЭК и рецидивы ИЦИ представлены в табл. 5.

Полученные результаты анализа показывают, что основной причиной неэффективности ГЭК и рецидивов ИЦИ является анатомическая причина (p = 0,0002). ROC-кривая, где площадь под кривой 0,731, стандартная ошибка 0,051 и надёжность результата, то есть p = 0,0223 (p < 0,05), показывают нам, что неэффективность ГЭК и рецидивы заболевания напрямую зависят от наличия анатомической причины (рис. 3). Ни возраст пациента, ни срок заболевания не оказывают значимого влияния.

Наиболее близкий к анатомической причине результат, но демонстрирующий гораздо более слабую связь, был получен для такого фактора, как мезаденит (p = 0,06), что

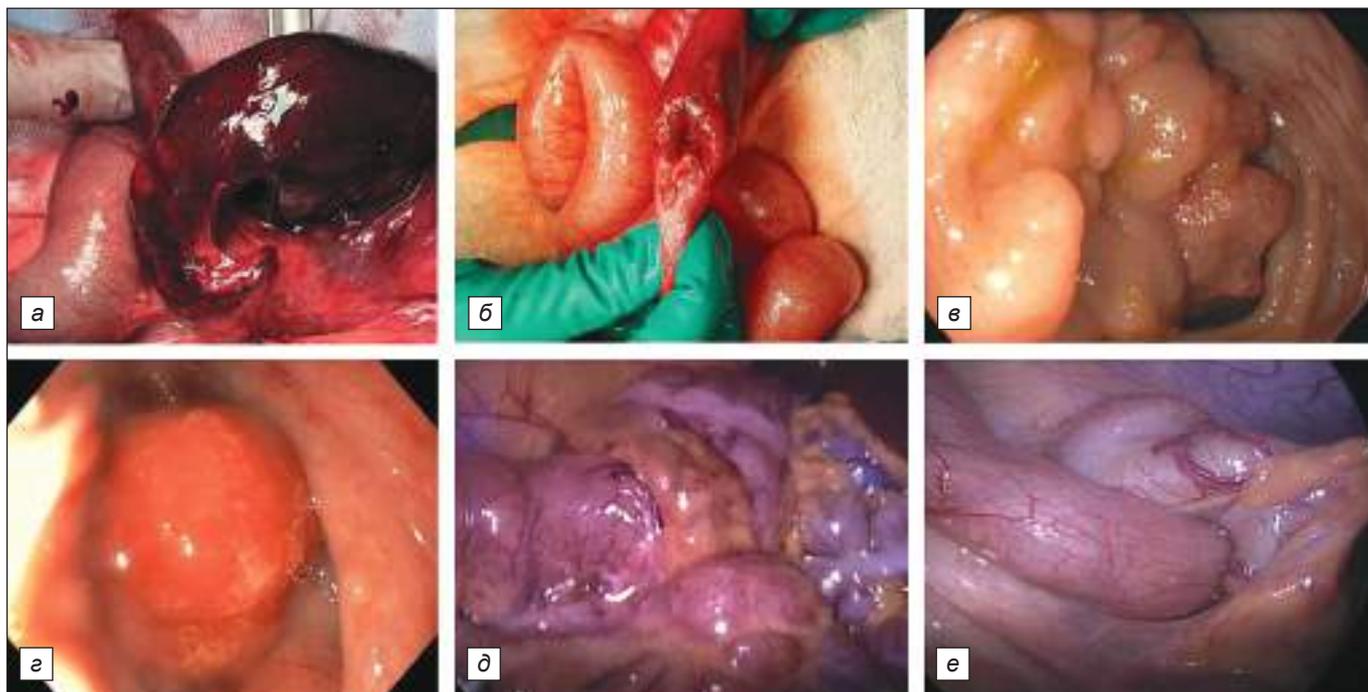


Рис. 4. Основные причины неэффективности ГЭК и рецидивов ИЦИ: *а* – дивертикул Меккеля; *б* – Пейерова бляшка; *в* – лимфома Беркитта (колоноскопия); *г* – ювенильный полип (колоноскопия); *д* – мезаденит (лапароскопия); *е* – терминальный илеит (лапароскопия).

Fig. 4. Basic reasons for HEC inefficiency and ICI recurrence : *a* – Meckel’s diverticulum; *б* – Peyer’s plaque; *в* – Burkitt’s lymphoma (colonoscopy); *г* – juvenile polyp (colonoscopy); *д* – mesadenitis (laparoscopy); *е* – terminal ileitis (laparoscopy).

Таблица 6 / Table 6

Методы хирургического лечения в соотношении с причинами ИЦИ

Methods of surgical treatment in relation to the causes of ileocecal invagination

Причина ИЦИ	n = 160 абс. (%)	Хирургическое лечение		
		Лапароскопия	Лапаротомия	Колоноскопия
Дивертикул Меккеля	3 (1,9)	ЛД неэффективна	Дезинвагинация, дивертикулэктомия – 2. Дезинвагинация, резекция илеоцекального угла, тонко-толстокишечный анастомоз конец-в-бок – 1	Не проводилась
Гиперплазия Пейеровой бляшки	4 (2,5)	ЛД неэффективна	Дезинвагинация, резекция илеоцекального угла, тонко-толстокишечный анастомоз конец-в-бок – 3. Дезинвагинация, резекция подвздошной кишки, тонкотонкокишечный анастомоз – 1.	Не проводилась
Ювенильный полип	2 (1,25)	ЛД – 1 ЛД неэффективна	Не проводилась. Дезинвагинация, резекция илеоцекального угла, тонко-толстокишечный анастомоз конец-в-бок – 1.	Полипэктомия – 1 Не проводилась
Лимфома Беркитта	2 (1,25)	ЛД – 2	Не проводилась	Каскадная биопсия – 2
Гиперплазия лимфатического узла	1 (0,6)	ЛД – 1	Не проводилась	Не проводилась
Мезаденит, терминальный илеит	13 (8,1)	ЛД – 13	Не проводилась	Каскадная биопсия – 6 Не проводилась – 7
Всего, абс. (%)	25 (15,6)	25 (15,6)	8 (5)	9 (5,6)
Примечание		ЛД – 17 – 68% в группе хирургического лечения	Резекция кишки (некроз) – 6. 3,75% от общего числа наблюдений 24% в группе хирургического лечения 75% в группе лапаротомий	АП, диагностированные при колоноскопии – 3 33,3% от числа колоноскопий Лимфома Беркитта – 2 22,2 % от числа колоноскопий Ювенильный полип – 1 11,1% от числа колоноскопий

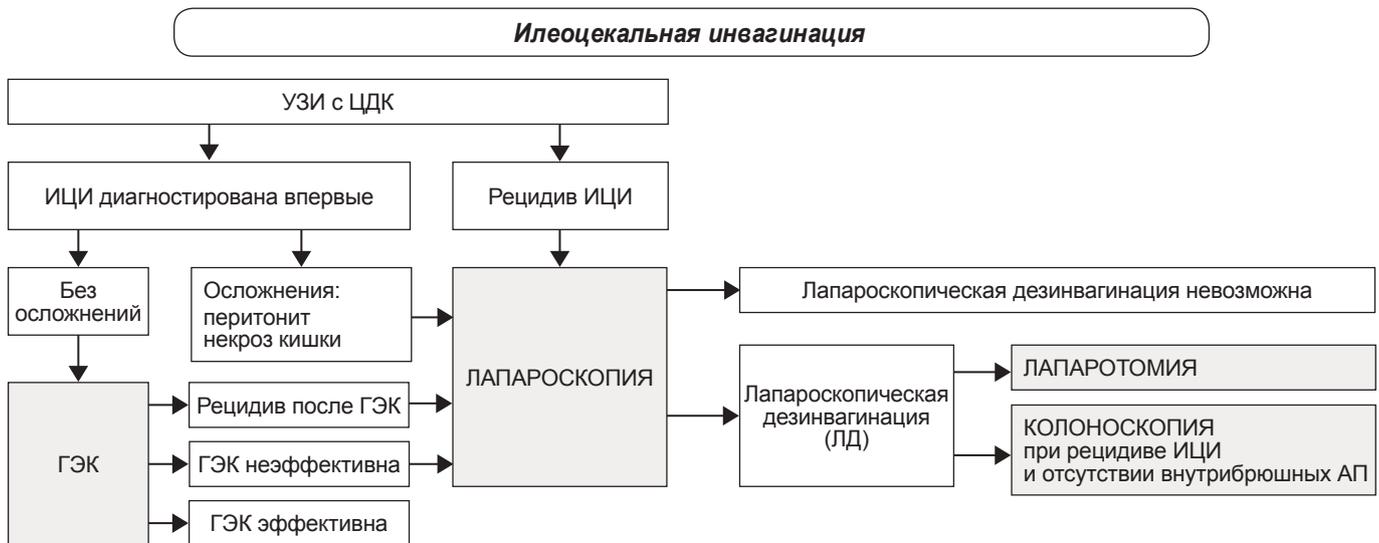


Рис. 5. Локальный протокол диагностики и лечения ИЦИ в НИИ НДХиТ [39].

Fig. 5. A local diagnostic protocol for ICI diagnostics and treatment in Clinical and Research Institute for Emergency Pediatric Surgery and Trauma [39].

объясняет тот факт, что именно мезентериальный лимфаденит в нашем исследовании явился значимой причиной рецидивов ИЦИ после ГЭК.

Полученные результаты показывают, что основной причиной неэффективности гидростатической дезинвагинации являлись анатомические причины (рис. 4) которые составили 87,5% (7 наблюдений из 8) и требовали хирургического лечения. При рецидивах после ГЭК АП составили 29,4% (5 наблюдений из 17), в остальных наблюдениях рецидивы были связаны с лимфоидной гиперплазией (см. рис. 4, д, е), играющей роль лидирующей точки внедрения при терминальном илеите и приводящей к дискоординации моторики кишечника при мезадените.

Во всех наблюдениях (25; 15,6%) **хирургическое лечение** начинали с лапароскопии. При успешной ЛД и отсутствии внутрибрюшных АП в послеоперационном периоде выполняли колоноскопию (9) для исключения внутрипросветных АП, которые были диагностированы в 33,3% наблюдений. При невозможности выполнить лапароскопическую дезинвагинацию переходили на лапаротомию (5%). Соотношение методов хирургического лечения с причинами ИЦИ представлено в табл. 6.

Полученные нами результаты, демонстрирующие высокую эффективность ГЭК независимо от возраста ребёнка и срока заболевания, позволили нам сформировать лечебно-диагностический алгоритм, направленный на своевременную диагностику анатомических причин и профилактику рецидивов заболевания (рис. 5) [39].

Обсуждение

Результаты нашего исследования показали высокую эффективность гидроколоноскопии при илеоцекальной инвагинации – 95%, рецидивы после ГЭК составили 10,6%. Основными причинами неэффективности гидростатической дезинвагинации являлись анатомические причины (12; 7,5%), выполняющие роль lead point и препятствующие дезинвагинации при ГЭК. Причём различий в частоте анатомических причин у детей до и старше 1 года мы не выявили. Также мы не получили различий в частоте возникновения некроза кишки в группах со сроком заболевания менее и более 12 ч. Ни в одном наблюдении некроз кишечной стенки не сопровождался развитием пе-

ритонита. Следует отметить, что рецидивы после ГЭК в 29,4% наблюдений также были связаны с наличием АП, тогда как в целом АП в нашем исследовании составили 7,5%, $p = 0,004$. В остальных наблюдениях рецидивы были связаны с абдоминальной лимфоидной гиперплазией.

Таким образом, при отсутствии осложнений и рецидивов лечение ИЦИ необходимо начинать с консервативных методов лечения. ГЭК как метод консервативного лечения имеет ряд преимуществ: он более физиологичный, поскольку жидкость нагнетается в кишку самотёком без дополнительного механического воздействия и, что очень важно, отсутствует лучевая нагрузка. ЦДК позволяет оценивать кровоток в цилиндрах инвагината, УЗ-контроль в режиме реального времени – продвижение жидкости по кишке и расправление инвагинации.

Мы считаем, что попыток консервативного расправления ИЦИ не должно быть более трёх. Учитывая крайне низкую частоту некроза кишки, а в нашем исследовании он был диагностирован всего лишь в 3,75% (6) наблюдений, можно добиться расправления инвагината, но это никак не повлияло на частоту АП, которая в целом составила 7,5% и не имела статистически значимых различий в группах сравнения по возрасту детей. АП должны быть устранены хирургическим путём, либо ребёнок направлен на специализированно лечение, как в случаях с лимфомой Беркитта. Очень важно акцентировать внимание, что не следует стремиться к дальнейшему повышению эффективности консервативного лечения, поскольку в 87,5% (7 из 8) в нашем исследовании при неэффективности ГЭК требовалось хирургическое лечение, связанное с необходимостью удаления АП и резекцией кишки в связи с её некрозом. Вторым значимым аргументом для ограничения попыток консервативного лечения является частота ранних рецидивов, которая составила в нашем исследовании 10,6% (17). Причём в 29,4% (5 из 17) наблюдений к рецидиву ИЦИ привела анатомическая причина (лимфома Беркитта – 2; ювенильный полип слепой кишки – 2, Пейерова бляшка – 1), а в остальных – выраженная лимфоидная гиперплазия, требующая выполнения колоноскопии с лестничной биопсией для исключения воспалительных заболеваний кишечника (ВЗК) и неопластического процесса.

На основании проведённого исследования показанием к хирургическому лечению являются неэффектив-

ность ГЭК и рецидивы ИЦИ. При стабильном состоянии пациента хирургическое лечение стоит начинать с лапароскопии. В нашем исследовании лапароскопическая дезинвагинация была успешной в 68% наблюдений хирургического лечения. Невозможность лапароскопической дезинвагинации во всех наблюдениях была связана с наличием анатомической причины, причём в 75% (6 из 8) наблюдений был диагностирован некроз внутреннего цилиндра инвагината. При успешной лапароскопической дезинвагинации и отсутствии внутрибрюшных анатомических причин следует выполнять колоноскопию для исключения внутрипросветных причин. В 33,3% (3 из 9) наблюдений при колоноскопии нами были выявлены анатомические причины, причём в 2-х из них – лимфома Беркитта, в одном – ювенильный полип, в остальных наблюдениях была диагностирована лимфоидная гиперплазия. Таким образом, выполнение колоноскопии с лестничной биопсией после успешной лапароскопической дезинвагинации и исключения внутрибрюшных анатомических причин должно быть включено в лечебно-диагностический алгоритм при ИЦИ у детей.

Возможность некроза кишечной стенки, не диагностированного до операции, ещё раз подтверждает эффективность используемого нами алгоритма со стартовым консервативным методом дезинвагинации, ограничением числа попыток гидростатической дезинвагинации и последовательным переходом на методы хирургического лечения (лапароскопия, лапаротомия, колоноскопия). Разработанный нами лечебно-диагностический алгоритм с пошаговым применением консервативного и хирургического лечения позволил снизить хирургическую агрессию и обеспечить своевременное выявление анатомических причин, что обеспечивает профилактику рецидивов заболевания и своевременную диагностику неопластических процессов. Мезентериальный лимфаденит, который в последние годы, по данным литературы [41–43], выходит на лидирующие позиции как фактор риска ИЦИ, наряду с анатомическими причинами является основной причиной рецидива заболевания. После консервативной дезинвагинации ребёнок должен получать щадящее питание, десенсибилизирующую и противовоспалительную терапию, направленную на предотвращение рецидивов заболевания и находиться под наблюдением педиатра после выписки.

Заключение

Гидроэхоколоноскопия является высокоэффективным и безопасным методом консервативного лечения ИЦИ у детей независимо от возраста и длительности заболевания.

Показанием к хирургическому лечению при неосложнённой ИЦИ являются безуспешность гидростатической дезинвагинации и рецидивы заболевания. Пошаговое применение ГЭК, лапароскопии, колоноскопии и лапаротомии позволяет оптимизировать лечение ИЦИ у детей, своевременно выявлять анатомические причины и избежать напрасных хирургических вмешательств и рецидивов заболевания.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Barbette P. *Oeuvres chirurgiques et anatomiques*. Publisher: Genève, François Miegé, 1674.
2. Hunter J. On intussusception. *Trans Soc Improv Med Surg Knowledge*. 1793; (1): 103–18.
3. Ravitch M.M., McCune R.M. Reduction of intussusception by barium enema: a clinical and experimental study. *Ann Surg*. 1948; (128): 904–17.
4. Hutchinson J. A successful case of abdominal section for intussusception. *Proc R Med Chir Soc*. 1873; (7): 195–8.
5. McDermott V.G. Childhood intussusception and approaches to treatment: a historical review. *Pediatr Radiol*. 1994; 24 (3): 153–5. <https://doi.org/10.1007/BF02012174>

6. Подкаменев В.В., Урусов В.А. *Диагностика и лечение инвагинации кишечника у детей*. Иркутск; 1986.
7. Podkamenev V.V., Urusov V.A. *Diagnosis and treatment of intestinal intussusception in children [Diagnostika i lecheniye invaginatsii kishechnika u detey]*. Irkutsk; 1986. (in Russian)
8. Hirschsprung H. Et tilfaelde af subakut tarminvagination. *Hospitals-Tidende*. 1876; (3): 321–7.
9. Hirschsprung H. 107 fälle van darmin agination bei kindern, behandelt inkoningin louisin-kinderhospital in kopenhagen während der jahre 1871–1904. *Mitt Grenzgeb Medezin Chir*. 1905; (14): 555–74.
10. Ladd W. E. Progress in the Diagnosis and Treatment of Intussusception. *Boston Med Surg J*. 1913; (168): 542–4.
11. Шварц Н.В. *Хирургия детского возраста. Руководство для врачей и студентов*. М.: ОГИЗ; 1935.
12. Shvarts N.V. *Surgery of childhood. A guide for doctors and students. [Khirurgiya detskogo vozrasta. Rukovodstvo dlya vrachey i studentov]*. Moscow: OGIz; 1935. (in Russian)
13. Дорон Г.Я. Острая инвагинация кишок у детей. *Новый хирургический архив*. 1937; 38(1/2): 190–4.
14. Doron G.Ya. Acute intestinal intussusception in children. *Novyy khirurgicheskiy arkhiv*. 1937; 38(1/2): 190–4. (in Russian)
15. Фельдман Х.И. *Инвагинация кишок в детском возрасте*. М.: Медицина; 1977.
16. Feldman Kh.I. *Intussusception of the intestines in childhood [Invaginatsiya kishok v detskom vozraste]*. Moscow: Meditsina; 1977. (in Russian)
17. Байров Г.А. *Срочная хирургия детей: руководство для врачей*. СПб.: Питер пресс; 1997.
18. Bairov G.A. *Emergency surgery for children: a guide for doctors [Srochnaya khirurgiya detey: rukovodstvo dlya vrachey]*. Saint-Petersburg: Piter press; 1997. (in Russian)
19. Исаков Ю.Ф., Степанов Э.А., Красовская Т.В. *Абдоминальная хирургия у детей*. М.: Медицина; 1988.
20. Isakov Yu.F., Stepanov E.A., Krasovskaya T.V. *Abdominal surgery in children [Abdominalnaya khirurgiya u detey]*. Moscow: Meditsina; 1988. (in Russian)
21. Портной В.М. Лечение кишечной инвагинации нагнетанием воздуха. *Вестник хирургии*. 1962; (11): 93–100.
22. Portnoy V.M. Treatment of intestinal invagination by air injection. *Vestnik khirurgii*. 1962; (11): 93–100. (in Russian)
23. Рошал Л.М. Острая инвагинация кишок у детей. *Хирургия*. 1964; (9): 106–13.
24. Roshal L.M. Acute intestinal intussusception in children. *Khirurgiya*. 1964; (9): 106–13. (in Russian)
25. Cuckow P.M., Slater R.D., Najmaldin A.S. Intussusception treated laparoscopically after failed air enema reduction. *Surgical endoscopy*. 1996; (10): 671–2.
26. Поддубный И.В., Дронов А.Ф., Блинные О.И., Смирнов А.Н., Даренков И.А., Дедов К.А. Лапароскопия в лечении инвагинации кишечника у детей. *Детская хирургия*. 1996; 33(8): 77–81.
27. Poddubnyi I.V., Dronov A.F., Blinnikov O.I., Smirnov A.N., Darenkov I.A., Dedov K.A. Laparoscopy in the treatment of intussusception in children. *Detskaya khirurgiya*. 1996; 33(8): 77–81. (in Russian)
28. Kia K.F., Mony V.K., Drongowski R.A., Golladay E.S., Geiger J.D., Hirschl R.B., Coran A.G., Teitelbaum D.H. Laparoscopic vs open surgical approach for intussusception requiring operative intervention. *Journal of pediatric surgery*. 2005; 40(1): 281–4.
29. Bailey K.A., Wales P.W., Gerstle J.T. Laparoscopic versus open reduction of intussusception in children: a single-institution comparative experience. *Journal of pediatric surgery*. 2007; 42(5): 845–8.
30. Burjonrappa S.C. Laparoscopic reduction of intussusception: an evolving therapeutic option. *JSLs: Journal of the Society of Laparo endoscopic Surgeons*. 2007; 11(2): 235–7.
31. Bonnard A., Demarche M., Dimitriu C., Podevin G., Varlet F., François M., Valioulis I., Allal H., GECl (Grouped'Etude de Coelioscopie Pédiatrique). Indications for laparoscopy in the management of intussusception: A multicenter retrospective study conducted by the French Study Group for Pediatric Laparoscopy (GECl). *Journal of pediatric surgery*. 2008; 43(7): 1249–53.
32. Fraser J.D., Aguayo P., Ho B., Sharp S.W., Ostlie D.J., Holcomb III G.W., Peter S.D. Laparoscopic management of intussusception in pediatric patients. *Journal of Laparo endoscopic & Advanced Surgical Techniques*. 2009; 19(4): 563–5.
33. Дронов А.Ф., Поддубный И.В. Лапароскопия в диагностике и лечении кишечной инвагинации. *Детская хирургия*. 2000; (6): 33–8.
34. Dronov A.F., Poddubnyy I.V. Laparoscopy in the diagnosis and treatment of intestinal intussusception. *Detskaya khirurgiya*. 2000; (6): 33–8. (in Russian)

25. Harrington L., Connolly B., Hu X., Wesson D.E., Babyn P., Schuh S. Ultrasonographic and clinical predictors of intussusception. *J Pediatr*. 1998; (132): 836–9.
26. Hryhorczuk A.L., Strouse P.J. Validation of US as a first-line diagnostic test for assessment of pediatric ileocolic intussusception. *Pediatr Radiol*. 2009; (39): 1075–9.
27. Bartocci M., Fabrizi G., Valente I., Manzoni C., Specia S., Bonomo L. Intussusception in childhood: role of sonography on diagnosis and treatment. *J Ultrasound*. 2014; (18): 205–11.
28. Carroll A.G., Kavanagh R.G., Ni Leidhin C., Cullinan N.M., Lavelle L.P., Malone D.E. Comparative effectiveness of imaging modalities for the diagnosis and treatment of intussusception: a critically appraised topic. *Acad Radiol*. 2017; (24): 521–9.
29. Wang G.D., Lin S.I. Enema reduction of intussusception by hydrostatic pressure under ultrasound guidance: A report of 377 cases. I. *Pediatric Surgery*. 1988; (23): 814–8.
30. Бондаренко Н.С., Каган А.В., Немилова Т.К. Инвагинация кишечника у детей: клинико-лабораторные критерии некроза кишки. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2016; 6(3): 31–4.
Bondarenko N.S., Kagan A.V., Nemilova T.K. Intestinal intussusception in children: clinical and laboratory criteria for intestinal necrosis. *Rossiyskiy vestnik detskoy khirurgii, anesteziologii i reanimatologii*. 2016; 6(3): 31–4. (in Russian)
31. Яницкая М.Ю., Голованов Я.С. Анализ традиционных, лапароскопических и современных неинвазивных методов диагностики и лечения инвагинации кишечника у детей. *Детская хирургия*. 2009; (6): 13–6.
Yanitskaya M.Yu., Golivanov Ya.S. Analysis of traditional, laparoscopic and modern non-invasive methods of diagnosis and treatment of intestinal intussusception in children. *Detskaya khirurgiya*. 2009; (6): 13–6. (in Russian)
32. Беляев М.К. Является ли возраст старше года противопоказанием к консервативной дезинвагинации? *Детская хирургия*. 2006; (4): 12–5.
Belyayev M.K. Is age over one year a contraindication to conservative disinvagination? *Detskaya khirurgiya*. 2006; (4): 12–5. (in Russian)
33. Подкаменев В.В., Шарапов И.С., Пикало И.А. Клинические и современные особенности инвагинации кишок у детей. *Детская хирургия*. 2018; 22(1): 13–6.
Podkamenev V.V., Sharapov I.S., Pikalo I.A. Clinical and modern features of intestinal intussusception in children. *Detskaya khirurgiya*. 2018; 22(1): 13–6. (in Russian)
34. Карасева О.В., Журавлев Н.А., Капустин В.А. Первый опыт гидростатической дезинвагинации у детей. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2014; (4): 115–20.
Karaseva O.V., Zhuravlev N.A., Kapustin V.A. The first experience of hydrostatic disinfection in children. *Rossiyskiy vestnik detskoy khirurgii, anesteziologii i reanimatologii*. 2014 (4): 115–20. (in Russian)
35. Румянцева Г.Н., Казаков А.Н., Юсуфов А.А., Бревдо Ю.Ф. Диагностика и лечение инвагинации кишечника у детей с применением сонографии. *Актуальные вопросы детской хирургии: сборник материалов VII Республиканской научно-практической конференции с международным участием, посвященной 30-летию кафедры детской хирургии. Гродно, 24–25 сентября 2015 г.* Гродно; 2015.
Rumyantseva G.N., Kazakov A.N., Yusufov A.A., Brevdo Yu.F. Diagnosis and treatment of intestinal intussusception in children using sonography. In: *Topical issues of pediatric surgery: a collection of materials of the VII Republican Scientific and Practical conference with international participation dedicated to the 30th anniversary of the Department of Pediatric Surgery. Grodno, September 24–25, 2015 [Aktual'nye voprosy detskoy hirurgii: sbornik materialov VII Respublikanskoj nauchno-prakticheskoy konferencii s mezhdunarodnym uchastiem, posvyashchennoj 30-letiyu kafedry detskoy hirurgii. Grodno, 24–25 sentyabrya 2015 g.]*. Grodno; 2015. (in Russian)
36. Яницкая М.Ю., Михайленко Б.Ю., Островский В.Г. Сравнительная характеристика безопасности гидростатической и пневматической дезинвагинации в теории, эксперименте и практике. *Вестник новых медицинских технологий. Электронное издание*. 2017; (2): 231–9.
Yanitskaya M.Yu., Mikhaylenko B.Yu., Ostrovskiy V.G. Comparative safety characteristics of hydrostatic and pneumatic disinfection in theory, experiment and practice. *Vestnik novykh meditsinskikh tekhnologii. Elektronnoye izdaniye*. 2017; (2): 231–9. (in Russian)
37. Flaum V., Schneider A., Gomes Ferreira C. Twenty years' experience for reduction of ileocolic intussusceptions by saline enema under sonography control. *J Pediatr Surg*. 2016; (51): 179–182.
38. Karadağ C.A., Abbasoğlu L., Sever N. Ultra-sound-guided hydrostatic reduction of intussusception with saline: safe and effective. *J Pediatr Surg*. 2015; (50): 1563–5.
39. Beger B., Duz E., Kizilyildiz B.S., Akdeniz H., Melek M., Agengin K., Avci V., Sonmez B. A new enema for treatment of intussusception with hydrostatic reduction: Olive oil. *J Paediatr Surg*. 2019; 16(1): 14–6.
39. Карасева О.В., Голиков Д.Е., Горелик А.Л., Харитонов А.Ю. и др. Основные причины неэффективности консервативного лечения илеоцекальной инвагинации у детей. *Детская хирургия*. 2023; 27(1): 5–16. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-1-5-16>
Karaseva O.V., Golikov D.E., Gorelik A.L., Kharitonova A.Yu., et al. The main reasons for the ineffectiveness of conservative treatment of ileocecal invagination in children. *Detskaya khirurgiya*. 2023; 27(1): 5–16. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-1-5-16> (in Russian)
40. Беляев М.К. *Инвагинация кишечника у детей: расширение показаний к консервативному лечению*: Автореф. дисс. ... доктора мед. наук. Новокузнецк; 2004.
Belyayev M.K. *Intestinal intussusception in children: expanding indications for conservative treatment*: Diss. Novokuznetsk; 2004. (in Russian)
41. Jiang J., Jiang B., Parashar U., Nguyen T., Bines J., Patel M.M. Childhood intussusception: a literature review. *PLoS One*. 2013; 8(7): e68482. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0068482>
42. Eshel G., Barr J., Heyman E., Tauber T., Klin B., Vinograd I., Starinsky R., Lahat E. Intussusception: a 9-year survey (1986–1995). *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 1997; 24(3): 253–6. <https://doi.org/10.1097/00005176-199703000-00004>
43. Fischer T.K., Bihrmann K., Perch M., Koch A., Wohlfahrt J., Kare M. Intussusception in early childhood: A cohort study of 1.7 million children. *Pediatrics*. 2004; (114): 782–5. <https://doi.org/10.1542/peds.2004-0390>

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-331-337>

Оригинальная статья

© Мелёхина О.В.¹, Соколов Ю.Ю.^{2,3}, Ефременков А.М.^{2,3}, Солоднина Е.Н.^{2,4}, Зыкин А.П.^{2,3}, Уткина Т.В.³, Барская К.А.³

Чрескожная чреспеченочная холангиостомия у детей

¹ГБУЗ города Москвы «Московский клинический научно-практический центр имени А.С. Логинова Департамента здравоохранения города Москвы», 111123, Москва, Российская Федерация;

²ФГБУ «Центральная клиническая больница с поликлиникой» Управления делами Президента Российской Федерации, 121359, Москва, Российская Федерация;

³ФГБУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 125993, Российская Федерация, г. Москва, Российская Федерация;

⁴ФГБУ ДПО «Центральная государственная медицинская академия» Управления делами Президента Российской Федерации, 121359, Москва, Российская Федерация

Введение. Врождённые пороки развития желчевыводящих протоков, осложнённое течение желчнокаменной болезни, стриктуры билиодигестивных анастомозов, опухоли панкреатобилиарной зоны могут приводить к механической желтухе. Для срочной деривации желчи не всегда получается выполнить разгрузочную холецистостомию, ретроградно эндоскопически стентировать желчные протоки, а проведение радикального оперативного вмешательства на фоне гипербилирубинемии опасно осложнениями. Тогда методом выбора становится чрескожная чреспеченочная холангиостомия. Представляем собственный опыт интервенционных вмешательств на желчевыводящих протоках у детей при билиарной обструкции.

Материал и методы. В исследование включены 14 пациентов в возрасте от 6 до 17 лет, которым выполнено 47 интервенционных вмешательств.

Результаты. Во всех случаях чрескожная чреспеченочная холангиостомия была успешной и позволила купировать билиарную гипертензию. Реканализация стриктуры с последующим курсом баллонной дилатации стриктуры успешно проведена у 4 больных со стенозом гепатикоюноанастомоза. Пункционный неанастомоз отключённого задне-секторального протока выполнен у 2 больных. Наружное дренирование желчевыводящих протоков с последующим радикальным лечением выполнено 10 больным, методика «Rendez-vous» у 1 пациента.

Заключение. Применение интервенционных вмешательств на желчных протоках у детей является эффективным методом лечения в различных клинических ситуациях, приводящих к механической желтухе, в ряде случаев позволяет эффективно купировать билиарную гипертензию, а такие методы как реканализация стриктуры, пункционный неанастомоз, могут явиться окончательным мининвазивным методом лечения нарушения оттока желчи.

Ключевые слова: дети; механическая желтуха; билиарная декомпрессия; эндоскопическая ретроградная холангиопанкреатография; чрескожная чреспеченочная холангиостомия; стентирование желчных протоков

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Мелёхина О.В., Соколов Ю.Ю., Ефременков А.М., Солоднина Е.Н., Зыкин А.П., Уткина Т.В., Барская К.А. Чрескожная чреспеченочная холангиостомия у детей. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 331-337. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-331-337>

Для корреспонденции: Ефременков Артем Михайлович, кандидат мед. наук, заведующий отделением детской хирургии ФГБУ «ЦКБ с поликлиникой» УДП РФ; доцент кафедры детской хирургии им. акад. С.Я. Долецкого ФГБОУ ДПО РМАНПО МЗ РФ, 125993, Москва. E-mail: efremart@yandex.ru

Участие авторов: Мелёхина О.В. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала; Соколов Ю.Ю. – концепция и дизайн исследования, редактирование; Ефременков А.М. – концепция и дизайн исследования, статистическая обработка данных, написание текста, редактирование; Солоднина Е.Н. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, редактирование; Зыкин А.П. – сбор и обработка материала, статистическая обработка данных, написание текста; Уткина Т.В., Барская К.А. – сбор и обработка материала. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 22 января 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-331-337>

Original article

© *Melekhina O.V.¹, Sokolov Yu.Yu.^{2,3}, Efremenkov A.M.^{2,3}, Solodinina E.N.^{2,4}, Zykin A.P.^{2,3}, Utkina T.V.³, Barckaja K.A.³*

Percutaneous transhepatic cholangiostomy in children

¹Loginov Moscow Clinical Research and Practical Center, 111123 Moscow, Russian Federation;

²Central Clinical Hospital with Out-patient Unit, Department of Presidential Affairs of the President of the Russian Federation, 121359 Moscow, Russian Federation;

³Russian Medical Academy of Continuing Professional Education, Ministry of Health of the Russian Federation, 125993 Moscow, Russian Federation;

⁴Central State Medical Academy, Department of Presidential Affairs of the President of the Russian Federation, 121359 Moscow, Russian Federation

Introduction. Congenital malformations of the bile ducts, complicated course of cholelithiasis, strictures of biliodigestive anastomoses, tumors of the pancreatobiliary zone can lead to mechanical jaundice. It is not always possible to perform unloading cholecystostomy for the urgent bile derivation, to stent bile ducts with retrograde endoscopy; more so, to perform radical surgery under hyperbilirubinemia is a risky intervention that can cause complications. Then, percutaneous transhepatic cholangiostomy becomes a method of choice. We present our own experience of interventional surgical procedures on the biliary ducts in children with biliary obstruction.

Material and methods. 14 patients, aged 6–17 years, who had 47 interventions were included in the study.

Results. In all cases, percutaneous transhepatic cholangiostomy was successful and stopped biliary hypertension. Stricture recanalization after balloon dilation was successful in 4 patients with hepaticojunoanastomosis stenosis. Puncture neoanastomosis of the disconnected posterior-sectorial duct was performed in 2 patients. External drainage of the bile ducts with subsequent radical treatment was performed in 10 patients; the “Rendez-vous” technique - in 1 patient.

Conclusion. Interventional surgical procedures on the bile ducts in children is an effective method of treatment in various clinical situations leading to mechanical jaundice. In some cases, it can effectively stop biliary hypertension. And such methods as recanalization of strictures and puncture neoanastomosis can be a final minimally invasive technique for treating disorders of bile outflow.

Keywords: children; mechanical jaundice; biliary decompression; endoscopic retrograde cholangiopancreatography; percutaneous transhepatic cholangiostomy; bile duct stenting

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association “Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject”.

Patient’s consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Melekhina O.V., Sokolov Yu.Yu., Efremenkov A.M., Solodinina E.N., Zykin A.P., Utkina T.V., Barckaja K.A. Percutaneous transhepatic cholangiostomy in children. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 331-337. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-331-337> (In Russian)

For correspondence: Dr. Artem M. Efremenkov, Head of the Pediatric Surgery Department, Central Clinical Hospital with Out-patient Unit, Department of Presidential Affairs of the President of the Russian Federation, 121359 Moscow, Russian Federation. E-mail: efremart@yandex.ru

Information about authors

Melekhina O.V., <https://orcid.org/0000-0002-3280-8667>

Sokolov Yu.Yu., <https://orcid.org/0000-0003-3831-768X>

Efremenkov A.M., <https://orcid.org/0000-0002-5394-0165>

Solodinina E.N., <https://orcid.org/0000-0002-5462-2388>

Zykin A.P., <https://orcid.org/0000-0003-3551-1970>

Author contribution: *Melekhina O.V.* – study concept and design, material collection and processing; *Sokolov Yu.Yu.* – study concept and design, editing; *Efremenkov A.M.* – study concept and design, statistical data processing, text writing, editing; *Solodinina E.N.* – study concept and design, material collection and processing, editing; *Zykin A.P.* – material collection and processing, statistical data processing, text writing; *Utkina T.V., Barskaya K.A.* – material collection and processing. *All co-authors* – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: January 22, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Врождённые пороки развития желчевыводящих протоков (ЖВП), осложнённое течение желчнокаменной болезни (ЖКБ), стриктуры билиодигестивных анастомозов, опухоли панкреатобилиарной зоны могут приводить к механической желтухе, которая обуславливает тяжесть состояния больных и требует срочной деривации желчи [1]. Зачастую у данной категории больных невозможно выполнить разгрузочную холецистостомию, применить эндоскопическое транспапиллярное стентирование ЖВП, а проведение радикального оперативного вмешательства на фоне гипербилирубинемии чревато осложнениями, связанными с системными нарушениями гомеостаза. У взрослых больных для этой цели с успехом применяется чрескожная чреспечёночная холангиостомия (ЧЧХС) [2]. В педиатрической практике сообщений об интервенционных вмешательствах на желчных протоках крайне мало, что требует дальнейшего накопления опыта [3]. Кроме декомпрессии ЖВП при желчной гипертензии интервенционные методы позволяют реканализировать стриктуры билиодигестивных анастомозов и провести одномоментное с эндоскопической ретроградной холангиопанкреатографией (ЭРХПГ) вмешательство, что в зарубежной литературе именуется как «tendez-vous». Представляем собственный опыт интервенционных вмешательств на ЖВП у детей.

Материал и методы

С 2019 г. по настоящее время на клинических базах кафедры детской хирургии имени академика С.Я. Долецкого ФГБУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Минздрава России пролечены 14 детей с прогрессирующей билиарной гипертензией, которым проведено 47 интервенционных вмешательств на желчных протоках. Первично по поводу заболеваний органов панкреато-билиарной области были оперированы 10 пациентов, из них 9 пациентов оперированы в других учреждениях, не относящихся к базе кафедры детской хирургии РМАНПО. Возраст детей составил от 6 до 17 лет. Предоперационное обследование включало общеклинические лабораторные методы обследования, ультразвуковое исследование (УЗИ) органов брюшной полости, печени, магнитно-резонансную холангиопанкреатографию (МРХПГ). Показанием для проведения ЧЧХС и последующих интервенционных вмешательств являлась прогрессирующая механическая желтуха.

Количество больных, этиология билиарной гипертензии и выполненные интервенционные вмешательства представлены в таблице.

Стеноз гепатикоюноанастомоза явился показанием для операции в 6 наблюдениях. ЧЧХС в качестве предоперационной деривации желчи выполнено у 4 больных с кистами холедоха. Послеоперационный полный блок общего печёночного ($n = 2$) или секторального протока ($n = 1$) послужил поводом для ЧЧХС наружного дренирования в 3 наблюдениях. Рецидивирующий холангит у ребёнка, перенёсшего многократные реконструктивные операции с формированием гепатикоюноанастомоза на отключённой по Ру петле явился показанием для ЧЧХС наружного дренирования у одного ребёнка. ЧЧХС с наружным дренированием выполнено трем детям с дистальным блоком на уровне головки поджелудочной железы вызванным: холедохолитиазом ($n = 1$), метастатическим поражением головки поджелудочной железы ($n = 1$), стриктурой большого дуоденального сосочка ($n = 1$).

Операции проводились в асептических условиях в операционной, оснащённой аппаратом УЗИ, рентген-аппаратом типа С-дуга, рентген-негативным операционным столом под общим обезболиванием.

Методика ЧЧХС включала в себя несколько этапов: пункция желчного протока под УЗ-контролем, контрастирование протоков и получение холангиограмм, бужирование пункционного канала, установка наружной холангиостомы.

Пункцию желчных протоков выполняли следующим образом. После выбора доступа в желчные протоки и определения оптимальной траектории иглы, в месте пункции выполняли инфильтрационную анестезию ропивакаином 0,2% (не более 2 мг/кг) до капсулы печени, после чего после предварительного рассечения кожи около 3–4 мм, под постоянным УЗ-контролем проводили пункционную иглу (комплект для чрескожного доступа Neff COOK Medical® 22G) в просвет протока (рис. 1). Данный этап во всех наблюдениях выполняли без пункционных насадок методом «свободной руки». После вхождения иглы в просвет протока, удаляли мандрен, полученную желчь отправляли на бактериологическое исследование. Только после поступления желчи через иглу проводили контрастирование желчных протоков раствором Омнипак® (Йогексол, раствор для инъекций, 140 мг йода/мл), разведённым с физ. раствором в соотношении 1:1. Дальнейшие манипуляции проводили под контролем рентгеноскопии.

Этиология билиарной гипертензии и выполненные интервенционные вмешательства

Etiology of biliary hypertension and performed interventional procedures

Этиология билиарной гипертензии	<i>n</i>	Интервенционное вмешательство	<i>n</i>
Стеноз ГЕА	6	Наружно-внутреннее дренирование с курсом баллонной дилатации стриктуры анастомоза	2
		Пункционный неоанастомоз, наружно-внутреннее дренирование с курсом баллонной дилатации анастомоза	
Киста холедоха	4	Наружное дренирование	4
Послеоперационный блок общего печёночного или секторального протока	3	Наружное дренирование	3
Рецидивирующий холангит, состояние после ГЕА по Ру	1	Наружное дренирование	1
Опухоль головки ПЖ	1	Наружное дренирование	1
ЖКБ, холедохолитиаз, холангит	1	Наружное дренирование	1
Стеноз большого дуоденального сосочка	1	Холангиография, «tendez-vous» с ЭРХПГ, стентирование общего желчного протока	1
Всего	17	–	–

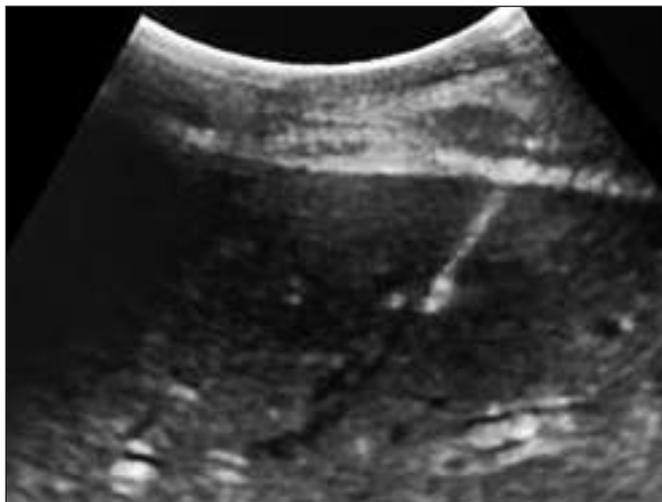


Рис. 1. Момент попадания иглы в просвет желчного протока определяется на экране монитора УЗ-аппарата. Субъективно ощущается как «провал иглы», в шприц аспирируется желчь.

Fig. 1. The moment when the needle is entering the bile duct lumen is visible on the ultrasound monitor. It is subjectively felt as “needle dropping”, bile is aspirated into the syringe.

После получения холангиограммы в просвет протока вводили мягкий проводник с J-кончиком (поддерживающие проводники Amplatz COOK Medical® 0,035–0,038 inch, 80–140 cm), по которому после предварительного бужирования бужом 6 Fr (гидрофильный расширитель Coons COOK Medical®) заводили манипуляционный катетер (проводник-мандрен Core COOK Medical® 0,018 inch, 40–60 cm) (рис. 2). При необходимости наружного дренирования при помощи манипуляционного катетера позиционировался проводник, по которому впоследствии после бужирования канала устанавливался дренажный катетер Dawson-Mueller 25 см с малым диаметром кольца Pig-tail (универсальный дренажный катетер Dawson-Mueller COOK Medical®, 8,5 или 10,2 Fr, 25 cm, диаметр «свиного хвоста» 10 mm), который фиксировался к коже. При необходимости реканализации



Рис. 2. Холангиограмма. В просвет желчного протока по каналу иглы введен мягкий проводник с J-образным кончиком.

Fig. 2. Cholangiogram. A soft guidewire with J-shaped tip was inserted into the bile duct lumen through the needle channel.

стриктуры проводник меняли на гидрофильный (гидрофильный проводник Roadrunner® Coons COOK Medical® 0,035–0,038 inch 80–148 cm). При прохождении проводника через стриктуру, через последнюю по проводнику проводили манипуляционный катетер, меняли на более жесткую струну, по которой заводили ангиопластический баллонный дилататор (баллонные дилататоры диаметром 6–12 мм, Boston Scientific). Далее под визуальным контролем при рентгеноскопии и под контролем давления в манометре проводили постепенное расправление баллона, оценивали уровень стриктуры («тали» баллона), глубину «тали» относительно всего просвета, давление, при котором «тали» проявляется и полностью расправляется (рис. 3). Максимальное давление расправления баллона доходило до 6 атмосфер, экспозиция в течение 1–2 мин. После дилатации стриктуры в кишку проводили дренажный катетер Dawson-Mueller (универсальный дренажный катетер Dawson-Mueller COOK Medical®, 8,5 Fr 20 cm или 10,2 Fr, 20 или 45 cm, диаметр «свиного хвоста» 10 mm) с дополнительно сделанными отверстиями так, чтобы они были в просвете желчных протоков (рис. 4).

В случаях успешной реканализации стриктуры баллонную дилатацию повторяли через каждые 2,5–3 мес до того момента, пока не будет визуализироваться «тали» на баллоне (полное расправление) при давлении ниже 1 атм. Обычно требовалось 5–6 процедур.

Результаты

Во всех наблюдениях ЧЧХС была успешной и позволила купировать билиарную гипертензию.

Реканализация стриктуры с последующим курсом баллонной дилатации стриктуры успешно проведена у 4 больных со стенозом гепатикоюноанастомоза. Пункционный неоанастомоз отключённого заднесекторального протока выполнен у 2 больных: с Ру-петлёй ($n = 1$) и левым долевым протоком ($n = 1$). Наружное дренирование ЖВП с последующей реконструктивной гепатикоюноанастомозией выполнено 3 больным.

ЧЧХС с помещением кончика дренажа в кистозно-расширенный холедох привела к купированию гипербилирубинемии во всех 4 наблюдениях. Радикальное иссечение кисты холедоха с формированием гепатикоюноанастомоза проведено на сроках 3–6 недель. Формирование

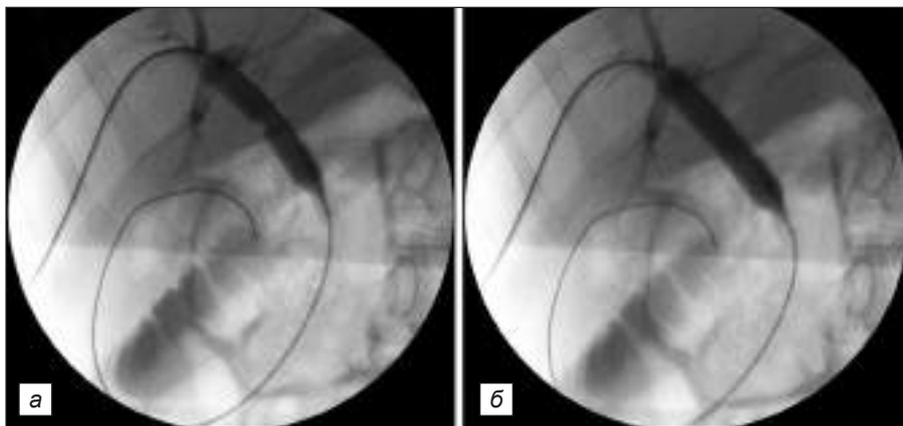


Рис. 3. Рентгеноскопически оценивается глубина «тали» относительно просвета, а по показанию манометра давление при визуализации «тали» баллона (а) и давление полного расправления «тали» (б).

Fig. 3. The depth of «waist» relative to the lumen is assessed by X-ray (a). The pressure of full extension of the «waist» is estimated on the gauge (б).

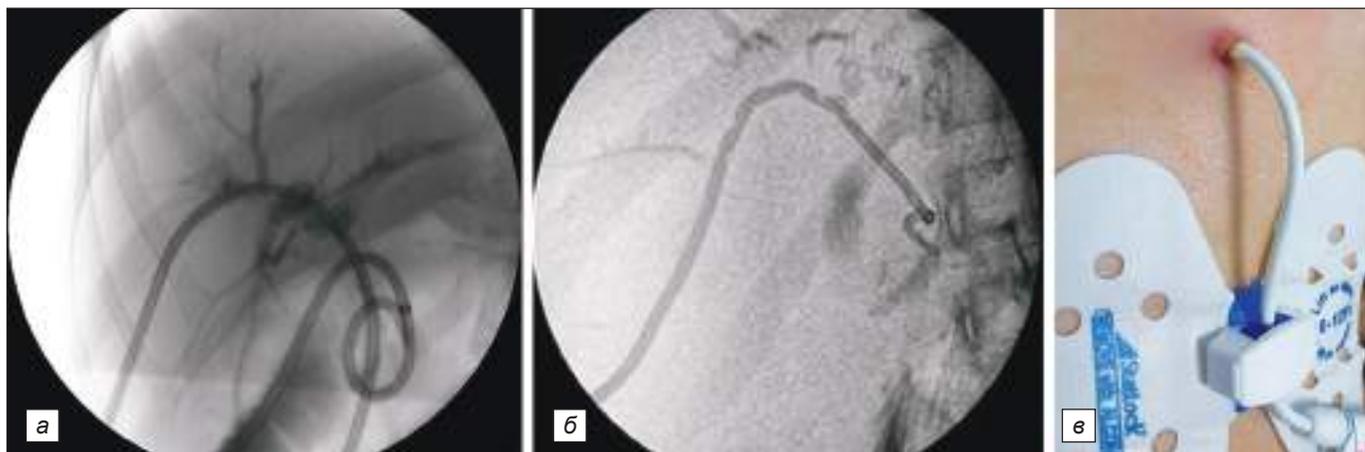


Рис. 4. Дренажный катетер, дистальный конец которого располагался ниже стриктуры, максимально дальше в Ру-петле, а боковые отверстия – выше стриктуры, на уровне сегментарных желчных протоков. Внутренний сегмент дренажа позволяет желчи беспрепятственно поступать в кишку (между проксимальными и дистальными отверстиями) (а, б), а наружный сегмент дренажа обеспечивает постоянный доступ в протоки (е).

Fig. 4. Drainage: distal end was located below the stricture, as far as possible far in the Roux-en-Y-loop, and lateral holes were located above the stricture, at the level of the segmental bile ducts. The internal drainage segment (between proximal and distal openings) allows bile to flow into the intestine. The external drainage segment provides constant access to the ducts (e).

гепатикоеноанастомоза на холангиостомическом катетере с последующим наружно-внутренним дренированием выполнено двум пациентам в связи с выраженным отёком стенок общего печёночного протока. Удаление холангиостомы проводили через 4–5 недель после операции и после предварительной антеградной холангиоскопии.

Наружное дренирование ЖВП с последующей реконструктивной гепатикоеноанастомией выполнено двум больным после клипирования общего печёночного протока при проведении холецистэктомии. ЧЧХС заднего секторального протока применена у одного ребёнка с послеоперационной рубцовой стриктурой на этом уровне. Окончательным лечением для данных больных явилась реконструктивная гепатикоеноанастомия на отключённой по Ру петле.

Антеградная холангиоскопия позволила исключить стеноз гепатикоеноанастомоза и контрастировать Ру-петлю у ребёнка с рецидивирующим холангитом. Прямое контрастирование Ру-петли позволило выявить её перегибы, затруднение прохождения контраста. Наружно-внутреннее дренирование привело к ухудшению состояния, что подтвердило предположение о дисфункции Ру-петли. Перевод в наружное дренирование ЖВП позволил купировать холангит и подготовить ребёнка к операции – реконструкции Ру-петли.

Дистальный блок на уровне головки поджелудочной железы выявлен у двух больных. Как паллиативная помощь, ЧЧХС с наружным дренированием выполнена ребёнку с рабдомиосаркомой, метастатическим поражением головки поджелудочной железы. Наружное дренирование проведено ребёнку с холедохолитиазом, холангитом, холангиогенным сепсисом после неоднократных неудачных попыток ЭРХПГ. Адекватное желчеотведение не позволило в данном наблюдении купировать холангит и развившиеся септические осложнения, наступил летальный исход.

«Rendez-vous» с ЭРХПГ позволило выполнить папиллосфинктеротомию ребёнку со стенозом большого дуоденального сосочка после предварительной неудачной попытки канюляции протоков по струне, антеградно низведённой в двенадцатиперстную кишку.

Интраоперационных осложнений не отмечено. Среднее время операции наружного дренирования составляло 35 мин, реканализация стриктуры – 90 мин; повторная баллонная дилатация – 20 мин.

Обсуждение

Нарушение пассажа желчи относительно редко встречается в педиатрической практике. Причины механической желтухи у детей разнообразны и включают пороки развития желчных протоков, обтурация их конкрементами, сдавление желчных протоков извне при воспалительном или неопластическом процессе в области гепатодуоденальной связки, а также послеоперационные стриктуры желчных протоков [3–6]. В некоторых случаях, выполнение эндоскопического дренирования желчных протоков затруднено или невозможно, а разгрузочная холецистостомия или невозможна или неэффективна, ЧЧХС является единственным миниинвазивным методом деривации желчи [7–9].

Интервенционные чрескожные чреспечёчные вмешательства могут быть применены не только для купирования билиарной гипертензии при послеоперационных стенозах желчных протоков или билиодигестивных анастомозов, но и стать методом окончательного лечения при успешной их реканализации [10]. Чрескожные антеградные вмешательства являются наиболее удобными и эффективными методами лечения стриктур гепатикоеноанастомоза и давно себя зарекомендовали во взрослой практике [11–12]. Публикации, посвящённые чрескожным вмешательствам при данной патологии у детей многочисленны и большинство из них посвящено стенозам гепатикоеноанастомоза после трансплантации печени [7, 9, 13]. При успешной реканализации стриктуры пациенты выписываются с холангиостомическим катетером, который служит доступом для последующей баллонной дилатации. Как правило баллонная дилатация требует кратковременной госпитализации, а общий курс лечения составляет 5–6 процедур за 1–1,5 года [14, 15]. В некоторых случаях успешная реканализация возможна через некоторое время после купирования холангита при повторной холангиоскопии.

При непосредственной анатомической близости отключённого протока и Ру-петли или другого желчного протока возможна инвазивная реканализация – пункционный анастомоз. Послеоперационное ведение таких пациентов также включает в себя курс баллонной дилатации [16]. В литературе встречаются немногочисленные публикации, посвящённые данным процедурам у взрослых и единичные сообщения об успешных пункционных анастомозах у детей [16, 17].

Деривация желчи у детей с билиарной гипертензией, возникающей на фоне кист холедоха является важной задачей перед радикальной операцией не только для снижения уровня билирубина и купирования холангита, но и для сокращения размеров кисты, что значительно может облегчить последующее оперативное вмешательство [3, 18]. Кроме этого, прямое контрастирование позволяет более детально оценить анатомию ЖВП. Дискутабельными остаются вопросы сроков радикальной операции коррекции порока после ЧЧХС, целевых значений билирубина, а также целесообразности послеоперационного наружно-внутрибрюшного дренирования гепатикоюноанастомоза.

Холедохолитиаз является редким осложнением ЖКБ у детей [19, 20]. Эффективность эндоскопической папиллосфинктеротомии и литэкстракции при холедохолитиазе составляет 95–99%, однако сопряжено с относительно высоким риском осложнений (3,2–7,7%), и её проведение не всегда технически возможно [21]. В нашей серии наблюдений у одного ребенка после дважды неудачной эндоскопической литэкстракции, на фоне острого холангита, развивавшегося холангиогенного сепсиса, пришлось прибегнуть к ЧЧХС. К сожалению, несмотря на адекватное дренирование желчных протоков у ребёнка наступил летальный исход на фоне септических осложнений.

Установка транспечёночного дренажа является методом выбора купирования холангита после реконструктивных операций на внепеченочных желчных протоках. Зачастую только прямое контрастирование ЖВП и анастомоза позволяет уточнить анатомию и визуализировать Ру-петлю и оценить её функцию [22]. Отрицательная динамика состояния после установки наружно-внутрибрюшного дренажа и выраженная положительная динамика после перевода на наружное дренирование подтвердило, что холангит явился причиной дисфункции Ру-петли. Таким образом, ЧЧД явился методом диагностического поиска у ребёнка, позволившем выставить показания для реоперации – реконструкции Ру-петли.

ЧЧХС может с успехом применяться при опухолевой билиарной гипертензии, как с проксимальным блоком на уровне печёночных протоков, так и дистальных – на уровне холедоха [10]. Публикации, посвящённые интервенционным вмешательствам при механической желтухе опухолевого генеза у детей малочисленны, однако они указывают на эффективность этой методики [23, 24].

Затруднение эндоскопических вмешательств на большом дуоденальном сосочке (БДС) может явиться показанием для проведения одномоментного вмешательства «рандеву». В данных ситуациях доступ в желчные протоки с последующим проведением струны через БДС используется для облегчения канюляции общего желчного протока или его визуализации [8, 25, 26].

Осложнения чрескожной чреспечёночной холангиостомии можно условно разделить на 3 категории: геморрагические, инфекционные и состояния, связанные с миграцией или дисфункцией самой дренажной трубки. Большинство описанных геморрагических осложнений, таких как гематомы, гемоперитонеум, гемоторакс и гемобилия купируются консервативными мероприятиями с возможным дренированием затёков [22]. Инфекционные

осложнения, как правило, возникают на фоне неадекватного дренирования желчных протоков или нарушения моторики ДПК или Ру-петли, что решается редренированием, сменой антибактериальной терапии или назначением прокинетики [22]. В нашей серии мы не столкнулись с клинически значимыми осложнениями, которые могли стать причиной каких-либо дополнительных оперативных вмешательств или смены тактики лечения больного. При тщательном послеоперационном наблюдении, выполнении правил ухода за холангиостомическим катетером дислокационные осложнения должны быть сведены к минимуму. В нашей серии наблюдений подобных осложнений не отмечено.

Таким образом, применение интервенционных вмешательств на желчных протоках у детей является эффективным в различных клинических ситуациях. Чрескожное чреспечёночное дренирование желчных протоков позволяет эффективно купировать билиарную гипертензию при разнотипной её этиологии, а такие методы, как реканализация стриктуры, пункционный неонастомоз, могут являться окончательным мини-инвазивным методом лечения нарушения оттока желчи. Данный метод возможно применять совместно с внутриспросветной эндоскопией, лапароскопией и открытой хирургией.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Хатков И.Е., Аванесян Р.Г., Ахаладзе Г.Г. и др. Российский консенсус по актуальным вопросам диагностики и лечения синдрома механической желтухи. *Хирургия. Журнал им. Н.И. Пирогова*. 2020; 6: 5–17. <https://doi.org/10.17116/hirurgia20200615>
2. Khatkov I.E., Avanesyan R.G., Akhaladze G.G., et al. Russian consensus on current issues in the diagnosis and treatment of obstructive jaundice syndrome. *Pirogov Russian Journal of Surgery = Khirurgiya. Zhurnal im. N.I. Pirogova*. 2020; 6: 5–17. <https://doi.org/10.17116/hirurgia20200615> (In Russian)
3. Кулезнева Ю.В., Мелехина О.В., Ефанов М.Г. и др. Спорные вопросы билиарной декомпрессии при механической желтухе опухолевого генеза. *Анналы хирургической гепатологии*. 2019; 24(4): 111–22. <https://doi.org/10.16931/1995-5464.20194111-122>
4. Kulezneva Yu.V., Melekhina O.V., Efanov M.G., et al. Controversial issues of biliary decompression when mixing jaundice of tumor origin. *Annaly khirurgicheskoy gepatologii*. 2019; 24(4):111–22. (In Russian)
5. Kang L.H., Brown C.N. Pediatric Biliary Interventions in the Native Liver. *Semin Intervent Radiol*. 2016; 33(4): 313–23. <https://doi.org/10.1055/s-0036-1592323>
6. Azevedo F., Canhoto C., Tralhão J.G., Carvalho H. Management of afferent loop syndrome after Roux-en-Y subtotal gastrectomy and choledocholithiasis with recurrent cholangitis. *BMJ Case Rep*. 2020; 13(1): e232498. <https://doi.org/10.1136/bcr-2019-232498>
7. Yamoto M., Urushihara N., Fukumoto K., et al. Usefulness of laparoscopic cholecystostomy in children with complicated choledochal cyst. *Asian J Endosc Surg*. 2015; 8(2): 153–7. <https://doi.org/10.1111/ases.12170>
8. Akinci D., Gumus B., Ozkan O.S., et al. Percutaneous management of tumoral biliary obstruction in children. *Pediatr Radiol*. 2007; 37(10): 975–80. <https://doi.org/10.1007/s00247-007-0557-3>
9. Racadio J.M., Kukreja K. Pediatric biliary interventions. *Tech Vasc Interv Radiol*. 2010; 13(4): 244–9. <https://doi.org/10.1053/j.tvir.2010.04.007>
10. Rocca R., Castellino F., Daperno M., et al. Therapeutic ERCP in paediatric patients. *Dig Liver Dis*. 2005; 37(5): 357–62. <https://doi.org/10.1016/j.dld.2004.09.030>
11. Kahrman G., Ozcan N., Gorkem S.B. Percutaneous management of bile duct stones in children: results of 12 cases. *Diagn Interv Radiol*. 2017; 23(2):133–6. <https://doi.org/10.5152/dir.2016.16178>
12. Кулезнева Ю.В., Мелехина О.В., Курмансеитова Л.И., и др. Антеградное желчеотведение: анализ осложнений и способы их профилактики. *Анналы хирургической гепатологии*. 2018; 23 (3): 37–46. <https://doi.org/10.16931/1995-5464.2018337-46>
13. Kulezneva Yu.V., Melekhina O.V., Kurmanseitova L.I., et al. Antegrade biliary excretion: analysis of complications and methods for their prevention. *Annaly khirurgicheskoy gepatologii*. 2018; 23(3): 37–46. <https://doi.org/10.16931/1995-5464.2018337-46> (In Russian)
14. Акинфиев Д.М., Бахмутова Е.Е., Беляков Г.А. и др. *Лучевая диагностика и малоинвазивное лечение механической желтухи: руководство*. М.: Радиология-пресс; 2010.

- Akiniev D.M., Bakhmutova E.E., Belyakov G.A., et al. *Radiation diagnostics and minimally invasive treatment of obstructive jaundice: a guide [Luchevaya diagnostika i maloinvazivnoe lechenie mekhanicheskoy zheltuhi: rukovodstvo]*. Moscow: Radiology-press; 2010. (In Russian)
12. Liu Y.S., Lin C.Y., Chuang M.T., et al. Success and complications of percutaneous transhepatic biliary drainage are influenced by liver entry segment and level of catheter placement. *Abdom Radiol (NY)*. 2018; 43(3): 713–22. <https://doi.org/10.1007/s00261-017-1258-5>
 13. Lorenz J.M., Denison G., Funaki B., et al. Balloon dilatation of biliary-enteric strictures in children. *AJR Am J Roentgenol*. 2005; 184(1): 151–5. <https://doi.org/10.2214/ajr.184.1.01840151>
 14. Fidelman N. Benign Biliary Strictures: Diagnostic Evaluation and Approaches to Percutaneous Treatment. *Tech Vasc Interv Radiol*. 2015; 18(4): 210–7. <https://doi.org/10.1053/j.tvir.2015.07.004>
 15. Cantwell C.P., Pena C.S., Gervais D.A., et al. Thirty years' experience with balloon dilation of benign postoperative biliary strictures: long-term outcomes. *Radiology*. 2008; 249(3): 1050–7. <https://doi.org/10.1148/radiol.2491080050>
 16. Lee J.H., Yoon C.J., Choi W.S., Lee C.H. Benign postoperative hepaticojejunostomy stricture: percutaneous recanalisation using the reverse end of a microwire. *Clin Radiol*. 2020; 75(11): 879.e1–879.e6. <https://doi.org/10.1016/j.crad.2020.06.029>
 17. Miraglia R., Luca A., Maruzzelli L., et al. Percutaneous recanalization of an occluded hepatico-jejunostomy, using Colapinto needle, in a two-year-old patient after partial liver transplantation. *Pediatr Transplant*. 2007; 11(6): 676–9. <https://doi.org/10.1111/j.1399-3046.2007.00716.x>
 18. Lal R., Agarwal S., Shivhare R., et al. Management of complicated choledochal cysts. *Dig Surg*. 2007; 24(6): 456–62. <https://doi.org/10.1159/000111821>
 19. Frybova B., Drabek J., Lochmannova J., et al. Cholelithiasis and choledocholithiasis in children; risk factors for development. *PLoS One*. 2018; 13(5): e0196475. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0196475>
 20. Солоднина Е.Н., Соколов Ю.Ю., Ефременков А.М. и др. Эндосонография панкреатобилиарной области у детей. Первый опыт. *Детская хирургия*. 2021; 25(6): 368–74. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2021-25-6-368-374>
 21. Solodina E.N., Sokolov Y.Y., Efremkov A.M., et al. Endosonography of the pancreatobiliary area in pediatric patients. The first experience. *Russian Journal of Pediatric Surgery*. 2021; 25(6): 368–374. (In Russian)
 22. Özcan N., Kahrman G., Görkem S.B., Arslan D. Percutaneous management of bile duct stones in children: results of 12 cases. *Diagn Interv Radiol*. 2017; 23(2): 133–6. <https://doi.org/10.5152/dir.2016.16178>
 23. Кулезнева Ю.В., Мелехина О.В. *Методические рекомендации № 11 ГБУЗ МКНЦ им. А.С. Логинова ДЗМ. Чрескожная чреспеченочная холангиостомия*. М.; 2019.
 24. Kulezneva Yu.V., Melekhina O.V. *Medical recommendations No. 11 GBUZ MKNTs them. A.S. Loginova DZM. Percutaneous transhepatic cholangiostomy [Medodicheskie rekomendacii № 11 GBUZ MKNC im. A.S. Loginova DZM. Chreskozhnaya chrespechenochnaya holangiostomiya]*. Moscow; 2019. (In Russian)
 25. Akinci D., Gumus B., Ozkan O.S., et al. Percutaneous management of tumoral biliary obstruction in children. *Pediatr Radiol*. 2007; 37(10): 975–80. <https://doi.org/10.1007/s00247-007-0557-3>
 26. Chung E.M., Lattin G.E.Jr., Cube R., et al. From the archives of the AFIP: Pediatric liver masses: radiologic-pathologic correlation. Part 2. Malignant tumors. *Radiographics*. 2011; 31(2): 483–507. <https://doi.org/10.1148/rg.312105201>
 27. Shin S., Klevan A., Fernandez CA, et al. Rendezvous technique for the treatment of complete common bile duct transection after multiple hepatobiliary surgeries. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2014; 24(10): 728–30. <https://doi.org/10.1089/lap.2014.0374>
 28. Meek J, Fletcher S, Crumley K, et al. Percutaneous rendezvous technique for the management of a bile duct injury. *Radiol Case Rep*. 2017; 13(1): 175–8. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2017.11.004>

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-338-342>

Оригинальная статья

© Чехова О.Г.¹, Останина В.А.¹, Шмаков А.Н.^{2,3}

Влияние проводниковой анестезии на систему гемостаза при реперфузионном синдроме конечности в детской травматологии-ортопедии

¹ГБУЗ Новосибирской области «Городская детская клиническая больница скорой медицинской помощи», 630007, Новосибирск, Российская Федерация;

²ГБОУ ВО «Новосибирский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 630091, Новосибирск, Российская Федерация;

³ГБУЗ Новосибирской области «Государственная новосибирская областная клиническая больница», 630087, Новосибирск, Российская Федерация

Введение. Активация системы гемостаза при синдроме ишемии-реперфузии является фактором риска тромбозмимических осложнений при выполнении ортопедических операций, связанных с наложением артериальных турникетов. Поэтому актуален поиск способов смягчения эффектов реперфузии при операциях данного типа.

Цель работы – установить наличие и характер влияния проводниковой анестезии на параметры тромбоэластограммы при реперфузии ишемизированной конечности после снятия турникета при ортопедических операциях у детей.

Материал и методы. В отделении травматологии и ортопедии ГБУЗ НСО «Городская детская клиническая больница скорой медицинской помощи» (ДГКБСМП) у 20 пациентов технология операции требовала наложения артериального турникета. Эти пациенты и стали участниками observationalного пилотного исследования.

Пациенты, у которых применялся турникет, методом блочной рандомизации были распределены на две группы: 1-я группа (10 человек) – с использованием периферических блокад и 2-я (10 человек) – без использования периферических блокад.

Основным методом исследования была тромбоэластография (ТЭГ) с использованием тромбоэластографа ТЭГ5000 (Haemonetics Corporation, США). Всем пациентам выполнялась тромбоэластограмма до наложения артериального турникета (1-й этап) и через 5 мин после его снятия (2-й этап). Оценивались основные показатели тромбоэластограммы: R, как мера прохождения I и II фаз свёртывания; K – время, характеризующее III фазу свёртывания; угол α , дублирующий информацию показателя «K»; MA – максимальная амплитуда расхождения ветвей ТЭГ, характеризующая плотность сгустка, которая, в свою очередь, определяется функцией активности тромбоцитов и количества фибриногена; LY30 – процент сгустка, лизированный за 30 мин.

Результаты. В группе с использованием региональной анестезии показатели R, K, угол α , MA на II этапе не изменились, показатель LY30 снизился на этапе 2; в группе без применения региональной анестезии, но с использованием мощного центрального анальгетика, отмечается уменьшение показателей R, K, MA; увеличение угла α и LY 30 на этапе 2.

Заключение. При ортопедических операциях у детей с наложением артериальных турникетов применение местного анестетика (ропивакаина) в методиках проводниковой анестезии препятствовало активизации системы гемостаза.

Ключевые слова: дети; тромбоэластограмма; проводниковая анестезия; артериальный турникет

Соблюдение этических стандартов. Исследование одобрено решением локального этического комитета (протокол № 2 от 30.05.2019) и проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Чехова О.Г., Останина В.А., Шмаков А.Н. Влияние проводниковой анестезии на систему гемостаза при реперфузионном синдроме конечности в детской травматологии-ортопедии. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 338-342. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-338-342>

Для корреспонденции: Чехова Ольга Геннадьевна, врач анестезиолог-реаниматолог отделения анестезиологии и реанимации ГБУЗ НСО «Городская детская клиническая больница скорой медицинской помощи», 630007, Новосибирск. E-mail: Golubkova89@bk.ru

Участие авторов: Чехова О.Г. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста, редактирование, утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи; Останина В.А. – концепция и дизайн исследования, написание текста; Шмаков А.Н. – статистическая обработка, редактирование, утверждение окончательного варианта статьи

Благодарность. Авторы выражают благодарность главному врачу ГБУЗ НСО «Городская детская клиническая больница скорой медицинской помощи» Заблоцкому Ростиславу Михайловичу, сотрудникам отделения травматологии-ортопедии ГБУЗ НСО «Детская городская клиническая больница скорой медицинской помощи» А.В. Ковалеву, А.Ю. Воробьеву, В.Г. Чемпосову, Х.И. Бадалину, Калмыкову И.И. и Садовской Ларисе Леонидовне – заведующей ФГБУН «Государственная публичная научно-техническая библиотека» СО РАН, мл. научн. сотр. лаборатории наукометрии.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 08 апреля 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликована: 30 ноября 2023

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-338-342>

Оригинальная статья / Original article

© Chekhova O.G.¹, Ostanina V.A.¹, Shmakov A.N.^{2,3}

The impact of conduction anesthesia at the hemostatic system in the limb reperfusion syndrome in pediatric traumatology-orthopedic practice

¹City Children's Clinical Emergency Hospital, 630007 Novosibirsk, Russian Federation

²Novosibirsk State Medical University, 630091 Novosibirsk, Russian Federation

³State Novosibirsk Regional Clinical Hospital, 630087 Novosibirsk, Russian Federation

Introduction. Activation of the hemostatic system in the ischemia-reperfusion syndrome is a risk factor for thromboembolic complications during orthopedic surgical interventions associated with arterial tourniquet application. Therefore, it is relevant to find ways to mitigate reperfusion effects during such surgeries.

Purpose. To find out character and effects of conduction anesthesia at the thromboelastogram parameters in the ischemic limb reperfusion after removing a tourniquet during orthopedic surgeries in children.

Material and methods. The surgery which was performed in 20 patients from the traumatologic department in the City Children's Clinical Emergency Hospital (Novosibirsk) required arterial tourniquet application. So, these patients were enrolled in the observational pilot study. The patients who had tourniquet application were distributed into two groups by the block randomization: Group 1 (n=10) – peripheral blockage; Group 2 (n=10) – no peripheral blockage. The basic technique used in the study was thromboelastography (TEG) with TEG5000 thromboelastograph (Haemonetics Corporation, USA). All patients had thromboelastography before tourniquet application (stage 1) and 5 minutes after its removal (stage 2). Main thromboelastogram parameters were assessed: R, measuring pathways for coagulation phases I and II; K – time, characterizing coagulation phase III; angle α , duplicating the information of "K" indicator; MA is the maximum amplitude of TEG branch divergence, characterizing the clot density which, in turn, depends on the function of platelet activity and on the amount of fibrinogen; LY30 is the percentage of clot lysed in 30 minutes.

Results. In the group with regional anesthesia, indicators R, K, angle α , MA did not change at stage II; LY30 index decreased at stage 2. In the group without regional anesthesia, but with powerful central analgesic, indicators R, K, MA decreased, and angle α and LY30 increased at stage 2.

Conclusion. In pediatric orthopedic surgeries with arterial tourniquet application, local anesthetic (Ropivacaine) in the conduction anesthesia technique prevented activation of the hemostatic system.

Key words: children; thromboelastogram; conduction anesthesia; arterial tourniquet

Compliance with ethical standards. The study was approved by the decision of the local ethics committee (protocol No. 2 dated 30.05.2019) and conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Chekhova O.G., Ostanina V.A., Shmakov A.N. The impact of conduction anesthesia at the hemostatic system in the limb reperfusion syndrome in pediatric traumatology-orthopedic practice. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 338-342. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-338-342> (In Russian)

For correspondence: Olga G. Chekhova, anesthesiologist, department of anesthesia and resuscitation, City Children's Clinical Emergency Hospital, 630007 Novosibirsk, Russian Federation. E-mail: Golukova89@bk.ru

Information about authors:

Chekhova O.G., <https://orcid.org/0000-0003-1952-0797>

Ostanina V.A., <https://orcid.org/0000-0002-6432-7147>

Shmakov A.N., <https://orcid.org/0000-0002-6214-3897>

Author contribution: Chekhova O.G. – study concept and design, material collection and processing, text writing, editing, approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article; Ostanina V.A. – study concept and design, text writing; Shmakov A.N. – statistical processing, editing, approval of the final version of the article.

Acknowledgement. The authors express their gratitude to Dr Rostislav Zablotsky, Chief Physician in the City Children's Clinical Emergency Hospital in Novosibirsk, to the staff of department of traumatology and orthopedics in the City Children's Clinical Emergency Hospital A.V. Kovalev, A.Y. Vorobyov, V.G. Champosov, H.I. Badalyan, I.I. Kalmykov and to L.L. Sadovskaya – head of the State Public Research and Technical Library, younger researcher in the laboratory of sciencemetrics.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: April 8, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Артериальные турникеты продолжают активно использоваться при операциях на конечностях у детей для улучшения визуализации операционного поля и снижения кровопотери, несмотря на возможные негативные последствия, создаваемые ишемией и следующей за ней реперфузией [1]. Синдром ишемии-реперфузии как универсальный процесс повреждения и дисфункции ишемизированного органа или тканей в результате восстановления артериального кровотока, проявляется нарушением целостности клеточных мембран, активацией процессов апоптоза и некроза клеток вследствие нарушения энергетического и трансмембранного ионного обмена с увеличением продукции активных форм кислорода. Гемодинамические и микроциркуляторные изменения в зоне ишемии в период реперфузии зависят не только от полноты и времени ишемии, но и от скорости реперфузии. Реперфузия ишемизированной зоны практически никогда не сопровождается мгновенным восстановлением кровотока до исходного уровня. Изменения локальной гемодинамики после реперфузии могут носить характер либо реактивной гиперемии с последующей нормализацией локального кровотока или падением кровотока ниже исходного (отсроченный феномен *no-reflow*), либо неполного восстановления кровотока, возникающего сразу после реперфузии (первичный феномен *no-reflow*). Возможна также паралитическая дилатация сосудов в ответ на ишемию, сроки которой намного превышают критические.

Так как феномен *no-reflow* является ведущим проявлением постишемических нарушений локальной гемодинамики, представляет интерес характер сосудистых изменений, приводящий к его появлению. В настоящее время известно, что причиной феномена *no-reflow* являются нарушения кровотока на уровне микроциркуляторного русла, вызванные рядом факторов, из которых значительная роль принадлежит сужению просвета капилляров поврежденным и отечным сосудистым эндотелием, сдавлению мелких сосудов, нарастающим в реперфузионном периоде внеклеточным и внутриклеточным отеком, нарушениям микроциркуляции, обусловленным агрегацией и адгезией элементов крови [2, 3]. Особого внимания заслуживает функция сосудистого эндотелия как регулятора тонуса сосудистой стенки, что связано с его способностью к выработке простаглицина, образованию «контрактильного» фактора с выделением вазоактивных аминов при контакте с клеточными элементами крови. Таким образом, повреждение эндотелия и его гликокаликса, как в период ишемии, так и в процессе реперфузии, может привести не только к механической закупорке капилляров, но и к индукции или усилению стойкой сосудистой вазоконстрикции [3].

Повреждение тканей при реперфузионных расстройствах и связанное с ним развитие воспалительной реакции рассматриваются в качестве ключевых звеньев патогенеза коагуляционных и сосудисто-тромбоцитарных нарушений, поскольку являются одной из причин возникновения эндотелиальной дисфункции, повышения активности тромбоцитов, активации плазменных факторов свертывания, нарушений функций физиологических антикоагулянтов и подавления фибринолитической активности [4].

Развивающиеся нарушения в системе гемостаза могут варьировать от локального венозного тромбообразования до формирования тяжелых нарушений гемостаза, вплоть до массивного тромбообразования с тромбозом легочной артерии и последующим возникновением эпизодов кровотечения вследствие потребления факторов свертывания [5, 6].

Местные анестетики, применяемые при региональной анестезии, являются блокаторами медленных натрий-кальциевых каналов и дозозависимыми вазодилататорами, в связи с чем логично предположить, что данные препараты, замедляя поток Na^+ в клетки во время ишемии, могут минимизировать повреждение эндотелиоцитов и будут снижать выраженность реперфузии после снятия турникета [7]. Наиболее привлекательным препаратом для проводниковой и региональной внутривенной анестезии считается ропивакаин, поскольку выпускается в виде «S»-энантиомера, что значительно снижает потенциальную кардиотоксичность [7]. В отдельных сообщениях описано пролонгированное анальгетическое действие ропивакаина при региональной внутривенной анестезии после исчезновения сенсорного блока [8]. Активность сосудисто-тромбоцитарного гемостаза удобно и оперативно отражается при записи тромбоэластограммы (ТЭГ) как метода оценки вязкоэластических свойств тромба. Изменения ТЭГ в связи с реперфузией в условиях проводниковой анестезии гипотетически могут быть сглажены, отражая меньшую агрессивность реперфузионных поражений [9, 10].

Цель работы – установить наличие и характер влияния проводниковой анестезии на параметры тромбоэластограммы при реперфузии ишемизированной конечности после снятия турникета при ортопедических операциях у детей.

Материал и методы

В отделении травматологии и ортопедии ГБУЗ Новосибирской области «Городская детская клиническая больница скорой медицинской помощи» (ДКБСМП) у 20 пациентов, прооперированных в 2021 г., технология операции требовала наложения артериального турникета. Эти пациенты стали участниками проспективного пилотного исследования. Исследование одобрено решением локального этического комитета (протокол № 2 от 30.05.2019). Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании. Пациенты, у которых применялся турникет, методом блочной рандомизации были распределены в две группы: 1-я – с использованием периферических блокад (10 человек) и 2-я – без использования периферических блокад (10 человек).

Основным методом исследования была ТЭГ с использованием тромбоэластографа ТЭГ5000 (Haemonetics Corporation, США). Всем пациентам тромбоэластограмму записывали до наложения артериального турникета (1-й этап) и через пять минут после его снятия (2-й этап).

Для численной характеристики параметров ТЭГ анализировали основные участки полученной фигуры: *R* – время от начала записи до расширения ветвей ТЭГ на 1 мм, характеризует I и II фазы свертывания (референсные значения 9–14 мин); *K* – время расширения ветвей ТЭГ с 1 до 20 мм, отражающее III фазу свертывания (референсные значения 5–8 мин); угол α , дублирующий значения *K*; *MA* – максимальная амплитуда ветвей ТЭГ, отражающая плотность сгустка, зависящую, в свою очередь, от качества агрегации тромбоцитов фибриновыми мостиками; *LY30* – процент сгустка, лизированный за 30 мин (не должен превышать 8%, но даже значения $>3\%$ связаны с риском кровотечений).

Группы отличались по виду анестезиологического обеспечения операций. В 1-й группе применялся севофлуран: для индукции в концентрации 8 об.%, для поддержания анестезии 3–2,5 об.% (1–1,2 МАК). В качестве

Таблица 1 / Table 1

Возрастной состав и время турникетной ишемии в исследуемых группах
Age parameter and time of tourniquet ischemia in the studied groups

Показатель	1-я группа, n = 11	2-я группа, n = 6
Возраст (лет)	6 [3; 5; 9; 14]	6 [4; 5; 10; 14]
Время турникетной ишемии (мин)	60 [20; 55; 75; 90]	53 [30; 50; 68; 90]

Таблица 2 / Table 2

Динамика анализируемых показателей в выделенных группах на этапах наблюдения
Dynamics of analyzed parameters in the selected groups at observation stages

Параметр ТЭГ	Этап	1-я группа, n = 10	2-я группа, n = 10	Отличие значений показателей в 1-й и 2-й группах на этапе 2 (критерий Манна – Уитни) p
R (мин)	1	12,7 [4,8; 10,5; 17,1; 23,9]	13,0 [9,6; 12,2; 15,6; 29,5]	0,021
	2	12,4 [6,5; 8,1; 14,8; 17,4]	8,1 [1,5; 2,5; 10,5; 11,2]**	
K (мин)	1	6,4 [1,8; 5,7; 7,2; 7,9]	5,9 [3,9; 5,2; 7,2; 9,9]	0,025
	2	5,2 [3,5; 4,5; 7,9; 8,0]	3,0 [1,2; 2,5; 5,6; 5,8]**	
α (°)	1	30,7 [23,3; 26,0; 35,5; 67,2]	34,2 [20,1; 22,5; 36,5; 47,2]	0,007
	2	37,1 [14,5; 25,0; 38,1; 46,8]	52,8 [32,5; 38,1; 59,8; 73,9]**	
МА (мм)	1	50,4 [40,9; 46,5; 57,4; 63,4]	54,4 [35,3; 48,1; 57,3; 59,2]	0,076
	2	53,1 [41,9; 48,1; 55,4; 61,4]	62,1 [36,7; 61,8; 64,0; 68,4]*	
LY30 (%)	1	0,1 [0; 0; 1,5; 11,5]	0,15 [0; 0,1; 0,4; 6,9]	0,515
	2	1,2 [0; 0,3; 2,1; 3,7]	1,7 [0; 0,7; 2,5; 7,3]	

Примечание. * – p < 0,05; ** – p < 0,02 по отношению к этапу 1 (критерий Уилкоксона).

искусственных дыхательных путей использовали ларингеальную маску с сохранением спонтанного дыхания. Основной методикой обезболивания была проводниковая анестезия ропивакаином 0,2% – 2 мг/кг. Проводились блокады бедренного и седалищного нервов, плечевого сплетения подмышечным и межлестничным доступами под ультразвуковым контролем.

Во 2-й группе региональные блоки не выполняли. Для индукции использовали севофлюран в концентрации 8 об.%. Для поддержания анестезии применяли севофлюран в концентрации 3–2,5 об.% (1–1,2 МАК). Проподимость дыхательных путей в этой группе обеспечивали интубацией трахеи после миорелаксации атракурия безиламом 0,5 мг/кг с дальнейшим переводом на управляемую вентиляцию лёгких, все пациенты экстубированы в операционном зале. Основным анальгетиком был фентанил в дозе 5 мкг/кг в час.

Для математической обработки полученных результатов использовали только методы непараметрической статистики: для сравнений типа «до – после» критерий Уилкоксона, для сравнений сумм рангов двух независимых групп

тест Манна – Уитни, ранговый корреляционный анализ по Спирмену. Проверка нормальности распределения не требовалась, поскольку на результаты применения непараметрических тестов вид распределения не влияет. Результаты представлены в виде: медиана (Me); минимум (min); 25-й центиль (Q₂₅); 75-й центиль (Q₇₅); максимум (max).

В 1-й группе мальчиков было 6, во 2-й – 7 (p = 0,896; двусторонний точный критерий Фишера). Средний возраст пациентов и время турникетной ишемии представлены в табл. 1, по гендерному, возрастному признакам и времени ишемии группы полностью репрезентативны.

В табл. 2 представлены полученные результаты. Исходные величины в группах были идентичны, но к этапу 2 однонаправленно изменились. При этом параметры ТЭГ, отражающие активацию I–III фаз свёртывания, у пациентов 1-й группы незначительно изменились к этапу 2, а у пациентов 2-й группы статистически значимо снизилось время R и K и увеличился угол α, как при сравнении с этапом 1, так и относительно показателей на данном этапе в 1-й группе. Для показателя МА отмечена та же динамика, но увеличение амплитуды, более выраженное на этапе 2

Таблица 3 / Table 3

Корреляционные связи времени турникетной ишемии с исследуемыми параметрами ТЭГ на этапе 2 (коэффициент Спирмена r)
Correlations of the time of tourniquet ischemia and studied TEG parameters at stage 2 (Spearman coefficient r)

Сравниваемые показатели	1-я группа, n = 10			2-я группа, n = 10		
	r	r ²	p	r	r ²	p
R (мин)	-0,527	0,278	0,113	-0,448	0,200	0,191
K (мин)	-0,570	0,325	0,088	-0,515	0,265	0,123
α (°)	0,358	0,128	0,296	0,539	0,291	0,104
МА (мм)	-0,006	0,00004	0,973	0,342	0,117	0,313
LY30 (%)	0,509	0,259	0,133	-0,067	0,004	0,838

для 2-й группы, недостоверно превышало значение в 1-й группе. Показатель LY30 статистически недостоверно повысился в обеих группах, но только у одного пациента во 2-й группе приблизился к величине, близкой к 8%.

Для оценки влияния времени турникетной ишемии на исследуемые показатели выполнили ранговый корреляционный анализ, результаты которого отражены в табл. 3.

Ни в одной паре нулевая гипотеза не могла быть отвергнута в связи с эффектом «малой выборки» ($p > 0,05$), поэтому оценивали только тенденции. В 1-й группе выявлены слабые обратные корреляционные связи времени ишемии с R и K (прямых совпадений по критерию r^2 28 и 32,5% соответственно) и прямая корреляция с LY30 (26% прямых совпадений). Во 2-й группе также проявились слабые обратные корреляционные связи времени ишемии с R и K (прямых совпадений 20 и 26,5% соответственно) и прямые с величиной угла α и МА (прямых совпадений, соответственно, 29 и 18%).

Обсуждение

Полученные результаты свидетельствовали об активации процессов тромбообразования после реперфузии в отсутствие проводниковой блокады и нивелировании этих процессов в присутствии ропивакаина в реперфузируемой зоне. Статистически значимо продемонстрировали эти различия показатели, характеризующие I и II фазу образования сгустка (R и K). Можно предполагать, что тромбообразование у пациентов 2-й группы характеризовалось высокой скоростью образования сгустка (более высокие значения угла α на этапе 2) и меньшей его плотностью (более высокие значения МА) по сравнению с пациентами 1-й группы, но этот феномен требует подтверждения при анализе более крупных выборок. Существенных различий скорости фибринолиза по критерию LY30 не получено.

Заключение

ТЭГ демонстративно отражала реперфузионно обусловленные изменения сосудисто-тромбоцитарного гемостаза, в связи с чем должна быть рутинным методом регистрации риска тромботических осложнений в раннем послеоперационном периоде при операциях, связанных с временным прекращением кровотока в оперируемой зоне.

Региональные блокады могут считаться фактором защиты эндотелиоцитов в реперфузируемой зоне благодаря способности местных анестетиков снижать скорость перераспределения Na^+ во внутриклеточное пространство.

Благодарность. Авторы выражают благодарность главному врачу ГБУЗ НСО «Городская детская клиническая больница скорой медицинской помощи» Заблоцкому Ростиславу Михайловичу, сотрудникам отделения травматологии-ортопедии ГБУЗ НСО «Детская городская клиническая больница скорой медицинской помощи» А.В. Ковалеву, А.Ю. Воробьеву, В.Г. Чемпосову, Х.И. Бадаляну, И.И. Калмыкову и Садовской Ларисе Леонидовне – заведующей ФГБУН «Государственная публичная научно-техническая библиотека» СО РАН, мл. научн. сотр. лаборатории наукометрии.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Чехова О.Г., Останина В.А., Шмаков А.Н. Влияние проводниковой анестезии на реперфузию конечности в детской ортопедии. *Детская хирургия*. 2020; 24(5): 317–22.
2. Небылицин Ю.С., Лазуко С.С., Кутько Е.А. Синдром ишемии-реперфузии нижних конечностей. *Вестник ВГМУ*. 2018; 17(6): 18–31.
3. Биленко М.В. *Ишемические и реперфузионные повреждения органов*. М.: Медицина; 198г.
4. Maegele M., Spinella P.C., Schoechl H. The acute coagulopathy of trauma: mechanisms and tools for risk stratification. *Shok*. 2012; 38 (5): 450–8. <https://doi.org/10.1097/SHK.0B013e31826dbd23>
5. Oshiro A., Yanagida Y., Gando S., Henzan N., Takahashi I., Makise H. Hemostasis during the early stage of trauma: comparison with disseminated intravascular coagulation. *Critical care*. 2014, 18: 61–3. <https://doi.org/10.1186/cc13816>
6. Лищук А.Н., Есипов А.В., Нерасимова Ю.В., Староконь П.М., Лобанова Т.Н. Значение тромбозластографии при коррекции нарушений гемостаза у кардиохирургических пациентов. *Госпитальная медицина: наука и практика*. 2022; 5(5): 31–6.
7. Малрой Ы.Ф., Бернардс К.М., Макдональд С.Б., Салинас Ф.В. и др. *Местная анестезия: практическое руководство, пер. с англ. Под ред. Евдокимова Е.А. 4 изд.* М.: БИНОМ. Лаборатория знаний; 2017: 245–1.
8. Hartmannsgruber M.W., Silverman D.G., Halaszynski T.M. et al. Comparison of ropivacaine 0,2% and lidocaine 0,5% for intravenous regional anesthesia in volunteers. *Anest. Analg.* 1999; 89: 727.
9. Willis J. et al. Thromboelastography: a review for radiologists and implications on periprocedural bleeding risk. *Abdominal Radiology*. 2022; 47(8): 2697–703.
10. Кострова О.Ю., Стоменская И.С., Тимофеева Н.Ю. и др. Тромбозластография в оценке системы гемостаза у реанимационных больных. *Acta Medica Eurasica*. 2021; (3): 18–25.

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-343-352>

Обзорная статья

© Петрова А.Ф.¹, Коварский С.Л.^{1,2}, Петров А.В.¹

Сравнение резекционных и эндопиелотомических методов лечения рецидивирующей обструкции пиелoureтерального сегмента у детей: систематический обзор и мета-анализ

¹Кафедра детской хирургии имени академика Ю.Ф. Исакова ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 117997, Москва, Российская Федерация;

²ГБУЗ города Москвы «Детская городская клиническая больница имени Н.Ф. Филатова» Департамента здравоохранения города Москвы, 103001, Москва, Российская Федерация

Введение. Отсутствие единого лечебно-диагностического протокола ведения детей с повторной обструкцией пиелoureтерального сегмента после уретеропиелопластики побудило нас провести систематический обзор с мета-анализом публикаций, в которых изучались показания и эффективность резекционных и эндопиелотомических методов.

Материал и методы. При первичном отборе было найдено 276 и 1470 результатов с помощью баз данных PubMed и Google Scholar соответственно. Из первоначально идентифицированных результатов поиска проведён анализ 5 статей. Дизайн статей соответствовал когортным исследованиям.

Результаты. Общее количество пациентов с рецидивом гидронефроза составило 156. Все включённые в настоящий обзор пациенты были детьми от 0 до 18 лет. В исследованиях проводилось сравнение успешности резекционных и эндопиелотомических методов лечения рецидива гидронефроза у детей. Применение первых сопровождалось статистически значимым возрастанием средневзвешенного риска благоприятного исхода на 68% ($p = 0,001$) при оценке в модели фиксированных эффектов. Средний срок наблюдения пациентов после эндопиелотомии составил 36,6 мес, в то время как после резекционных пиелопластик – 45,3 мес. При анализе осложнений преобладающее большинство пришлось на долю резекционных методов. Однако при выполнении мета-анализа данный факт оказался статистически не значимым ($p = 0,55$).

Заключение. Полученные результаты подчёркивают высокую эффективность резекционных методик в качестве метода лечения рецидива гидронефроза у детей, однако, в связи с высокой гетерогенностью исследований и риском публикационного смещения, данный систематический обзор требует включения большего количества исследований с развёрнутой характеристикой пациентов и статическим обоснованием методов лечения.

Ключевые слова: врождённый гидронефроз у детей; рецидив гидронефроза у детей; неудачная пиелопластика; повторная обструкция пиелoureтерального сегмента; вторичная обструкция пиелoureтерального сегмента

Для цитирования: Петрова А.Ф., Коварский С.Л., Петров А.В. Сравнение резекционных и эндопиелотомических методов лечения рецидивирующей обструкции пиелoureтерального сегмента у детей: систематический обзор и мета-анализ. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 343-352. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-343-352>

Для корреспонденции: Петрова Айсель Фаризовна, врач-детский хирург, эндоскопист, соискатель кафедры детской хирургии имени академика Ю.Ф. Исакова ФГАОУ ВО «РНИМУ им. Н.И. Пирогова» МЗ РФ, Москва. E-mail: aysel1494@gmail.com

Участие авторов. Все соавторы внесли равнозначный вклад в исследование и подготовку статьи к публикации, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 29 марта 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-343-352>

Review article

© Petrova A.F.¹, Kovarskiy S.L.^{1,2}, Petrov A.V.¹

Comparison of resection and pyelotomic techniques for treating the recurrent pyeloureteral segment in children: A systematic review and meta-analysis

¹Pirogov Russian National Research Medical University, 117997 Moscow, Russian Federation;

²Filatov Children's Municipal Hospital, 103001 Moscow, Russian Federation

Introduction. The lack of unified therapeutic and diagnostic protocol for managing children with relapsed obstruction of the pyeloureteral segment after ureteropyeloplasty has stimulated us to make a systematic review with meta-analysis on publications that studied indications and effectiveness of resection and endopyelotomic techniques.

Material and methods. Primary selection found 276 and 1470 sources in PubMed and Google Scholar database. After reviewing them, five publications were taken for the analysis. The design of the articles was consistent with cohort studies.

Results. The total number of patients with recurrent hydronephrosis was 156. All patients included in the review were children aged from 0 to 18 years. The present trial compared the effectiveness of resection and endopyelotomic techniques in treating recurrent hydronephrosis in children. When evaluating fixed effects in the model, the resection techniques showed a statistically significant increase in the weighted average risk of favorable outcomes by 68% ($p = 0.001$). The average follow-up period of patients after endopyelotomies was 36.6 months, and after resection pyeloplasty – 45.3 months. While analyzing complications, the majority of them predominated in the resection techniques. However, while performing the meta-analysis, this parameter turned out to be statistically insignificant ($p = 0.55$).

Conclusion. The results obtained emphasize high effectiveness of resection techniques as a method for treating recurrent hydronephrosis in children; however, due to high heterogeneity of studies and due to the risk of publication bias, this systematic review requires inclusion of more studies with detailed characteristics of patients and static justification of curative modalities.

Keywords: congenital hydronephrosis, children, hydronephrosis relapse, failed pyeloplasty, re-obstruction of ureteropelvic junction, secondary obstruction of pyeloureteral segment

For citation: Petrova A.F., Kovarskiy S.L., Petrov A.V. Comparison of resection and pyelotomic techniques for treating the recurrent pyeloureteral segment in children: A systematic review and meta-analysis. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 343-352. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-343-352> (In Russian)

For correspondence: Aysel Petrova, department of pediatric surgery, Pirogov Russian National Research Medical University, 117997 Moscow, Russian Federation. E-mail: aysel1494@gmail.com

Information about authors

Petrova A.F., <https://orcid.org/0000-0003-4367-7153>

Kovarskiy S.L., <https://orcid.org/0000-0001-6310-7110>

Petrov A.V., <https://orcid.org/0009-0001-4368-4022>

Author participation. All co-authors made an equal contribution to the research and preparation of the article for publication, read and approved the final version before publication.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: March 29, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Хирургическое лечение врожденной обструкции пиелoureтерального сегмента (ПУС) в 90% случаев является успешным [1–36]. «Золотым» стандартом на протяжении более 60 лет считается разобщающаяся пиелопластика по Хайнс–Андерсон–Кучера с успешностью до 96% [37]. Тем не менее, частота рецидива гидронефроза составляет 5–10% всех первичных уретеропиелопластик и зачастую требует повторного оперативного вмешательства [2, 9–22, 30]. В настоящий момент нет единого алгоритма лечения пациентов с повторной обструкцией ПУС [1–33]. Это обуславливает в том числе и дифференцированный подход к оценке причин неуспешной хирургической коррекции.

Диагностические критерии рецидива гидронефроза на настоящий момент не стандартизированы [28, 33].

Вторичная обструкция ПУС после оперативного лечения, как правило, имеет клиническое проявление. Однако

стоит учесть, что для определения показаний к повторному хирургическому лечению клиническая картина должна соотноситься с данными инструментальной диагностики.

Отсутствие единого мнения среди клинического сообщества относительно диагностических критериев и методов оперативного лечения рецидива гидронефроза побудило нас провести систематический обзор с мета-анализом публикаций, в которых сравнивалась эффективность резекционных пластических и эндоурологических методов лечения рецидива гидронефроза у детей. В качестве эндоурологических методов нами рассматривались методы эндопиелотомии.

Материал и методы

Из общего количества результатов поиска были исключены данные, не соответствующие цели поиска (рис. 1). При поэтапном анализе аннотаций по критериям включения и исключения осталось 7 статей. При изучении полно-



Рис. 1. Алгоритм отбора публикаций.
Fig. 1. Algorithm for publication selection.

текстовых копий отобранных публикаций критериям отбора соответствовали только 5 статей.

Поиск публикаций и отбор исследований. Алгоритм поиска информации был разработан в соответствии с требованиями и положениями отчётности для систематических обзоров и метаанализов (PRISMA) [38] в базах данных PubMed и Google Scholar и включал поиск исследований с использованием поисковых запросов, ключевых слов (в том числе MeSH) и логических операторов. Согласно поставленной цели поиска, тезисы докладов, протоколы заседаний, книги, клинические случаи и серии случаев не использовались. Английский язык был установлен в качестве языкового ограничения. Двое из авторов независимо друг от друга изучили заголовки и аннотации публикаций на соответствие критериям включения, возникшие разногласия решили путём переговоров.

Ключевые слова в базе данных PubMed: ((secondary ureteropelvic junction obstruction) OR (failed pyeloplasty) OR (recurrent ureteropelvic junction obstruction)) AND ((children) OR (pediatric)).

Для поиска в базе данных Google Scholar использовали запрос: secondary ureteropelvic junction obstruction, failed pyeloplasty, recurrent ureteropelvic junction obstruction, children, pediatric.

Поиск осуществлялся с 1 января 2000 г. по 7 ноября 2022 г.

Критерии включения/исключения. В систематический обзор включались публикации о пациентах с повторной обструкцией в лоханочно-мочеточниковом сегменте (ЛМС) после проведённой уретеропиелопластики (открытой/лапароскопической/роботизированной) и нуждающихся в повторном оперативном вмешательстве. Из заданных исследований мы рассматривали только те, где сравнивались различные реконструктивно-пластические и эндопиелотомические методы лечения рецидива гидронефроза. Наличие сопутствующей патологии мочевого пузыря, почки и мочеточника с ипсилатеральной

стороны было отнесено к критериям исключения. Также к критериям исключения относился возраст старше 18 лет. Обязательным условием включения публикаций в метаанализ было наличие данных о методах лечения, течении послеоперационного периода, наличии осложнений и клинических исходах. Следует подчеркнуть, что количество включённых в публикацию пациентов не являлось для нас определяющим фактором отбора.

Извлечение и синтез данных исследований. При первичном отборе с использованием вышеописанных поисковых запросов было получено 276 (PubMed) и 1470 результатов с помощью базы данных Google Scholar. Из найденных 1746 результатов после анализа заголовков и их аннотаций непосредственно поставленной цели соответствовали 7 публикаций. Оценка полнотекстовых копий привела к исключению 2 публикаций. В одной из них не указывалось точное количество проведённых эндопиелотомий, а в другом рассматривались как дети, так и взрослые. Таким образом, из первоначально идентифицированных результатов поиска сводные количественные данные 5 статей (0,29%) были обработаны с помощью статистического анализа [2, 9, 10, 20, 30]. Дизайн статей соответствовал когортным исследованиям (см. рис. 1).

Во всех изучаемых исследованиях представлено ранжирование в зависимости от метода лечения, указаны показания к повторной операции, описана техника оперативных вмешательств и представлено абсолютное и относительное количество успешных вмешательств, а также способы лечения неудовлетворительных результатов. В ряде публикаций указываются критерии успешности вмешательства, средняя продолжительность госпитализации, средние сроки послеоперационного наблюдения в каждой группе и результаты измерения протяжённости сужения ПУС и связь с результатом эндопиелотомии, до- и послеоперационные данные инструментальных исследований.

Таблица 1 / Table 1

Распределение пациентов по категориям в соответствии с видом оперативного вмешательства
Distribution of patients by categories according to the type of surgical intervention

Автор исследования, год, страна	Период сбора данных, годы	Включённая когорта пациентов	Общее число исследуемых и их распределение	Вмешательства при рецидиве гидронефроза	
				первичные	повторные
А.М. Abdrabuh и соавт. [2], 2018, Египет	2010–2015	Дети от 0 до 18 лет, перенесшие ОП и ЛП по Хайнс–Андерсону, с повторной обструкцией ПУС	Всего: 223 РГ: 43	16 ОП; 2 АЭП; 17 РЭП «холодный нож»; 8 РЭП «гольмиев лазер»;	6 вторичных ПП
Е. Seyhan и соавт. [10], 2020 Турция	2000–2017		РГ: 44	19 ОП 18 РЭП	7 вторичных ПП 6 третичных ПП 1 четвертичная ПП
R.L.P. Romao и соавт. [30], 2013, Канада	2000–2010		Всего: 455 РГ: 27	11 ОП; 2 ЛП; 4 УК; 18 РЭП	14 вторичных ПП 5 третичных ПП
L.H.P. Braga и соавт. [9], 2007, Канада	1996–2006		Всего: 524 РГ: 32	10 ОП; 2 ЛП; 2 УК; 10 РЭП «гольмиев лазер» 8 РЭП с баллонной дилатацией	11 вторичных повторных вмешательств: РЭП – 5, АЭП – 2, ОП – 4 4 третичных повторных вмешательств: РЭ – 1, ОП – 2, АЭ – 1
L. Leung и соавт. [20], 2016, Китай	2002–2013	Дети от 0 до 18 лет, перенесшие ЛП по Хайнс–Андерсону с повторной обструкцией ПУС	Всего: 42 РГ: 10	1 ОП; 4 ЛП; 1 РП; 1 ЭП	2 вторичных ПП

Примечание. РГ – рецидив гидронефроза; ОП – открытая пиелопластика; ЛП – лапароскопическая пиелопластика; РП – роботизированная пиелопластика; УК – уретерокаликаноанастомоз; ЭП – эндопиелотомия; РЭП – ретроградная эндопиелотомия; АЭП – антеградная эндопиелотомия; ПП – повторная пиелопластика

Риск систематической ошибки. Оценка валидности и методологического качества отобранных нерандомизированных исследований проводилась с использованием шкалы QUIPS (Quality In Prognosis Studies) [39], в которой учитывались риски систематической ошибки по 6 доменам: 1) полнота данных об участниках исследования; 2) оценка влияния выбытия участников на результаты исследования; 3) адекватность оценки прогностического фактора; 4) адекватность оценки результирующей переменной; 5) влияние вмешивающихся факторов; 6) статистический анализ и представление результатов исследования. Мы использовали систему оценки риска: низкую, умеренную и высокую. Все включённые исследования имели низкий риск систематических ошибок [2, 9, 10, 20, 30].

Статистический анализ. Статистическая обработка данных выполнялась в программе Review Manager (RevMan), версия 5.4.1 (The Cochrane Collaboration, 2020). Мета-анализ проводился по модели фиксированных и случайных эффектов, с применением метода обратной дисперсии. Результаты мета-анализа представлялись в виде блобограммы (forest plot). Оценка статистической гетерогенности выполнялась с использованием критерия χ^2 Пирсона ($p < 0,1$ – наличие статистически значимой гетерогенности; $p \geq 0,1$ – статистически значимая гетерогенность отсутствует), а также индекса гетерогенности I² (0–40% – незначительная гетерогенность, 30–60% – умеренная гетерогенность, 50–90% – значительная гетерогенность, 75–100% – высокая гетерогенность). В нашем систематическом обзоре отмечалась значительная гетерогенность публикаций, в связи с чем мета-анализ проведён по модели фиксированных эффектов.

Мета-анализ различий категориальных показателей в исследуемых группах выполнялся по дихотомическим данным с учётом числа исследуемых в сравниваемых группах. Эффект считался статистически значимым при $p < 0,05$. Оценка риска публикационного смещения про-

изводилась при построении воронкообразной диаграммы (Funnel plot).

Результаты

Общая характеристика пациентов. Общее количество случаев рецидива гидронефроза (РГ) составило 156 (табл. 1). Включённые пациенты являлись детьми от 0 до 18 лет, которым ранее была проведена разобщающаяся пиелопластика открытым или лапароскопическим способом. Продолжительность сбора данных была от 5 до 17 лет. В 2 публикациях (А.М. Abdrabuh [2] и L. Braga [9]) описано сравнение только методов резекционной пиелопластики и эндопиелотомии в лечении РГ. В других исследованиях эти методы описаны наряду с другими (стентирование двойным J-стендом, пункционная нефростомия, баллонная дилатация). Во всех исследованиях указываются неудачные результаты лечения и методы их коррекции.

Исходные параметры пациентов. Характеристика исходных параметров пациентов указана в сводной таблице 2. Распределение по полу было указано только в 2 из 5 публикаций (74,4 и 82% мальчиков), сторона поражения – в 3 из 5 (поражённая почка слева в 44,2, 43 и 72% рецидивов гидронефроза). Степень гидронефроза перед вторым вмешательством была отмечена в 2 исследованиях (3-я степень у 23 и 15 пациентов, 4-я степень у 18 и 28 пациентов соответственно в исследованиях Е. Seyhan и соавт. [10] и А.М. Abdrabuh и соавт. [2]). Данные об исходной дифференциальной функции почки предоставляют А.М. Abdrabuh и соавт. [2] и L. Leung и соавт. [20]. Только А.М. Abdrabuh и соавт. указали исходные данные о толщине паренхимы и ранжирование степени гидронефроза и дифференциальной функции почки по группам.

В 2 публикациях перед вторичным вмешательством сравнивалась длина суженного сегмента по результатам ретроградной пиелографии для оценки взаимосвязи с ис-

Таблица 2 / Table 2

Синopsis исследований, включенных в систематический обзор
Synopsis of the studies included in the systematic review

Автор исследования, год, страна	Дизайн исследования	Исходные параметры пациентов
A.M. Abdrabuh и соавт. [2], 2018, Египет	РК	Возраст и пол пациента, ретроградная пиелография с измерением длины суженного сегмента мочеточника, гидронефроза по шкале SFU*, отдельная почечная функция (SRF), толщина паренхимы
E. Seyhan и соавт. [10], 2020 Турция	РК	Средний возраст пациентов и пол, степень гидронефроза (по шкале SFU), передне-задний диаметр почечной лоханки
R.L.P. Romao и соавт. [30], 2013, Канада	РК	Возраст и пол пациента, вид первичного вмешательства (открытая или лапароскопическая), наличие aberrантных сосудов при первой операции и последующих вмешательствах, метод диагностики рецидива. В некоторых случаях рассчитана разница SRF перед первичным и вторичным вмешательством
L. Leung и соавт. [20], 2016, Китай	РК	Возраст пациентов, показания к первичной пиелопластике, детали операции и исходы первичной операции, тип(ы) повторного вмешательства, показания к повторному вмешательству, разрешение обструкции, изменение дифференциальной функции почек.
L.H.P. Braga и соавт. [9], 2007, Канада	РК	Возраст пациента, распределение по полу, установка стента при начальной пиелопластике, ретроградная пиелография с измерением длины суженного сегмента мочеточника, измеренной на цифровой рентгенографии с помощью электронного штангенциркуля

Примечание. * SFU – классификация степени гидронефроза общества фетальных урологов, предложенная Open в 2007 г. (основывается на измерении переднезаднего размера лоханки и степень повреждения паренхимы). РК — ретроспективное когортное, УЗИ – ультразвуковое исследование, ПУС – пиелоретральный сегмент, SFR – отдельная оценка функции почки, ЧЛС – чашечно-лоханочная система, ПП – повторная пиелопластика.

ходом эндопиелотомии. В исследованиях A.M. Abdrabuh и соавт. и L. Braga и соавт. средняя длина суженного сегмента в группе успешных эндопиелотомий составила 5,8 и 10 мм, а в группе неуспешных – 10,1 и 17,8 мм соответственно. В связи с отсутствием указания стандартного отклонения, мета-анализ по длине суженного сегмента провести не удалось.

Показания к проведению повторного оперативного вмешательства. Понятие «рецидив гидронефроза» во всех исследованиях характеризовалось как вновь возникший гидронефроз, требующий повторных хирургических манипуляций. В качестве показаний для выполнения повторного вмешательства при рецидиве гидронефроза A.M. Abdrabuh и соавт. [2] указывают 3 основных пункта – болевой синдром и инфекции мочевыводящих путей (ИМП), бессимптомная обструкция ПУС с ухудшением функции почки после первичной пиелопластики и наличие длительного послеоперационного дренирования в связи с пионефрозом. В свою очередь E. Seyhan и соавт. [10] ориентировались на наличие нарастающего расширения чашечно-лоханочной системы (ЧЛС), обструктивную картину, по данным динамической сцинтиграфии, а также на наличие болевого синдрома. R. Romao и соавт. [30], L. Leung и соавт. [20] и L. Braga и соавт. [9] были солидарны с другими авторами в вопросах наличия клинической симптоматики, ИМП и постепенного увеличения размеров лоханки и чашечек в послеоперационном периоде. Кроме того, L. Leung и соавт. дополняют показания тем, что неудачная пиелопластика определялась как снижение дифференциальной функции почек менее чем на 40%.

Выбор и технические аспекты повторных хирургических вмешательств. Выбор метода повторного оперативного вмешательства большинством авторов исходил из личных предпочтений. Однако A.M. Abdrabuh и соавт. [2] и E. Seyhan и соавт. [10] обращают внимание на то, что при значительном расширении лоханки (степень и размеры не указываются), наличии перегиба мочеточника и протяженной зоны стеноза в области ПУС (более 1,0 см, по данным E. Seyhan и соавт.) предпочтение отдавалось резекционным пластическим методикам.

Применяемые авторами резекционные реконструктивно-пластические операции представлены уретеропиелопластикой открытым, лапароскопическим или роботизированным способами по Хайнс–Андерсону, а также уретерокаликостомией. Среди эндоурологических методов описываются эндопиелотомия ретроградным или антеградным способом, баллонная дилатация и стентирование лоханки.

Цель исследования – сравнение резекционных методов непосредственно с эндопиелотомическими в лечении рецидива гидронефроза у детей после неудачных первичных разобщающих пиелопластик открытым или лапароскопическим способом.

В качестве резекционных пластических методов A.M. Abdrabuh и соавт. [2] и E. Seyhan и соавт. [10] использовали только открытую пиелопластику, в то время как остальные авторы описывают и иные методы. Эндопиелотомия выполнялась в основном ретроградным способом с использованием «холодного резания», гольмиева лазера или последующей баллонной дилатацией. Стоит отметить, что L. Braga и соавт. [9] в своих исследованиях описывают антеградную эндопиелотомию как метод повторного лечения рецидива гидронефроза, несмотря на неудачу ретроградного метода при первичном лечении рецидива, с успешным исходом. Во всех случаях в конце вмешательства устанавливался двойной J-стент на сроки от 6 до 12 нед.

Причины рецидива гидронефроза. В качестве причин повторно возникшей обструкции авторы в основном указывали на рубцовые изменения с формированием стеноза области ПУС. К тому же пропущенные aberrантные сосуды являлись редкой находкой и были обнаружены только в одном случае в исследовании R.L.P. Romao и соавт. [30]. Однако не исключается и смещение сосудов в область ПУС после первичной пластической операции.

Критерии успешности вмешательства. Изучаемые показатели пациентов описаны в табл. 3. В 3 из 5 исследований авторы приводят критерии, которые позволяют считать оперативное лечение гидронефроза успешным. A.M. Abdrabuh и соавт. [2] через 6 мес после операции проводят контрольное обследование. Если, по данным



Рис. 2. Результаты мета-анализа процентного показателя успеха в группах эндопиелотомий и вторичных пиелопластик.
Fig. 2. Results of meta-analysis as the percentage success in groups of endopyelotomies and secondary pyeloplastics.

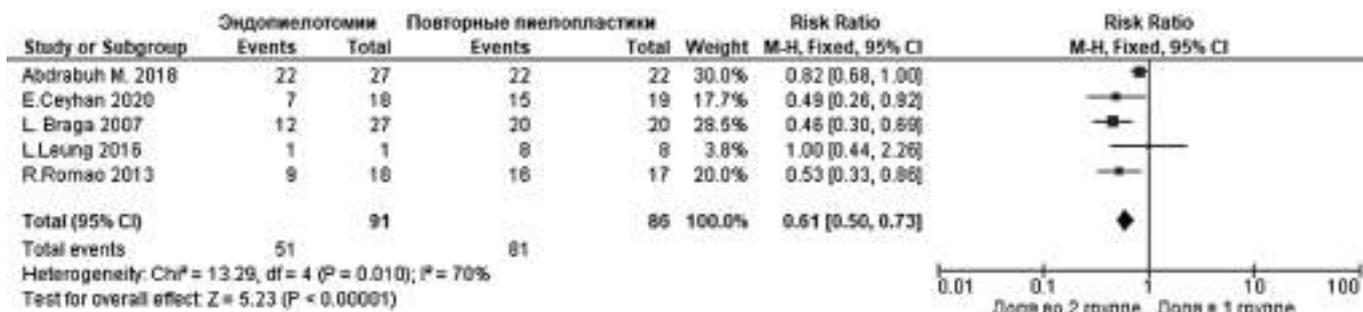


Рис. 3. Результаты мета-анализа процентного показателя общего успеха всех повторных вмешательств в группах эндопиелотомий и вторичных пиелопластик.
Fig. 3. Results of meta-analysis as the percentage of overall success of all repeated interventions in groups of endopyelotomies and secondary pyeloplastics.

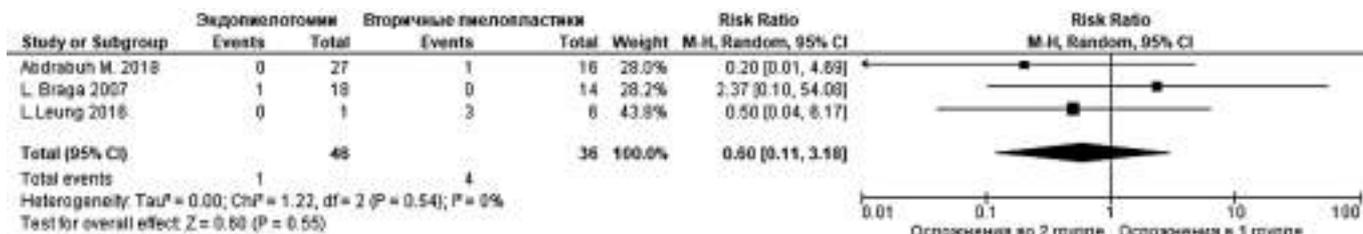


Рис. 4. Результаты мета-анализа процентного показателя осложнений в группах эндопиелотомий и вторичных пиелопластик.
Fig. 4. Results of meta-analysis as the percentage of parameter of complications in groups of endopyelotomies and secondary pyeloplasty.

ультразвукового исследования (УЗИ), степень гидронефроза уменьшается на одну и отсутствует клиническая симптоматика, а, по данным радиоизотопного исследования (РИИ) почек, период полувыведения фармацевтического препарата (T_{1/2}) менее 20 мин и функция почек больше или равна 40%, то хирургическое лечение гидронефроза можно считать успешным. L. Braga и соавт. [9] выделяли только уменьшение степени гидронефроза, по данным УЗИ, и редукцию клинических проявлений. А L. Leung и соавт. [21] успех повторного вмешательства определяли по восстановлению пассажа мочи, по данным диуретической скинтиграфии.

Процентный показатель успеха. В 4 из 5 исследований представлен процент успешности первичных вмешательств при рецидиве гидронефроза (ГФ). В неключённом в настоящий обзор исследовании авторы отразили только общий процент успеха всех повторных вмешательств, включая вторичные, третичные и четвертичные вмешательства. Гетерогенность групп оказалась статистически значимой и значительной (p = 0,02; I² = 70%), поэтому оценка результатов исследований проводилась по модели фиксированных эффектов. По данным представленной блочнограммы (рис. 2), применение

реконструктивно-пластических методов в качестве лечения рецидива гидронефроза сопровождается статистически значимым возрастанием средневзвешенного риска благоприятного исхода на 68% (p = 0,001) при оценке в модели фиксированных эффектов. При визуальной оценке публикации смещения путём построения воронкообразной диаграммы (Funnel plot) отмечается симметричность диаграммы, что указывает на его отсутствие.

При оценке общего процента успешности всех повторных вмешательств (рис. 3), учитывая случаи вторичных, третичных и четвертичных вмешательств при повторном РГ, применение реконструктивно-пластических методов в качестве лечения РГ сопровождается статистически значимым возрастанием средневзвешенного риска благоприятного исхода на 61% (p < 0,01) при оценке в модели фиксированных эффектов. При визуальной оценке публикации смещения при построении воронкообразной диаграммы (Funnel plot) отмечается его смещение.

Послеоперационные осложнения. В 3 из 5 исследований указываются количественные данные о послеоперационных осложнениях и методах их устранения (табл. 3). В группе эндопиелотомий на 46 выполненных операций отмечалось одно осложнение – наличие выпота в брюш-

Таблица 3 / Table 3

Оценка результатов лечения рецидива гидронефроза у детей
Assessment of outcomes after recurrent hydronephrosis management in children

Автор исследования, год, страна	Исследуемые показатели	Среднее время наблюдения после операции	Критерии успешности вмешательства
A.M. Abdrabuh и соавт. [2], 2018, Египет	<ul style="list-style-type: none"> Среднее время пребывания в стационаре Наличие осложнений Диуретическая РИИ УЗИ почек: размер ЧЛС и толщины паренхимы Интервал между первичным и вторичным вмешательствами Общий успех вмешательства 	17 (от 12 до 43) мес – после эндопиелотомии 21 (от 12 до 51) мес – после повторной пиелопластики	1. РИИ через 6 мес после первичной операции: <ul style="list-style-type: none"> T½ менее 20 мин раздельная функция почек (SRF) больше или равно 40% (хорошая), при снижении более чем на 5% от прошлого значения – ухудшение, а в пределах 5% – сохранение. 2. УЗИ: уменьшение на 1 и более степень по SFU*. 3. Отсутствие боли и инфекции в послеоперационном периоде
E. Seyhan и соавт. [10], 2020 Турция	<ul style="list-style-type: none"> Тип повторного вмешательства Интервал между первичным и вторичным вмешательствами Наличие осложнений УЗИ почек: изменение размеров лоханки в послеоперационном периоде Общий успех вмешательства 	46,9 (± 46,6) мес – после первоначального вмешательства, после вторичного – не указано	Нет данных
R.L.P. Romao и соавт. [30], 2013, Канада	<ul style="list-style-type: none"> Тип повторного вмешательства Интервал между первичным и вторичным вмешательствами Наличие аберрантных сосудов* Общий успех вмешательства. 	Нет данных	Нет данных
L. Leung и соавт. [20], 2016, Китай	<ul style="list-style-type: none"> Тип повторного вмешательства Среднее время операции и кровопотери Наличие аберрантных сосудов* Интервал между первичным и вторичным вмешательствами Общий процент успеха 	82 (от 37 до 111) мес – после ПП 46 (от 13 до 117) мес – после РЭП	Успех повторного вмешательства определяли по адекватному дренированию, подтвержденному диуретической скintiграфией поражённой почки
L.H.P. Braga и соавт. [9], 2007, Канада	<ul style="list-style-type: none"> Среднее время пребывания в стационаре Наличие осложнений УЗИ почек: изменение степени Наличие аберрантных сосудов* Общий успех вмешательства 	47 (от 15 до 132) мес – после РЭП 33,1 (от 3 до 88) мес – после ПП	1. УЗИ: уменьшение на 1 и более степень по SFU* 2. Отсутствие боли и инфекции в послеоперационном периоде

Примечание. * Аберрантные сосуды ни в одном случае выявлены не были. РГ – рецидив гидронефроза; ПУС – пиелoureтеральный сегмент; ПП – повторная пиелопластика; РЭП – ретроградная эндопиелотомия; РИИ – радиоизотопное исследование.

ной полости, которое впоследствии было устранено пункцией и аспирацией жидкости.

В группе пиелопластик – 4 осложнения на 22 вмешательства. Три из них связаны с забрюшинным мочевым затёком после миграции стента, в дальнейшем этим пациентам проведены повторные пиелопластики, 4-е осложнение связано с развитием паранефрального абсцесса, что также потребовало повторной пиелопластики. E. Seyhan и соавт. [10] описали 2 осложнения из 19 выполненных вторичных пиелопластик, связанных с инфекцией мочевыводящих путей и миграцией стента, однако в связи с отсутствием данных об осложнениях после эндопиелотомий, данное исследование не было включено в мета-анализ. В публикации R.L.P. Romao и соавт. [33] вовсе отсутствуют данные об осложнениях после вторичных вмешательств. По данным представленной блок-граммы (рис. 4), применение реконструктивно-пластических методов в качестве лечения рецидива гидронефроза сопровождается статистически не значимым возрастанием средневзвешенного риска осложнений ($p = 0,55$) при оценке в модели фиксированных эффектов в связи.

Сроки послеоперационного наблюдения. В 3 из 5 исследований авторы указали сроки наблюдения после повторных вмешательств (табл. 3). Хочется отметить, что средний срок наблюдения после эндопиелотомий составил 36,6 мес, в то время как после пиелопластик 45,3 мес,

однако в связи с отсутствием данных о стандартном отклонении от среднего времени наблюдения во всех 3 исследованиях, мета-анализ провести не удалось.

Неблагоприятные исходы. Общее количество повторных вмешательств после вновь возникшего рецидива гидронефроза составило 56 во всех 5 исследованиях (см. табл. 1). В 4 из 5 исследований указывается ранжирование таких вмешательств в зависимости от его вида и порядка проведения.

E. Seyhan и соавт. [10] указывают лишь на порядковый номер повторных вмешательств, однако не описывают их характеристик. Согласно их данным, проведено 7 вторичных, 6 третичных и 1 четвертичное вмешательство. Остальные же авторы указывают на 42 повторных вмешательства, из которых подавляющее большинство (33; 78%) приходится на пиелопластики. Оставшаяся доля приходится на повторную эндопиелотомию – 9 (6 на ретроградную и 3 на антеградную).

Эндоурологические методы в лечении вновь возникшего рецидива гидронефроза описывают только L. Braga и соавт. [9], в то время как другие конечным методом лечения использовали только пиелопластику.

При анализе порядкового номера всех проведённых повторных вмешательств после вновь возникших рецидивов гидронефроза в 5 исследованиях, 40 (из 56) вмешательств приходится на вторичные, 15 – на третичные и 1 – на четвертичное.

Обсуждение

В настоящий систематический обзор включены публикации, в которых описываются методы лечения повторной обструкции после разобщающей пиелопластики у детского населения с врождённым гидронефрозом. Первично пациенты оперировались как открытым, так и лапароскопическими способами, что не явилось критерием исключения. Часть авторов описывала рецидивы гидронефроза наряду с успешными исходами первичных вмешательств, однако сравнения этих групп по исходным параметрам не проводилось. К сожалению, полнота исходных данных также оказалась неоднородной, что не позволило нам провести более детальное сравнение исследований с применением методов статистики. Несмотря на это, показания к повторным вмешательствам были описаны подробно и во многом были идентичными.

Спектр проводимых вмешательств при рецидиве гидронефроза был представлен двумя основными группами – резекционными реконструктивно-пластическими и эндоурологическими. Выбор метода лечения проводился в основном по предпочтению хирурга.

Для решения вопроса о проведении повторного вмешательства все авторы опирались на данные ультразвукового исследования и радиоизотопной нефросцинтиграфии поражённой почки.

При мета-анализе успешности вторичных вмешательств реконструктивно-пластические методы оказались значительно успешнее эндопиелотомий, что говорит о спорной эффективности последних для лечения повторной обструкции пиелоуретерального сегмента. Даже при мета-анализе всех повторных вмешательств это подтвердилось.

Послеоперационные осложнения чаще описывались у пациентов после повторных резекционных методов, что можно объяснить большей радикальностью этих операций в сравнении с эндоурологическими. В большинстве случаев осложнения были связаны с негерметичностью анастомоза, что потребовало проведения повторных вмешательств. Однако при мета-анализе количества осложнённых в обеих группах статистической разницы не обнаружено.

Срок наблюдения в послеоперационном периоде составил в среднем до 4 лет, однако причина такой продолжительности не раскрывается ни одним из авторов.

Неблагоприятные исходы оперативных вмешательств при рецидиве гидронефроза устранялись повторными вмешательствами, которые могли быть проведены у одного пациента вплоть до 4 раз. В качестве окончательного метода лечения авторы отдавали предпочтение резекционным. Авторы не объясняют такой выбор. Вероятно, объяснение этому кроется в недостаточной резекции диспластично изменённого мочеточника и выраженном рубцовом процессе ранее оперированных тканей, при которых эндоурологические методы оказывались малоэффективными.

подавляющее большинство публикаций о лечении рецидива гидронефроза после уретеропиелопластик посвящено проведению повторных пиелопластик с высокой долей успешности.

В случаях с рецидивом гидронефроза, резекционная пиелопластика применяется как более надёжный метод устранения вновь возникшей обструкции ЛМС с процентом успешности от 77,8 до 100% [1, 7, 11, 16, 26, 33, 34].

Стоит учесть, что в отличие от первичного вмешательства, при повторном возникает ряд трудностей, связанных с выраженным спаечным процессом в забрюшинном пространстве, перипельвикальным фиброзом, повышенной ранимостью коллагенизированных тканей, а также вы-

раженным натяжением в зоне анастомоза при повторной резекции ПУС [12, 17, 21].

Первое крупное сообщение о результатах повторной открытой пиелопластики у детей было сделано в 1996 г. D.J. Lim и R.D. Walker [22]. Из 127 операций, выполненных одним хирургом, повторно оперированы 3 собственных рецидива и 9 пациентов из других учреждений. Из них семерым выполнена разобщающаяся пиелопластика по Хайнс–Андерсену со 100% положительным исходом, а у 3 пришлось прибегнуть к нефрэктомии.

В 2005 г. J.C. Thomas и соавт., проанализировав результаты 105 первичных открытых пиелопластик, сообщили о 93% положительных исходов. У 7 пациентов отмечался рецидив, который пытались устранить эндоурологическими методами, однако они оказались эффективными только у одного, у 6 остальных окончательно прибегнули к реконструктивно-пластическим операциям с успешным результатом [34].

В 2009 г. T.E. Helmy и соавт. провели оценку 590 открытых пиелопластик, проведённых за 11 лет. В результате рецидив был отмечен у 18 детей, 16 из которых выполнена повторная открытая пиелопластика, а 2 потребовалась нефрэктомия. Успешность повторной открытой пиелопластики составила 100% при послеоперационном наблюдении в среднем в течение 25 (8–41) мес, по данным клинического и инструментального обследований [16].

С развитием эндоскопических доступов за последние 15 лет возросло количество публикаций, отражающих результаты лапароскопических и роботизированных повторных пиелопластик.

В 2009 г. E.Y. Shapiro и соавт. сообщили о первом многолетнем опыте лапароскопической пиелопластики после неудачной открытой с 88,8% (8 из 9 рецидивов) положительных исходов [33].

В 2016 г. A.M. Abdel-Karim и соавт., сравнивая лапароскопический и открытый методы лечения рецидива гидронефроза, отметили отсутствие разницы в успешности обоих доступов [1].

Новейшим методом лечения рецидива гидронефроза считается роботизированная лапароскопическая пиелопластика (РЛП) [4, 20, 21]. Данный вид вмешательства значительно облегчает техническое выполнение пиелопластики. Хирургические микроинструменты имеют неограниченный диапазон движения, позволяя хирургу производить очень точные манипуляции, не повреждая здоровые ткани почки. В 2005 г. F. Atug и соавт. впервые описали успешное применение РЛП у 7 взрослых с рецидивирующей обструкцией ПУС [4]. Следом за ними, в 2007 г., S.C. Passerotti и соавт. впервые описали успешное применение роботизированного доступа в лечении рецидива гидронефроза у детей [26].

В 2016 г. T.D. Davis и соавт. представили крупное исследование, включающее 23 повторные пиелопластики роботизированным методом. У 78% (14 из 18) детей через 12 мес наблюдения удалось восстановить уродинамику [11].

Отдельной ветвью в лечении врождённого гидронефроза у детей является эндоурология. Данное направление располагает многообразием методов, включая консервативные, без нарушения целостности тканей ПУС (стен-тирование, нефростомия и баллонная дилатация стеноза) и оперативные, с рассечением зоны стеноза (ретроградная и антеградная эндопиелотомия) [2, 8, 11, 14, 15, 25].

Принцип эндопиелотомий основан на факте, обнаруженном D.M. Davis и соавт. в 1943 г.: «после продольного разреза стенка мочеточника регенерирует в течение 6 нед» [12]. Практическое применение данного наблюдения было раскрыто самими же авторами в 1958 г.

D.M. Davis и соавт. отметили, что протяжённые стриктуры мочеточника, затрагивающие область ПУС, можно успешно устранять с помощью эндопиелотомии с последующим стентированием до полной регенерации гладкомышечного слоя [40].

С течением времени были разработаны различные модификации данного метода. Используются 2 типа доступов для выполнения эндопиелотомии: антеградный – посредством дилатированного чрескожного нефростомического хода и ретроградный – через естественные мочевые пути.

Эффективность эндопиелотомии в лечении вторичной обструкции ПУС остаётся спорной и отмечается в 39–85% [2, 5, 8–10, 15, 20, 36, 39].

В 2011 г. P.W. Veenboeg и соавт. сообщили о 70% эффективности ретроградной эндопиелотомии в лечении 11 детей с вторичной обструкцией ЛМС после первичной пиелопластики [36].

Стоит отметить осложнения, которые могут возникнуть при использовании эндопиелотомии. В неопытных руках может быть нарушена техника рассечения мочеточника, что может привести к кровотечению, формированию более выраженной стриктуры или даже к некрозу тканей с последующим отрывом мочеточника. Помимо этого, антеградный доступ чреват риском внесения инфекции и кровотечения из верхних мочевых путей [18, 23].

Настоящий систематический обзор с мета-анализом выявил большую успешность реконструктивно-пластических методов в сравнении с эндопиелотомиями при лечении рецидива гидронефроза у детей. Однако при сравнении количества и вида осложнений, эндопиелотомии оказались более безопасным методом лечения.

Ограничения исследования. В подавляющем большинстве исследований не представлены полные данные о диагностических критериях, которые указывают о необходимости проведения повторного вмешательства. Только A.M. Abdrahuh и соавт. [2] подробно указали сроки госпитализации, результаты всех инструментальных исследований в до- и послеоперационном периодах, а также высказали предположение о выборе метода хирургического лечения в зависимости от размера лоханки и протяжённости зоны стеноза.

В систематический обзор были включены публикации независимо от количества больных. Количество проведённых эндопиелотомий ранжировалось от 1 до 27, а пиелопластик от 6 до 19. Ограничение минимального количества участников возможно привело бы к получению других результатов. Следующим ограничением данного обзора было отсутствие данных об SD в количественных показателях, что не позволило нам провести мета-анализ. Кроме того, к ограничениям данного обзора относятся отсутствие данных о причинах рецидива гидронефроза, выявленных интраоперационно хирургом.

Заключение

Включённые в представленный нами анализ релевантные публикации показывают большую эффективность реконструктивно-пластических операций в сравнении с эндоурологическими. При возникновении повторной обструкции ПУС, резекционные методы пиелопластики являются приоритетными.

В связи с высокой гетерогенностью исследований и риском публикационного смещения данный систематический обзор требует включения большего количества исследований с более развёрнутой характеристикой пациентов, диагностическими критериями выбора того или иного метода лечения и его статическим обоснованием.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Abdel-Karim A.M., Fahmy A., Moussa A., Rashad H., Elbadry M., Badawy H., Hammady A. Laparoscopic pyeloplasty versus open pyeloplasty for recurrent ureteropelvic junction obstruction in children. *Journal of Pediatric Urology*. 2016; 12(6): 401.e1–401.e6. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2016.06.010>
2. Abdrahuh A.M., Salih E.M., Aboelnasr M., et al. Endopyelotomy versus redo pyeloplasty for management of failed pyeloplasty in children: A single center experience. *Journal of Pediatric Surgery*. 2018; 53(1): 2250–5. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2018.06.002>
3. Abraham G.P., Siddaiah A.T., Ramaswami K., et al. Laparoscopic management of recurrent ureteropelvic junction obstruction following pyeloplasty. *Urology Annals*. 2015; 7(2): 183–7. <https://doi.org/10.4103/0974-7796.150489>
4. Atug F., Woods M., Burgess S.V., Castle E.P., Thomas R. Robotic assisted laparoscopic pyeloplasty in children. *J Urol*. 2005; 174(4 Pt 1): 1440–2. <https://doi.org/10.1097/01.ju.0000173131.64558.e9>
5. Badlani G., Eshghi M., Smith A.D. Percutaneous surgery for ureteropelvic junction obstruction (endopyelotomy): Technique and early results. *Journal of Urology*. 1986; 135(1): 26–8. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(17\)45503-0](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(17)45503-0)
7. Basiri A., Behjati S., Zand S., Moghaddam S.M.H. Laparoscopic pyeloplasty in secondary ureteropelvic junction obstruction after failed open surgery. *Journal of Endourology*. 2007; 21(9): 1045–51. <https://doi.org/10.1089/end.2006.0414>
8. Boylu U., Thomas R. *Retrograde Ureteroscopic Endopyelotomy for Ureteropelvic Junction Obstruction. Smith's Textbook of Endourology: 3rd Edition*. Wiley-Blackwell, 2012; (1): 453–60. <https://doi.org/10.1002/9781444345148.CH42>
9. Braga L.H.P., Lorenzo A.J., Skeldon S., et al. Failed pyeloplasty in children: comparative analysis of retrograde endopyelotomy versus redo pyeloplasty. *Journal of Urology*. 2007; 178(6): 2571–5. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2007.08.050>
10. Ceyhan E., Dogan H.S., Tekgul S. Our experience on management of failed pediatric pyeloplasty. *Pediatric Surgery International*. 2020; 36(8): 971–6. <https://doi.org/10.1007/S00383-020-04699-9>
11. Davis T.D., Burns A.S., Corbett S.T., Peters C.A. Reoperative robotic pyeloplasty in children. *Journal of Pediatric Urology*. 2016; 12(6): 394.e1–394.e7. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2016.04.045>
12. Grazia E., Nicolosi D. Di Ureteroscopic laser endopyelotomy in secondary UPJ obstruction after pyeloplasty failure. *Urologia Internationalis*. 2005; 75(4): 333–6. <https://doi.org/10.1159/000089169>
13. Dy G.W., Hsi R.S., Holt S.K., et al. National trends in secondary procedures following pediatric pyeloplasty. *Journal of Urology*. 2016; 195(4): 1209–14. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2015.11.010>
14. Faerber G.J., Ritchey M.L., Bloom D.A. Percutaneous endopyelotomy in infants and young children after failed open pyeloplasty. *The Journal of Urology*. 1995; 154(4): 1495–7. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(01\)66912-X](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(01)66912-X)
15. Figenshau R.S., Clayman R.V. Endourologic options for management of ureteropelvic junction obstruction in the pediatric patient. *Urologic Clinics of North America*. 1998; 25(2): 199–209. [https://doi.org/10.1016/S0094-0143\(05\)70008-2](https://doi.org/10.1016/S0094-0143(05)70008-2)
16. Helmy T.E., Sarhan O.M., Hafez A.T., et al. Surgical management of failed pyeloplasty in children: Single-center experience. *Journal of Pediatric Urology*. 2009; 5(2): 87–9. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2008.09.001>
17. Hoenig D.M., Shalhav A.L., Elbahnsy A.M., et al. Impact of etiology of secondary ureteropelvic junction obstruction on outcome of endopyelotomy. *Journal of Endourology*. 1998; 12(2): 131–3. <https://doi.org/10.1089/end.1998.12.131>
18. Hsi R.S., Holt S.K., Gore J.L., et al. National trends in followup imaging after pyeloplasty in children in the United States. *Journal of Urology*. 2015; 194(3): 777–82. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2015.03.123>
19. Jabbour M.E., Goldfischer E.R., Anderson A.E., et al. Failed endopyelotomy: Low expression of TGFβ regardless of the presence or absence of crossing vessels. *Journal of Endourology*. 1999; 13(4): 295–8. <https://doi.org/10.1089/end.1999.13.295>
20. Leung L., Chan I.H.Y., Chung P.H.Y., et al. Outcomes of re-intervention for laparoscopic transperitoneal pyeloplasty in children. *Journal of Laparoendoscopic and Advanced Surgical Techniques*. 2016; 26(4): 318–23. <https://doi.org/10.1089/lap.2015.0095>
21. Lindgren B.W., Hagerty J., Meyer T., et al. Robot-assisted laparoscopic reoperative repair for failed pyeloplasty in children: A safe and highly effective treatment option. *Journal of Urology*. 2012; 188(3): 932–7. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2012.04.118>

22. Lim D.J., Walker R.D. Management of the failed pyeloplasty. *The Journal of urology*. 1996; 156(2 Pt 2): 738–40. <https://doi.org/10.1097/00005392-199608001-00048>
23. Netto N.R., Ikari O., Esteves S.C., et al. Antegrade endopyelotomy for pelvi-ureteric junction obstruction in children. *British Journal of Urology*. 1996; 78(4): 607–12. <https://doi.org/10.1046/j.1464-410x.1996.16419.x>
24. Parente A., Angulo J.M., Burgos L., et al. Percutaneous endopyelotomy over high pressure balloon for recurrent ureteropelvic junction obstruction in children. *Journal of Urology*. 2015; 194(1): 184–9. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2015.01.074>
25. Park J., Kim W.S., Hong B., et al. Long-term outcome of secondary endopyelotomy after failed primary intervention for ureteropelvic junction obstruction. *International Journal of Urology*. 2008; 5(6): 490–4. <https://doi.org/10.1111/j.1442-2042.2008.02035.x>
26. Passerotti C.C., Nguyen H.T., Eisner B.H., Lee R.S., Peters C.A. Laparoscopic reoperative pediatric pyeloplasty with robotic assistance. *J Endourol*. 2007; 21(10): 1137–40. <https://doi.org/10.1089/end.2007.9929>
27. Patel T., Kellner C.P., Katsumi H., Gupta M. Efficacy of endopyelotomy in patients with secondary ureteropelvic junction obstruction. *J Endourol*. 2011; 25(4): 587–91. <https://doi.org/10.1089/end.2010.0026>
28. Persky L., McDougal W.S., Kedia K. Management of initial pyeloplasty failure. *Journal of Urology*. 1981; 125(5): 695–7. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(17\)55166-6](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(17)55166-6)
29. Reis L.O., Ikari O., Zani E.L., et al. Long-term results of anderson-hynes pyeloplasty in children: How long follow-up is necessary? *European Journal of Pediatric Surgery*. 2014; 25(6): 509–12. <https://doi.org/10.1055/s-0034-1390018>
30. Romao R.L.P., Koyle M.A., Pippi Salle J.L., et al. Failed pyeloplasty in children: Revisiting the unknown. *Urology*. 2013; 82(5): 1145–9. <https://doi.org/10.1016/j.urology.2013.06.049>
31. Seo I.Y., Oh T.H., Lee J.W. Long-term follow-up results of laparoscopic pyeloplasty. *Korean Journal of Urology*. 2014; 55(10): 656–9. <https://doi.org/10.4111/kju.2014.55.10.656>
32. Sergi F., Flammia G.P., Alcini A., et al. Collagen changes in the ureteropelvic junction after failed antegrade endopyelotomy. *Journal of Endourology*. 2007; 21(1): 103–7. <https://doi.org/10.1089/end.2006.9996>
33. Shapiro E.Y., Cho J.S., Srinivasan A., et al. Long-Term Follow-Up for Salvage Laparoscopic Pyeloplasty After Failed Open Pyeloplasty. *Urology*. 2009; 73(1): 115–8. <https://doi.org/10.1016/j.urology.2008.08.483>
34. Thomas J.C., DeMarco R.T., Donohoe J.M., et al. Management of the failed pyeloplasty: A contemporary review. *Journal of Urology*. 2005; 174(6): 2363–6. <https://doi.org/10.1097/01.ju.0000180420.11915.31>
35. Varkarakis I.M., Bhayani S.B., Allaf M.E., et al. Management of secondary ureteropelvic junction obstruction after failed primary laparoscopic pyeloplasty. *The Journal of urology*. 2004; 172(1): 180–2. <https://doi.org/10.1097/01.ju.0000132142.25717.08>
36. Veenboer P.W., Chrzan R., Dik P., et al. Secondary endoscopic pyelotomy in children with failed pyeloplasty. *Urology*. 2011; 77(6): 1450–4. <https://doi.org/10.1016/j.urology.2010.10.021>
37. Dy G.W., Hsi R.S., Holt S.K., et al. National trends in secondary procedures following pediatric pyeloplasty. *Journal of Urology*. 2016; 195(4): 1209–14. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2015.11.010>
38. Moher D., Liberati A., Tetzlaff J., et al. Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. *PLoS Med*. 2009; 6(7): e1000097. <https://doi.org/10.1371/journal.pmed.1000097>
39. Moons K.G., Hooft L., Williams K., et al. Implementing systematic reviews of prognosis studies in Cochrane. *Cochrane Database Syst Rev*. 2018; 10: ED000129. <https://doi.org/10.1002/14651858.ED000129>
40. Davis D.M., Strong G.H., Drake W.M. Intubated ureterotomy; experimental work and clinical results. *J Urol*. 1948; 59(5): 851–62. [https://doi.org/10.1016/s0022-5347\(17\)69449-7](https://doi.org/10.1016/s0022-5347(17)69449-7)

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-353-356>

Клиническое наблюдение / Clinical observation

© Петров Д.А., Щербакова О.В.

Поздняя диагностика болезни Гиршпрунга у девочки 17 лет

Обособленное структурное подразделение «Российская детская клиническая больница ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова», 119571, Москва

Введение. Врождённое отсутствие нервных ганглиев в межмышечном и подслизистом нервных сплетениях толстой кишки при болезни Гиршпрунга приводит к нарушению моторики и риску развития кишечной непроходимости. Чаще всего диагноз болезнь Гиршпрунга устанавливается в периоде новорождённости или раннем детском возрасте. Редкие случаи поздней диагностики могут быть связаны со смазанностью клинической картины, а также с отсрочкой гистологической верификации аганглиоза.

Клиническое наблюдение. В этом клиническом наблюдении описана пациентка 17 лет, поступившая в хирургическое отделение с жалобами на отсутствие самостоятельного стула, каловый камень больших размеров, боли в животе. Невозможность самостоятельного опорожнения беспокоит с рождения, однако консервативные мероприятия приносили частичный положительный эффект. Результаты ирригографии говорят о подозрении на агангиоз ректосигмоидного отдела толстой кишки, однако гистологическая верификация диагноза никогда не проводилась. Иммуногистохимическое исследование биоптатов слизистой оболочки прямой кишки на кальретинин позволило подтвердить диагноз болезнь Гиршпрунга и выполнить первый этап хирургического лечения – резекцию участка сигмовидной кишки с каловым камнем и формирование десцендостомы. Радикальная операция была отложена в виду сопутствующей беременности.

Заключение. Проблема поздней диагностики болезни Гиршпрунга остаётся актуальной даже при классических формах заболевания. Важно сохранять настороженность в отношении старших детей и взрослых с длительными запорами в анамнезе. Морфологическое изучение нервных ганглиев толстой кишки является ключевым процессом в верификации диагноза.

Ключевые слова: болезнь Гиршпрунга; агангиоз; кальретинин; дети

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Петров Д.А., Щербакова О.В. Поздняя диагностика болезни Гиршпрунга у девочки 17 лет. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 353-356. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-353-356>

Для корреспонденции: Петров Дионисий Александрович, кандидат мед. наук, врач-детский хирург отделения реконструктивной и восстановительной хирургии грудной полости ОСП «РДКБ» ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова МЗ РФ, 119571, Москва, Россия. E-mail: dionisiy.petrov@gmail.com

Участие авторов: Петров Д.А. – сбор и обработка материала, написание текста; Щербакова О.В. – концепция и дизайн исследования, редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 18 декабря 2022 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликована: 30 ноября 2023

© Petrov D.A., Shcherbakova O.V.

Late diagnostics of Hirschsprung's disease in a 17-year-old girl: a clinical observation

Russian Children's Clinical Hospital subdivision of Pirogov Russian National Research Medical University, 119571 Moscow, Russian Federation

Introduction. The congenital absence of nerve ganglia in the intermuscular and submucosal nerve plexuses of the colon in Hirschsprung's disease leads to impaired motility and the risk of intestinal obstruction. Most often, Hirschsprung's disease diagnosis is put in the neonatal period or in early childhood. Rare cases of late diagnostics may be associated with a blurred clinical picture, as well as with delay in histological verification of aganglionosis.

Clinical observation. This clinical observation describes a case of 17-year-old patient who was admitted to the surgical department with complaints on the lack of independent stool, a large fecal stone, abdominal pain. The patient could not have the self-emptying stool since her birth. Conservative therapy had only a partial positive effect. Irrigography findings caused a suspicion on agangliosis pathology of the rectosigmoid colon; however, histological verification of the diagnosis has never been made. Immunohistochemical examination of biopsies of the rectal mucous for calretinin had confirmed the Hirschsprung's disease, and the first stage of surgical treatment was performed – resection of the sigmoid colon section with a fecal stone and descendentostomy formation. Radical surgery was postponed because of patient's pregnancy.

Conclusion. Late diagnosis of Hirschsprung's disease is still a problem even in classical forms of the disease. It is important to be alert in older children and adults with a history of long-lasting constipation. Morphological examination of the neural ganglia of the colon is a key point in verifying the diagnosis.

Keywords: Hirschsprung's disease; agangliosis; calretinin; children

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject". Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Petrov D.A., Shcherbakova O.V. Late diagnostics of Hirschsprung's disease in a 17-year-old girl: a clinical observation. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 353-356. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-353-356> (In Russian)

For correspondence: Dr. Dionisiy A. Petrov, PhD, pediatric surgeon, at the division of reconstructive surgery of the chest cavity, Russian Children's Clinical Hospital, 119571 Moscow, Russian Federation. E-mail: dionisiy.petrov@gmail.com

Information about authors:

Petrov D.A., <https://orcid.org/0000-0001-8192-005X> Shcherbakova O.V., <https://orcid.org/0000-0002-8514-3080>

Author contribution: Petrov D.A. – material collection and processing of material, text writing; Shcherbakova O.V. – study concept and design, editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: December 18, 2022 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Болезнь Гиршпрунга (БГ) представляет собой аномалию развития желудочно-кишечного тракта, характеризующуюся отсутствием ганглиозных клеток в межмышечном и подслизистом нервных сплетениях толстой кишки или ее отдельных сегментов [1–3]. Отсутствие нервных ганглиев приводит к нарушению моторики пораженного сегмента кишечника, препятствуя прохождению каловых масс. Функциональная непроходимость пораженного участка приводит к последующему расширению проксимального отдела кишечника [4]. Самыми распространенными формами БГ являются ректальная и ректосигмоидная [5].

В 90% случаев диагноз БГ устанавливается в периоде новорожденности. Ранней диагностике способствуют такие клинические проявления, как позднее отхождение мекония, последующее отсутствие самостоятельного стула с развитием острой кишечной непроходимости, с осложнениями в виде токсической дилатации и перфорации толстой кишки [6]. Однако существует множество упоминаний поздней диагностики БГ у детей старшего возраста и взрослых, проявляющейся умеренными симптомами в виде хронических запоров с образованием каловых камней и последующим развитием хронической частичной кишечной непроходимости [4, 7–12].

Цель работы – демонстрация случая задержки постановки диагноза болезни Гиршпрунга у 17-летней пациентки.

Клинический случай

В июне 2022 г. в хирургическое отделение ОСП «Российская детская клиническая больница ФГАОУ ВО «РНИМУ им. Н.И. Пирогова» (РДКБ) поступила пациентка 17 лет, с жалобами на хронические запоры, отсутствие самостоятельного стула, пальпируемый каловый камень больших размеров, периодические боли в животе. Дополнительно: акушерский анамнез – беременность 22 нед. С рождения девочку беспокоили хронические запоры с задержкой самостоятельного стула до 3–5 дней. Пациентка находилась под наблюдением педиатра по месту жительства, получала консервативную терапию в виде послабляющей диеты, пробиотиков, слабительных средств, ферментных препаратов и очистительных клизм. В возрасте 6 лет, по данным ирригографии, был

поставлен диагноз долихосигма. Консервативные мероприятия имели частичный эффект, опорожнение было возможно только на фоне постоянных очистительных клизм. На фоне проводимой терапии в возрасте 13 лет появилась положительная динамика в виде периодических эпизодов самостоятельной дефекации. В 15 лет девочка перенесла тяжелую сочетанную травму в результате падения с высоты: закрытая черепно-мозговая травма, закрытая травма грудной клетки (двусторонний ушиб лёгких, левосторонний пневмоторакс), травма таза (перелом тела крестца слева, крестцово-подвздошного сочленения, закрытый перелом левой лонной и левой седалищной костей), множественные ушибленные раны мягких тканей туловища, лица и конечностей. Пациентка перенесла множество операций и длительную реабилитацию. После травмы возобновились стойкие запоры, постепенно образовался каловый камень больших размеров. Спустя полгода после травмы пациентка была госпитализирована в отделение гастроэнтерологии. По данным ирригографии вновь констатировано наличие долихосигмы (рис. 1), заподозрена болезнь Гиршпрунга, ректо-сигмоидная форма, назначено консервативное лечение. Гистологической верификации диагноза не было. Через 1 год, в феврале 2022 г., девочка была повторно консультирована в больнице по месту жительства с жалобами на продолжающиеся запоры, отсутствие самостоятельного стула и наличие калового камня больших размеров. После изучения анамнеза и результатов рентгеноконтрастных методов визуализации рекомендована госпитализация в федеральную клинику города Москвы.

При поступлении в хирургическое отделение РДКБ тяжесть состояния обусловлена хронической кишечной непроходимостью и каловой интоксикацией. По витальным показателям и гемодинамике компенсирована. При осмотре живот увеличен, в левой половине живота пальпируется гигантский каловый камень размерами около 17 × 12 см (рис. 2), в гипогастрии пальпируется дно увеличенной матки с плодом (согласно акушерскому анамнезу – гестационный возраст 22 нед, течение беременности без особенностей). Самостоятельного стула нет. После очистительных клизм – окрашенная вода, периодически с примесью кишечного отделяемого в небольшом количестве. На передней брюшной стенке в околопупочной области и левой подвздошной области – рубцы от лапароцентеза и дренирования брюшной полости



Рис. 1. Ирригограммы, демонстрирующие сужение ректосигмоидного перехода и супрастенотическое расширение проксимального отдела толстой кишки с каловым камнем.

Fig. 1. Irrigograms show rectosigmoid junction narrowing and suprastenotic extension of the proximal colon with a fecal stone.

(последствия травмы). Осмотр *per rectum*: анальный канал свободно проходим для пальца, ампула прямой кишки пустая, смещена кзади нависающей маткой, патологических образований не определяется.

По данным ультразвукового исследования брюшной полости, каловый камень занимает весь просвет и всю протяжённость толстой кишки от левого изгиба до прямой кишки, структурной патологии паренхиматозных органов нет. Для определения наличия аганглиоза прямой кишки выполнена ректороманоскопия с биопсией слизистой оболочки прямой кишки в трёх локусах: на 2, 5 и 7 см выше зубчатой линии. По данным гистологического исследования, слизистая оболочка прямой кишки без признаков активного воспаления и атрофии. Иммуногистохимическая реакция на кальретинин показала отрицательный результат, что говорит об отсутствии нервных ганглиев на исследуемом участке [13].



Рис. 2. Общий вид живота пациентки. Визуализируется каловый камень в левой мезогастральной области. На передней брюшной стенке – послеоперационные рубцы от лапароцентеза и дренажей (операции по поводу сочетанной травмы).

Fig. 2. General view of patient's abdomen. A fecal stone is visualized in the left mesogastric region. On the anterior abdominal wall – postoperative scars from laparocentesis and drainage (surgical treatment for combined trauma).



Рис. 3. Резецированный супрастенотический участок толстой кишки, заполненный каловым камнем.

Fig. 3. Resected suprastenotic colon area filled with a fecal stone.

По совокупности представленных данных – жалоб, анамнеза заболевания, клинической картины и результатов инструментальных методов исследования (ирригография, гистологическое исследование) подтверждён диагноз болезни Гиршпрунга, ректосигмоидная форма. Проведено обсуждение тактики лечения совместно с акушерами-гинекологами и колопроктологами НМИЦ колопроктологии: учитывая наличие каловой интоксикации, кишечной обструкции гигантским каловым камнем и высокий риск перфорации толстой кишки, а также принимая во внимание угрозу преждевременных родов, рекомендовано проведение паллиативного вмешательства по срочным показаниям в объёме наложения кишечной стомы с резекцией кишки и эвакуацией камня. Радикальное вмешательство с резекцией аганглионарного участка и низведением функциональной части толстой кишки целесообразно выполнить в плановом порядке после родоразрешения.

На базе НМИЦ акушерства и гинекологии пациентке выполнена лапаротомия, обструктивная резекция расширенного супрастенотического участка толстой кишки с каловым камнем, формирование терминальной десцендостомы (рис. 3). Послеоперационный период протекал без осложнений. Опорожнение по стоме наблюдалось со вторых суток после операции. В сентябре 2022 г. в этом же центре пациентке выполнено кесарево сечение, родился здоровый доношенный ребёнок.

Обсуждение

В зарубежной литературе основными причинами поздней диагностики БГ называют недостаточный доступ к экспертным медицинским центрам, плохую осведомлённость родителей и низкий доход семьи [6]. Большую роль в диагностике БГ также играет протяжённость зоны аганглиоза [14]. Задержка в постановке диагноза может быть связана с отсутствием классических проявлений БГ, присутствующих в периоде новорожденности или сомнительной клинической картиной на фоне непротяженной зоны аганглиоза [6, 11]. Результаты рентгеноконтрастной визуализации и аноректальной манометрии должны быть подкреплены гистологическим исследованием на наличие нервных ганглиев в толстой кишке [12].

В нашем наблюдении пациентку беспокоили хронические запоры практически с рождения, однако состояние расценивалось как запоры функционального характера, а назначаемые консервативные мероприятия имели частич-

ный положительный эффект, что привело к появлению периодического самостоятельного стула. Запоры возобновились в ещё более тяжёлой форме после сочетанной травмы и привели к образованию калового камня больших размеров. Многократные операции и длительная реабилитация после травмы отсрочили проведение полноценного обследования и верификацию диагноза БГ. При поступлении в наше отделение клиническая картина и данные ирригографии соответствовали ректо-сигмоидной форме болезни Гиршпрунга, что подтвердилось отрицательным результатом иммуногистохимического исследования на кальретинин. От проведения аноректальной манометрии с определением ректо-анального ингибиторного рефлекса было решено воздержаться в связи с риском провоцирования преждевременной родовой деятельности. Выполнение радикальных операций на кишечнике с резекцией аганглионарной ректосигмоидной зоны на поздних сроках беременности сопряжено с угрозой жизни матери и ребёнка [15].

Заключение

Несмотря на то, что в большинстве случаев диагноз БГ можно установить в течение первого года жизни ребёнка, проблема поздней диагностики остается актуальной даже при классических формах заболевания. При атипичной или минимально выраженной клинической картине постановка диагноза может откладываться на десятилетия. Необходимо сохранять настороженность в отношении диагноза БГ даже у старших детей и взрослых с длительными запорами с раннего возраста в анамнезе, а главным диагностическим критерием должно являться морфологическое изучение нервных ганглиев толстой кишки.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Морозов Д.А., Пименова Е.С., Поддубный И.В., Козлов М.Ю., Шарков С.М., Талалаев А.Г., Окулов Е.А., Фоменко О.Ю., Лохматов М.М., Корчагина Н.С., Кеженбаева К.М., Клементьев М.В., Еремин Д.Б., Тарасова Д.С., Загребина А.А. Диагностика болезни Гиршпрунга у детей: мультицентровое исследование. *Педиатрия им. Г.Н. Сперанского*. 2021; 100(2): 226–35.
2. Morozov D.A., Pimenova E.S., Poddubnyy I.V., Kozlov M.Yu., Sharkov S.M., Talalaev A.G., Okulov E.A., Fomenko O.Yu., Lokhmatov M.M., Korchagina N.S., Kezhenbaeva K.M., Klement'ev M.V., Eremin D.B., Tarasova D.S., Zagrebina A.A. Diagnosis of Hirschsprung's disease in children: a multicenter study. *Pediatriya im. G.N. Speranskogo*. 2021; 100(2): 226–35. (in Russian)
3. Холостова, В.В., Дронов А.Ф., Смирнов А.Н. и др. Хирургическое лечение тотальной формы болезни Гиршпрунга у детей. *Хирургия*. 2014; (7): 44.
4. Kholostova, V.V., Dronov A.F., Smirnov A.N., et al. Surgical treatment of the total form of Hirschsprung's disease in children. *Khirurgiya*. 2014; (7): 44. (in Russian)
5. Ouladsaid M. How to manage a late diagnosed Hirschsprung's disease. *Afr J Paediatr Surg*. 2016; 13: 82–7.
6. Martins, Marielle & Santos, Carlos & Falcão, Gustavo. Late diagnosis of Hirschsprung's disease. *Journal of Coloproctology*. 2015; 35(3): 178–81.
7. Дронов А.Ф., Холостова В.В. Эволюция методов диагностики и лечения болезни Гиршпрунга у детей. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2013; 3(2): 16–9.
8. Dronov A.F., Kholostova V.V. Evolution of methods for diagnosing and treating Hirschsprung's disease in children. *Rossiyskiy vestnik detskoy khirurgii, anesteziologii i reanimatologii*. 2013; 3(2): 16–9. (in Russian)
9. Martucciello G. Hirschsprung's disease, one of the most difficult diagnoses in pediatric surgery: a review of the problems from clinical practice to the bench. *Eur J Pediatr Surg*. 2008; 18(3): 140–9.
10. Sharma S., Gupta D.K. Hirschsprung's disease presenting beyond infancy: Surgical options and postoperative outcome. *Pediatr Surg Int*. 2012; 28: 5–8.
11. Miyamoto M., Egami K., Maeda S., Ohkawa K., Tanaka N., Uchida E., et al. Hirschsprung's disease in adults: report of a case and review of the literature. *J Nippon Med Sch*. 2005; 72: 113–20.
12. Ekenze S.O., Ngaikedi C., Obasi A.A. Problems and outcome of Hirschsprung's disease presenting after 1 year of age in a developing country. *World J Surg*. 2011; 35: 22–6.
13. Воробьев Г.И., Жученко А.П., Ачкасов С.И., Бирюков О.М. Болезнь Гиршпрунга у взрослых: 25-летний опыт клиники. В кн.: *Актуальные вопросы колопроктологии: тез. докл. первого съезда колопроктологов России с междунар. участием. Под ред. Г.И. Воробьева, Г.П. Котельникова, Б.Н. Жукова*. Самара: Перспектива: Сам. гос. мед. ун-т; 2003.
14. Vorob'ev G.I., Zhuchenko A.P., Achkasov S.I., Biryukov O.M. Hirschsprung disease in adults: 25 years of clinical experience. In: *Topical issues of coloproctology: the thesis of the first Congress of coloproctologists of Russia with the International participation. edited by G.I. Vorobyov, G.P. Kotelnikov, B.N. Zhukov [Aktual'nye voprosy koloproktologii: tez. dokl. pervogo s'ezda koloproktologov Rossii s mezhdunar. uchastiem. pod red. G.I. Vorob'eva, G.P. Kotel'nikova, B.N. Zhukova]*. Samara: Perspective: Sam. gos. med. un-t; 2003. (in Russian)
15. Musa Z.A., Qasim B.J., Ghazi H.F., Al Shaikhly A.W. Diagnostic roles of calretinin in hirschsprung disease: A comparison to neuron-specific enolase. *Saudi J Gastroenterol*. 2017; 23 (1): 60–6.
16. Капуллер Л.Л., Жученко А.П., Ачкасов С.И., Бирюков О.М. Протяженность зоны физиологического гипоганглиоза у взрослых и ее значение в диагностике болезни Гиршпрунга. *Архив патологии*. 2008; 70: 46–9.
17. Kapuller L.L., Zhuchenko A.P., Achkasov S.I., Biryukov O.M. The extent of the zone of physiological hypogangliosis in adults and its significance in the diagnosis of Hirschsprung's disease. *Arkhiv patologii*. 2008; 70: 46–9. (in Russian)
18. Doodnath R., Puri P. A systematic review and meta-analysis of Hirschsprung's disease presenting after childhood. *Pediatr Surg Int*. 2010; 26(11): 1107–10.
19. Maerzheuser S., Bassir C., Rothe K. Hirschsprung disease in the older child: diagnostic strategies. *Clin Pediatr (Phila)*. 2012; 51(11): 1087–90.
20. Visser B.C., Glasgow R.E., Mulvihill K.K., Mulvihill S.J. Safety and timing of nonobstetric abdominal surgery in pregnancy. *Dig Surg*. 2001; 18: 409–17.

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-357-360>

Клиническое наблюдение / Clinical observation

© Аксельров М.А.¹, Разин М.П.², Сергиенко Т.В.³, Сударева Д.И.³, Танзыбаев А.В.³

Успешное торакоскопическое лечение двусторонней врождённой ложной диафрагмальной грыжи у новорождённого

¹ФГБОУ ВО «Тюменский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 625023, Тюмень, Российская Федерация;

²ФГБОУ ВО «Кировский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 610998, Киров, Российская Федерация;

³ГБУЗ ТО «Областная клиническая больница № 2», 625000, Тюмень, Российская Федерация

Введение. Врожденная диафрагмальная грыжа (ВДГ) встречается с частотой от 1:2000 до 1:4000 живорождённых детей. Чаще встречаются ложные ВДГ, из односторонних преобладают левосторонние дефекты в диафрагме (встречаются в зависимости от вида грыжи в 9–24 раза чаще). Крайне редким пороком развития является двусторонняя диафрагмальная грыжа, составляющая не более 1% от всех диафрагмальных грыж.

Описание клинического наблюдения. Авторами представлен собственный опыт – описание редкого клинического случая двусторонней ложной диафрагмальной грыжи у новорождённого с манифестацией левостороннего компонента непосредственно после рождения и правостороннего – спустя 2 нед после коррекции первого; и её успешного торакоскопического лечения.

Заключение. Авторы считают, что одной из возможных причин не выявления патологии по данным ультразвукового скрининга, является ещё не произошедшая транслокация органов брюшной полости в грудную (которая может произойти как антенатально, так интра- и постнатально).

Ключевые слова: врождённая диафрагмальная грыжа; двусторонняя диафрагмальная грыжа; новорождённые; торакоскопия

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациента. Законные представители участника исследования дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Аксельров М.А., Разин М.П., Сергиенко Т.В., Сударева Д.И., Танзыбаев А.В. Успешное торакоскопическое лечение двусторонней врождённой ложной диафрагмальной грыжи у новорождённого. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 357-360. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-357-360>

Для корреспонденции: Разин Максим Петрович, проректор по научной и инновационной работе, доктор медицинских наук, профессор, заведующий кафедрой детской хирургии ФГБОУ ВО «Кировский государственный медицинский университет» МЗ РФ, 610998, г. Киров, Россия. E-mail: mprazin@yandex.ru

Участие авторов: Аксельров М.А. – научное консультирование, написание текста, редактирование; Разин М.П. – научное консультирование, написание текста, утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи; Сергиенко Т.В., Сударева Д.И., Танзыбаев А.В. – сбор клинического материала.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 26 декабря 2022 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

© Akselrov M.A.¹, Razin M.P.², Sergienko T.V.³, Sudareva D.I.³, Tanzybaev A.V.³

A successful thoracoscopic treatment of bilateral congenital false diaphragmal hernia in a newborn

¹Tyumen State Medical University, 625023 Tyumen, Russian Federation;

²Kirov State Medical University, 610998 Kirov, Russian Federation;

³Regional Clinical Hospital No 2, 625000 Tyumen, Russian Federation

Introduction. Congenital diaphragmatic hernia (CDH) occurs with frequency of 1:2000 to 1:4000 live births. False CDH are more common. Out of unilateral diaphragm defects, left-sided ones predominate (9–24 times more often depending on hernia type). Bilateral diaphragmatic hernia is an extremely rare malformation which accounts for no more than 1% of all diaphragmatic hernias.

Description of observation. The authors present their own experience in treating a rare clinical case of bilateral false diaphragmatic hernia in a newborn with the left-sided component manifested immediately after the birth and with the right-sided one – in 2 weeks after the correction of the first one, as well as its successful thoracoscopic treatment.

Conclusion. The authors consider that one of the possible reasons for not detecting this pathology at ultrasound examination is translocation of the abdominal organs to the chest (which can occur antenatally, intra- and postnatally).

Keywords: congenital diaphragmatic hernia; bilateral diaphragmatic hernia; newborns; thoracoscopy

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Akselrov M.A., Razin M.P., Sergienko T.V., Sudareva D.I., Tanzybaev A.V. A successful thoracoscopic treatment of bilateral congenital false diaphragmal hernia in a newborn. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 357-360. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-357-360> (In Russian)

For correspondence: Maxim A. Razin, head of department of pediatric surgery, Kirov State Medical University, 610998 Kirov, K. Marx st. 112. E-mail: mprazin@yandex.ru

Information about authors:

Akselrov M.A., <https://orcid.org/0000-0001-6814-8894>

Sergienko T.V., <https://orcid.org/0000-0003-3338-1260>

Tanzybaev A.V., <https://orcid.org/0000-0003-1320-2798>

Razin M.P., <https://orcid.org/0000-0003-3561-3256>

Sudareva D.I., <https://orcid.org/0000-0001-5956-0385>

Author contribution: *Akselrov M.A.* – scientific consulting, text writing, editing; *Razin M.P.* – scientific consulting, text writing, approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article; *Sergienko T.V., Sudareva D.I., Tanzybaev A.V.* – collection of clinical material.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: December 26, 2022 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Нарушение процесса закрытия плевроперитонеального канала приводит к несостоятельности диафрагмы и смещению органов брюшной полости в грудную [1, 2]. Врожденные диафрагмальные грыжи (ВДГ) встречаются с частотой от 1:2000 до 1:4000 живорожденных детей и в 10–15% наблюдений являются составляющим различных наследственных и генетических синдромов [1, 3]. Конгенитальная патология имеет выраженный синистроцентризм, развиваясь при ложных ВДГ слева в 9–24,5 раза чаще (в зависимости от вида грыжи), чем справа [4, 5]. Крайне редким пороком развития является двусторонняя диафрагмальная грыжа, составляющая не более 1% от всех диафрагмальных грыж [6]. В связи с этим приведенное клиническое наблюдение ложной двусторонней диафрагмальной грыжи у ребенка может представлять для детских хирургов, занимающихся хирургией новорожденных, немалый практический интерес.

Клиническое наблюдение

Девочка С., родилась путём кесарева сечения от 1-й беременности, 1-х родов, в сроке 37 нед гестации. Беременность протекала на фоне угрозы выкидыша, многоводия. На первом ультразвуковом скрининге была диагностирована гипоплазия носа, увеличение яремных лимфатических мешочков; проводилось исследование кариотипа (плазмоцентез). Врожденный порок развития желудочно-кишечного тракта, интерпретированный как омфалоцеле, был заподозрен на втором скрининге, тогда же было диагностировано расширение шейной складки, гипоплазия носовой кости, сглаженный профиль, пиелозктазия справа, клинодактилия мизинцев кистей, отёк Вартанова студня. Масса тела при рождении 2906 г. Состояние с рождения тяжёлое, обусловлено дыхательными нарушениями. Из родильного зала ребёнок транспортирован на назальном СРАР в отделение реанимации и интенсивной терапии новорожденных. Диагноз диафрагмальная грыжа установлен после проведения рентгенологического обследования (рис. 1, а).

На вторые сутки жизни ребёнок транспортирован в хирургический стационар. Предоперационная подготовка

включала охранительный режим, медикаментозную седацию, энтеральный покой, инфузионную терапию с целью восполнения водно-электролитных потребностей, полное парентеральное питание и антибактериальную терапию. Проводилась эхокардиография (ЭхоКГ) с целью мониторинга систолического давления в лёгочной артерии (СДЛА). Проводимые мероприятия привели к стабилизации клинического состояния и снижению СДЛА с 53 до 44 мм рт. ст.

При торакокопии слева выявлено, что в плевральной полости располагается вся тонкая часть толстой кишки и селезёнка. После низведения транслоцированных органов в брюшную полость, обнаружен заднелатеральный дефект левого купола диафрагмы (щель Бохдалека) диаметром до 5,0 см. Выполнена частичная пластика диафрагмы собственной тканью путём наложения отдельных швов с формированием узлов экстракорпорально. Оставшийся дефект (2,5–3 см длиной и 1,5 см шириной) был замещён эндопротезом – проленовой сеткой, фиксированной с одной стороны к диафрагме, а с другой к рёбрам. Левое лёгкое существенно гипоплазировано, при форсированном дыхании практически не увеличивается.

Послеоперационный период протекал без осложнений. Длительность искусственной вентиляции лёгких (ИВЛ) составила 148 ч, неинвазивная респираторная поддержка – 69 ч. Длительность лечения в реанимационном отделении 11 сут. На 15-е сутки после оперативного лечения (отсутствие дыхательных нарушений, должная прибавка массы тела) ребёнок был выписан в удовлетворительном состоянии (рис. 1, б).

На 13-е сутки после выписки из стационара на фоне признаков острой респираторной вирусной инфекции во время кормления ребёнок поперхнулся, закашлял, появилась одышка, стал выражен цианоз кожных покровов. По данным рентгенографии органов грудной клетки, выставлен диагноз аспирационной полисегментарной пневмонии, и девочка госпитализирована в педиатрическое отделение. Нарастание дыхательной недостаточности потребовало перевода в реанимационное отделение и проведения респираторной терапии (ИВЛ). По данным компьютерной томографии (КТ), выявлено, что в грудную полость частично пролабировала доля печени (рис. 2).

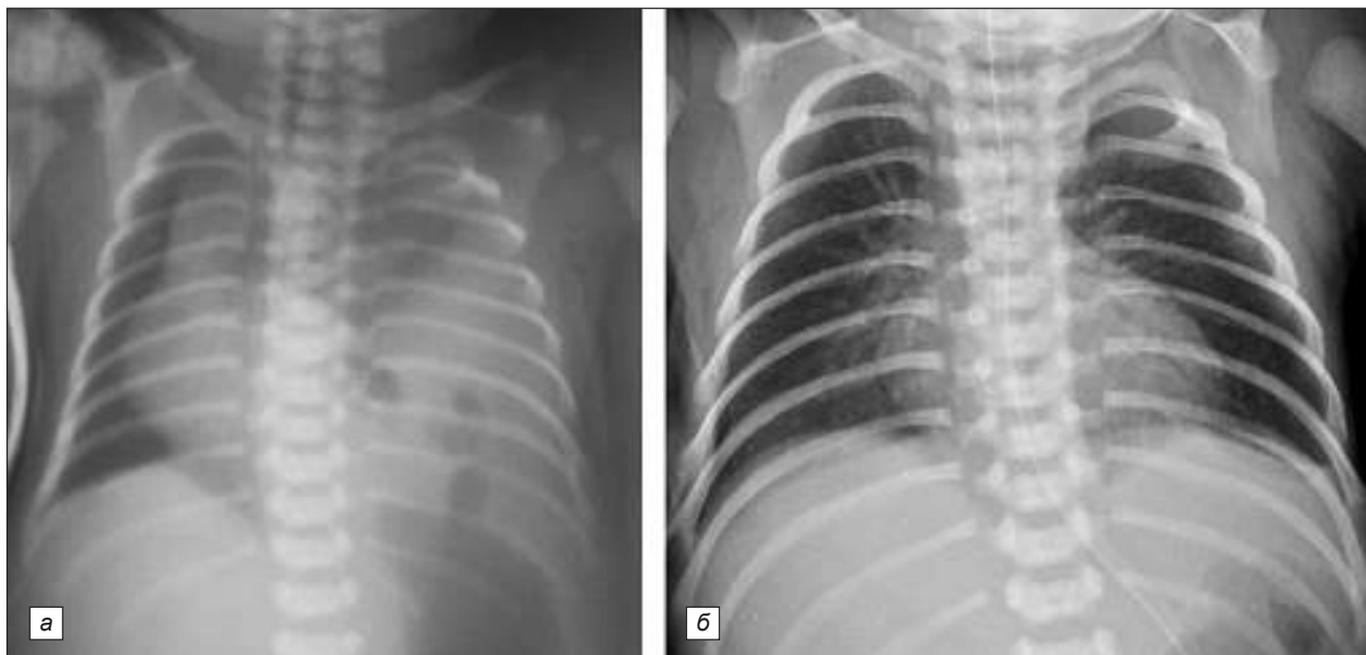


Рис. 1. Обзорная рентгенография органов грудной клетки девочки С. в первые часы после рождения (а) и перед выпиской (б).

Fig. 1. Plain chest X-ray first hours after the birth (a) and before discharge (b) of girl S.

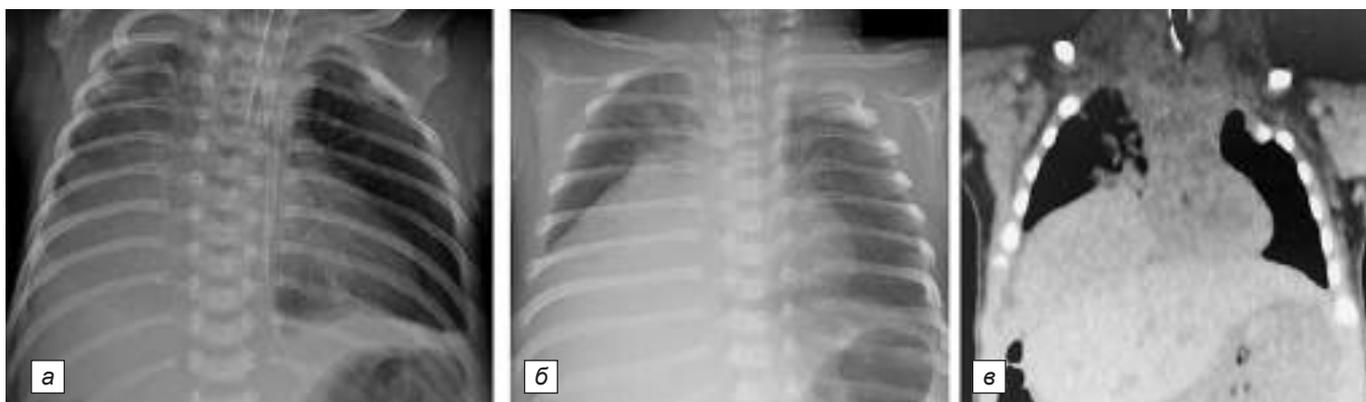


Рис. 2. Обзорная рентгенография органов грудной клетки (а, б) и результаты КТ при повторном поступлении (в) девочки С.

Fig. 2. Plain chest X-ray (a, b) and CT findings on re-admission (c) of girl S.

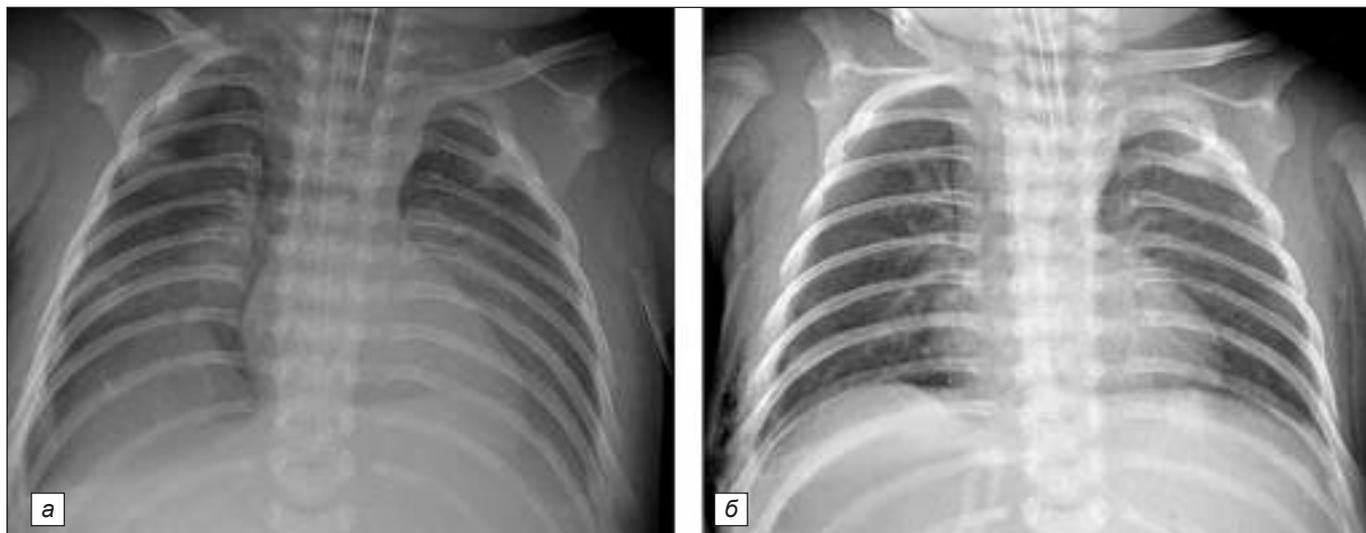


Рис. 3. Обзорная рентгенография органов грудной клетки через 1 сутки после второй операции (а) и перед выпиской из стационара (б) пациентки С.

Fig. 3. Plain chest X-ray one day after the second surgery (a) and before discharge from the hospital (b) of girl S.

После предоперационной подготовки (СДЛА 19 мм рт. ст.), ребёнок взят в операционную. При выполнении правосторонней торакоскопии было выявлено, что в плевральной полости находится печень, которая занимает 2/3 объёма плевральной полости. После погружения печени в брюшную полость обнаружен заднелатеральный дефект диафрагмы до 4 см в диаметре (шель Бохдалека). Выполнена пластика диафрагмы путём наложения отдельных швов с формированием узлов экстракорпорально.

Послеоперационный период протекал без осложнений. На 3-и сутки после операции ребёнок переведён на неинвазивную ИВЛ, а потом на самостоятельное дыхание. На 11-е сутки после оперативного лечения ребёнок в удовлетворительном состоянии был выписан на амбулаторное лечение (рис. 3).

Обсуждение

По данным проведённого недавно ретроспективного мультицентрового исследования, новорождённые с грыжей Бохдалека чаще бывают доношенными, средний возраст поступления в стационар составляет $4,01 \pm 0,22$ дня, средний гестационный возраст – $36,12 \pm 1,49$ недель, средняя масса тела при рождении – $2530 \pm 166,37$ г [5]. В нашем случае перечисленные параметры новорождённой девочки полностью укладывались в эти показатели.

Пренатальная диагностика пороков развития вообще и диафрагмальной грыжи в частности не всегда бывает успешной на ранних сроках беременности (до достижения плодом возраста жизнеспособности). Большинство случаев ВДГ (67%) удаётся диагностировать при ультразвуковом исследовании (УЗИ) только в конце II или в III триместре беременности [7, 8]. Мы полагаем, что подобная ситуация может быть определена, во-первых, особенностями метода (вряд ли в настоящее время существует более персонализированный метод диагностики, чем УЗИ), во-вторых, возможными случаями неверификации патологии вследствие ещё не произошедшей транслокации органов брюшной полости в грудную (которая может произойти как антенатально, так и интра- или же постнатально).

Заключение

В описанном нами случае антенатальный ультразвуковой скрининг оказался не эффективным по первой группе причин (дефект слева). Постнатальным перемещением органов во врождённый дефект диафрагмы можно объяснить второй эпизод (дефект справа).

Авторы выражают надежду на то, что их скромный практический опыт окажется полезным для коллег при диагностике и лечении этой сложной патологии.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Исаков Ю.Ф., Володин Н.Н., Гераськин А.В. *Неонатальная хирургия*. М.: Династия; 2011: 332–58. Isakov Yu.F., Volodin N.N., Geraskin A.V. *Neonatal Surgery [Neonatal'naya khirurgiya]*. Moscow: Dynastiya; 2011: 332–58. (in Russian)
- Юдина Е.В. Лгкие. В кн.: *Медведев М.В. Пренатальная эхография*. М.: Реальное Время; 2005: 341–71. Yudina E.V. Lungs. In: *Medvedev M.V. Prenatal sonography [Prenatal'naya ekhografiya]*. Moscow: Real'noe Vremya; 2005: 341–71. (in Russian)
- Кат'ко В.А. *Детская хирургия*. Минск: Вышэйшая школа; 2009. Kat'ko V.A. *Pediatric surgery [Detskaya khirurgiya]*. Minsk: Vyshejschaya shkola; 2009. (In Russian)
- Лапшин В.И., Разин М.П., Аксельров М.А., Батуров М.А., Скобелев В.А., Смоленцев М.М., Емельянова В.А., Смирнов А.В., Патюхина Н.А. Торакоскопическое лечение новорождённого с ложной правосторонней диафрагмальной грыжей. *Детская хирургия*. 2019; 23(2): 106–9. <https://doi.org/10.18821/1560-9510-2019-23-2-106-109> Lapshin V.I., Razin M.P., Axelrov M.A., Baturov M.A., Skobelev V.A., Smolentsev M.M., Emelyanova V.A., Smirnov A.V., Patyukhina N.A. Thoracoscopic treatment of a newborn with a false right-sided diaphragmatic hernia. *Detskaya khirurgiya*. 2019; 23(2): 106–9. <https://doi.org/10.18821/1560-9510-2019-23-2-106-109> (In Russian)
- Разин М.П., Минаев С.В., Аксельров М.А., Тараканов В.А., Свирицкий А.А., Трушин П.В., Галанина А.В., Барова Н.К., Грамзин А.В., Смоленцев М.М., Ракитина Е.Н., Скляр К.Е., Махлин А.М., Емельянова В.А., Севковский И.А. Диагностика и лечение врождённых диафрагмальных грыж у детей: мультицентровое исследование. *Медицинский вестник Северного Кавказа*. 2019; 14(2): 302–8. <https://doi.org/10.14300/mnnc.2019.14037> Razin M.P., Minaev S.V., Aksel'rov M.A., Tarakanov V.A., Svirskij A.A., Trushin P.V., Galanina A.V., Barova N.K., Gramzin A.V., Smolentsev M.M., Rakitina E.N., Sklyar K.E., Mahlin A.M., Emel'yanova V.A., Sevkovskij I.A. Diagnosis and treatment of congenital diaphragmatic hernia in children: a multicenter study. *Medicinskii vestnik Severnogo Kavkaza*. 2019; 14(2): 302–8. <https://doi.org/10.14300/mnnc.2019.14037> (In Russian)
- Зарецкая Н.В., Буров А.А., Подуровская Ю.Л., Воеводин С.М., Екимов А.Н., Трофимов Д.Ю., Ляпин В.М., Щеголев А.И., Лужина И.А., Демидов В.Н., Дегтярев Д.Н. Двусторонняя диафрагмальная грыжа – сложности пренатального прогноза и репродуктивного консультирования семьи. *Акушерство и гинекология*. 2015; 8: 109–13. Zareckaya N.V., Burov A.A., Podurovskaya YU.L., Voevodin S.M., Ekimov A.N., Trofimov D.Yu., Lyapin V.M., Shchegolev A.I., Luzhina I.A., Demidov V.N., Degtyarev D.N. Bilateral diaphragmatic hernia – difficulties in prenatal prognosis and reproductive counseling of the family. *Akusherstvo i ginekologiya*. 2015; 8: 109–13. (In Russian)
- Britto I.S., Regina Silva Herbest S., Tedesco G.D., Drummond C.L., Bussamra L.C., Araujo Júnior E., et al. Prenatal diagnosis of a fetus with ring chromosomal 15 by two- and three-dimensional ultrasonography. *Case Rep. Obstet. Gynecol.* 2014; 2014: 495702.
- Tudorache S., Chiuțu L.C., Iliescu D.G., Georgescu R., Stoica G.A., Simionescu C.E. et al. Prenatal diagnosis and perinatal outcome in congenital diaphragmatic hernia. Single tertiary center report. *Rom. J. Morphol. Embryol.* 2014; 55(3): 823–33.

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-361-366>

Клиническое наблюдение

© Козлов Ю.А.^{1,2,3}, Полоян С.С.^{1,3}, Марчук А.А.¹, Рожанский А.П.³, Быргазов А.А.³, Ковальков К.А.^{4,5}, Очиров Ч.Б.⁴, Капуллер В.М.⁶, Наркевич А.Н.⁷

Лапароскопическое лечение гидронефроза у детей с подковообразной почкой: описание серии случаев

¹ГБУЗ «Иркутская государственная областная детская клиническая больница», 664022, г. Иркутск, Российская Федерация;

²Иркутская государственная медицинская академия последипломного образования – филиал ФГБОУ ДПО «Российская медицинская академия непрерывного профессионального образования» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 664049, г. Иркутск, Российская Федерация;

³ФГБОУ ВО «Иркутский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 664003, г. Иркутск, Российская Федерация;

⁴ГАУЗ «Кузбасская областная детская клиническая больница имени Ю.А. Атаманова», 650056, г. Кемерово, Российская Федерация;

⁵ФГБОУ ВО «Кемеровский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 650056, г. Кемерово, Российская Федерация;

⁶Университетский медицинский центр «Ассута», медицинский факультет университета имени Бен-Гуриона в Негеве, Ашдод, Израиль;

⁷ФГБОУ ВО «Красноярский государственный медицинский университет имени профессора В.Ф. Войно-Ясенецкого» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 660022, Красноярск, Российская Федерация

Введение. Научное исследование представляет собой описание серии клинических случаев лапароскопического лечения обструкции пиелoureтерального сегмента у 3 детей с подковообразной почкой (ПОП).

Материал и методы. Лапароскопическое лечение гидронефроза у пациентов с подковообразной почкой было выполнено одним хирургом у 3 детей (мальчики – 2, девочки – 1). Предоперационная компьютерная томография подтвердила диагноз и обнаружила обструкцию пиелoureтерального сегмента как источника гидронефроза. Лапароскопия окончательно установила анатомию подковообразной почки и причину обструкции пиелoureтерального сегмента в виде высокого отхождения мочеточника от лоханки или aberrантного сосуда. В качестве окончательного метода лечения использовали пиелопластику, выполненную по методике Anderson–Hynes.

Поражение левой половины отмечено в 2 случаях, правой – в 1. Все 3 процедуры были выполнены успешно лапароскопическим способом без конверсии в открытую операцию. Продолжительность хирургического вмешательства варьировала от 60 до 90 мин. Среднее время операции составило $75,0 \pm 15,0$ (медиана (Me) – 75,0 [67,5; 82,5]) мин. Средняя продолжительность пребывания в палате интенсивной терапии составила $19,3 \pm 4,2$ (Me – 18,0 [17,0; 21,0]) ч, с самым длинным интервалом 24 ч у пациента младшего возраста из-за проблем с деканюляцией трахеи.

Переднезадний диаметр лоханки был измерен до операции и через 6 мес после выполненного хирургического вмешательства. Установлено, что у всех пациентов достигнуто уменьшение размеров лоханки в среднем с $43,3 \pm 11,5$ до $8,0 \pm 2,0$ мм (Me – 50,0 [40,0; 50,0] мм и $8,0$ [7,0; 9,0] мм, соответственно). Пациенты также демонстрировали положительные тренды восстановления кровотока в поражённом сегменте ПОП. Изменение индекса резистентности (ИР) составило в среднем от $0,70 \pm 0,02$ до $0,62 \pm 0,02$ (медианы – 0,71 [0,70; 0,72] и 0,62 [0,61; 0,63], соответственно).

Заключение. Хирургическое лечение гидронефроза у пациентов с подковообразной почкой представляет собой сложную проблему. В основном, это связано с изменённой почечной анатомией и разнообразием причин, вызывающих гидронефроз. Очевидно, что лапароскопическая пиелопластика является универсальным способом лечения этого состояния.

Ключевые слова: подковообразная почка; гидронефроз; пиелопластика; лапароскопия; дети

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Козлов Ю.А., Полоян С.С., Марчук А.А., Рожанский А.П., Быргазов А.А., Ковальков К.А., Очиров Ч.Б., Капуллер В.М., Наркевич А.Н. Лапароскопическое лечение гидронефроза у детей с подковообразной почкой: описание серии случаев. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 361–366. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-361-366>

Для корреспонденции: Козлов Юрий Андреевич, доктор мед. наук, главный врач ГБУЗ «ИГОДКБ»; профессор кафедры детской хирургии ФГБОУ ВО «ИГМУ» МЗ РФ; профессор кафедры ИГМАПО, 664022, г. Иркутск. E-mail: yuriherz@hotmail.com

Участие авторов. Все соавторы внесли равнозначный вклад в исследование и подготовку статьи к публикации, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 18 октября 2022 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-361-366>

Clinical observation

© Kozlov Yu.A.^{1,2,3}, Poloyan S.S.^{1,3}, Marchuk A.A.¹, Rozhanski A.P.³, Byrgazov A.A.³, Kovalkov K.A.^{4,5}, Ochirov Ch.B.⁴, Kapuller V.M.⁶, Narkevich A.N.⁷

Laparoscopic treatment of hydronephrosis in children with the horseshoe kidney: description of a case series

¹Irkutsk State Regional Children's Clinical Hospital, 664022, Irkutsk, Russian Federation;

²Irkutsk State Medical Academy of Postgraduate Education, 664049, Irkutsk, Russian Federation;

³Irkutsk State Medical University, 664003, Irkutsk, Russian Federation;

⁴Atamanov Kuzbass Regional Children's Clinical Hospital, 650056, Kemerovo, Russian Federation;

⁵Kemerovo State Medical University, 650056, Kemerovo, Russian Federation;

⁶Assuta University Medical Center, Ben-Gurion University, Ashdod, Israel;

⁷Voino-Yasenetsky Krasnoyarsk State Medical University, 660022, Krasnoyarsk, Russian Federation

Introduction. The present research is a case series of laparoscopic treatment of pyeloureteral obstruction in 3 patients with a horseshoe kidney.

Material and methods. Laparoscopic treatment of hydronephrosis in three patients with the horseshoe kidney was performed by one surgeon (2 boys, 1 girl). Preoperative computed tomography confirmed the diagnosis and found a source of hydronephrosis – obstruction of the pyeloureteral segment. At laparoscopy, the horseshoe kidney anatomy was finally defined and the cause of the obstruction of the pyeloureteral segment was found too - high ureteral transposition from the pelvis or an aberrant vessel. Pyeloplasty performed by Anderson-Hynes technique was a final stage of the treatment.

Results. The lesion of the left kidney half was noted in 2 cases, of the right one – in 1 case. All three interventions were successfully performed laparoscopically without conversion to open surgery. Duration of surgical intervention varied from 60 to 90 minutes. Mean operative time was 75.0±15.0 min (median – 75.0 [67.5; 82.5] min). Average stay in ICU was 19.3±4.2 hours (median – 18.0 [17.0; 21.0] hours) with the longest interval being 24 hours in a younger patient due to tracheal decannulation problems.

The anteroposterior diameter of the pelvis was measured before surgery and 6 months after surgery. It was found that all patients had reduction in the pelvis size in average from 43.3±11.5 mm to 8.0±2.0 mm (median – 50.0 [40.0; 50.0] mm and 8.0 [7.0; 9.0] mm, respectively). Patients also showed a positive trend in the restoration of blood flow in the affected segment of the kidney. Resistance index changes were in averaged from 0.70±0.02 to 0.62±0.02 (median – 0.71 [0.70; 0.72] and 0.62 [0.61; 0.63], respectively).

Conclusion. Surgical treatment of hydronephrosis in patients with the horseshoe kidney is a complex problem, mainly because of the altered renal anatomy and variety of triggers that may cause hydronephrosis. Laparoscopic pyeloplasty is obviously a universal way to treat the discussed pathology.

Key words: horseshoe kidney; hydronephrosis; pyeloplasty; laparoscopy; children

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Kozlov Yu.A., Poloyan S.S., Marchuk A.A., Rozhanski A.P., Byrgazov A.A., Kovalkov K.A., Ochirov Ch.B., Kapuller V.M., Narkevich A.N. Laparoscopic treatment of hydronephrosis in children with the horseshoe kidney: description of a case series. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 361-366. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-361-366> (In Russian)

For correspondence: Yury A. Kozlov, Chief Doctor, Irkutsk State Regional Children's Clinical Hospital, 664022 Irkutsk, Russian Federation. E-mail: yuriherz@hotmail.com

Information about authors:

Kozlov Yu.A., <https://orcid.org/0000-0003-2313-897X>

Poloyan S.S., <https://orcid.org/0000-0001-7042-6646>

Marchuk A.A., <https://orcid.org/0000-0001-9767-0454>.

Rozhanski A.P., <https://orcid.org/0000-0001-7922-7600>

Byrgazov A.A., <https://orcid.org/0000-0002-9195-5480>

Kovalkov K.A., <https://orcid.org/0000-0001-6126-4198>

Ochirov Ch.B., <https://orcid.org/0000-0002-6045-1087>

Kapuller V.M., <https://orcid.org/0000-0003-0076-5778>

Narkevich A.N., <https://orcid.org/0000-0002-1489-505>

Author contribution. All co-authors made an equal contribution to the research and preparation of the article for publication, read and approved the final version before publication.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: October 18, 2022 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Слияние (сращение) почек нижними полюсами (подковообразная почка – ПОП) является врождённой урологической аномалией, при которой обе половины консолидированного органа дренируются отдельными почечными лоханками и мочеточниками. Два заболевания, ассоциированные с ПОП, создают проблемы при их хирургическом лечении – обструкция пиелоуретерального сегмента (ПУС) и риск возникновения нефробластомы [1].

Настоящее исследование адресовано изучению гидронефроза (ГН) у пациентов с подковообразной почкой. Риск возникновения этого события оценить трудно, но данные одного из исследований свидетельствуют о том, что при ПОП частота ГН может составлять до 20% [2]. Однако это только единственное упоминание об их сочетании в доступной на сегодняшний день литературе. Классические представления, основанные на том, что нарушение оттока мочи возникает в результате компрессии мочеточника на уровне перешейка ПОП, в настоящее время подвергаются сомнению. Современный взгляд на этиологию гидронефроза у пациентов с ПОП основан на доминирующей роли аномально высокого отхождения мочеточника от лоханки и/или компрессии aberrантными сосудами верхней трети мочеточника. Обе теории находят своё подтверждение в современной литературе [3].

Очевидно, что выбор правильного метода лечения ГН у больных с ГН будет зависеть от идентификации ключевой причины нарушения проходимости ПУС. В эпоху прогресса минимально инвазивного лечения большинства урологических заболеваний у детей взгляды исследователей были обращены на пациентов с ПОП. Однако, в основном из-за редкости аномалии, опубликовано ограниченное количество научных работ, в которых представлены немногочисленные данные о лапароскопическом и робот-ассистированном лечении обструкции ПУС у пациентов с ПОП [4–11].

Настоящая публикация представляет серию случаев, состоящую из 3 пациентов, демонстрирует различный ха-

рактер причин ГН у больных с ПОП и сообщает о возможности исправления аномалии лапароскопическим способом в сложных с позиций анатомии почки условиях.

Материал и методы

Лапароскопическое лечение обструкции ПУС у пациентов с ПОП было выполнено одним хирургом у 3 пациентов (2 мальчика и 1 девочка), которые поступили в отделение хирургии Иркутской государственной областной детской клинической больницы в возрасте от 2 до 7 лет.

Для установления диагноза ГН использовали ультразвуковые и рентгенологические методы исследования. Всем пациентам в качестве первой линии исследования выполняли ультразвуковое исследование (УЗИ) почек на аппарате экспертного класса. Отличительным признаком изучаемой аномалии явилось расширение лоханки, расположенной нетипично низко, и наличие перешейка, который соединял нижние полюсы почек. Также дополнительно выполняли микционную цистоуретрографию для исключения сопутствующего пузырно-мочеточникового рефлюкса.

Предоперационная контрастная компьютерная томография являлась второй линией диагностики источника ГН у пациентов с ПОП и позволяла установить истинную причину обструкции ПУС (рис. 1, 2).

Лапароскопическая хирургия позволила уточнить анатомию ПОП и причину обструкции ПУС в виде высокого отхождения мочеточника от лоханки или aberrантного сосуда. У всех пациентов выполнена пиелопластика по методике Anderson–Hynes со стентированием лоханки, технические детали которой представлены ниже.

Хирургическая техника. Операция выполнена с использованием транспариетальной техники. После индукции в общую анестезию больной был размещён на операционном столе в положении тела на здоровом боку с ротацией на 45 градусов. Использовался карбоперитонеум с «мягкими» параметрами инфуляции углекислого газа – давление 8 мм рт. ст., поток – 2 л/мин. Позицио-



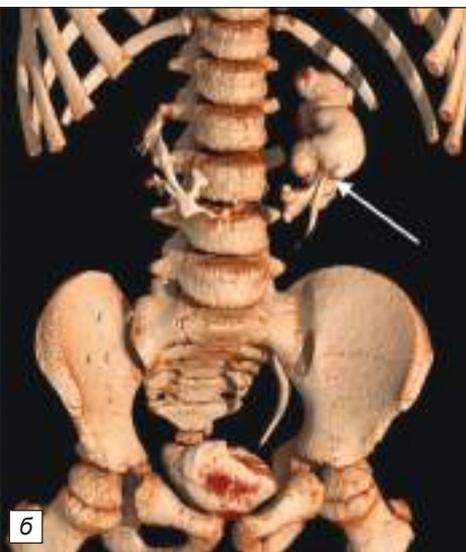
Рис. 1. Контрастная компьютерная томография почек (3D-реконструкция): высокое отхождение мочеточника как причина гидронефроза у пациента с подковообразной почкой.

Fig. 1. Contrast computed tomography of kidneys (3D reconstruction): high ureteral transposition as a cause of hydronephrosis in the patient with a horseshoe kidney.



Рис. 2. Аберрантный сосуд, как причина гидронефроза у пациента с подковообразной почкой: *а* – изображение контрастной компьютерной томографии почек, aberrантный сосуд отмечен стрелкой; *б* – 3D-реконструкция, место сосудистой компрессии отмечено стрелкой.

Fig. 2. The aberrant vessel as the cause of hydronephrosis in the patient with a horseshoe kidney: *a* – contrast computed tomography image of kidneys, aberrant vessel is marked with an arrow; *b* – 3D reconstruction, site of vascular compression is marked with an arrow.



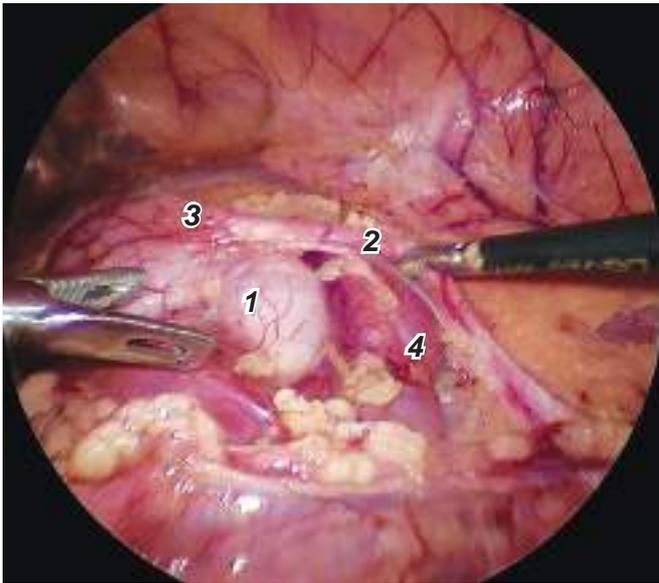


Рис. 3. Внешний вид подковообразной почки во время лапароскопии. Причина гидронефроза – высокое отхождение мочеточника от лоханки (1 – лоханка левого почечного сегмента, 2 – левый мочеточник, 3 – пиелoureтеральный сегмент, 4 – перешеек подковообразной почки)

Fig. 3. View of the horseshoe kidney during laparoscopy. The cause of hydronephrosis is high uretral transposition from the pelvis (1 – pelvis of the left renal segment, 2 – left ureter, 3 – pyeloureteral segment, 4 – horseshoe kidney isthmus).

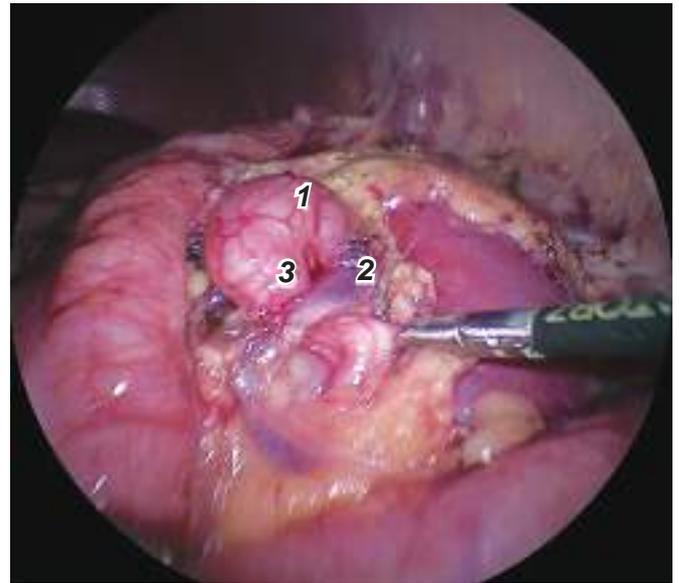


Рис. 4. Внешний вид подковообразной почки во время лапароскопии. Причина гидронефроза – aberrантная нижнеполярная вена (1 – лоханка левого почечного сегмента, 2 – нижнеполярная вена, 3 – мочеточник левого сегмента подковообразной почки).

Fig. 4. View of the horseshoe kidney during laparoscopy. The cause of hydronephrosis is an aberrant inferior polar vein (1 – pelvis of the left renal segment, 2 – inferior polar vein, 3 – ureter of the left segment of the horseshoe kidney).

нирование лапаропортов осуществлялось соответственно с анатомией ПОП. Первый 5-мм порт, предназначенный для установки камеры, был размещён в области пупка. Инструментальные порты размещались соответственно в левой эпигастральной области и левом нижнем квадранте брюшной стенки. В отличие от позиции портов для стандартной ЛП, порты в случае ПОП размещались более каудально из-за низкого расположения почки.

Далее по линии Тольди рассекали париетальную брюшину и проводили мобилизацию левого отдела толстой кишки с перемещением его к срединной линии. Следующим шагом выполняли рассечение фасции Герота над левой половиной ПОП с сохранением гонадных сосудов у мальчиков. Выполняли поиск и мобилизацию расширенной лоханки ПОП и выделение отходящего от неё мочеточника. Причина гидронефроза заключалась в высоком отхождении мочеточника от лоханки у 2 пациентов (рис. 3) и aberrантном сосуде, направляющемся к нижнему полюсу левой половины ПОП (рис. 4). После отсечения мочеточника от лоханки и его продольного рассечения выполняли пиелопластику по методике Anderson–Hynes с применением отдельных узловых швов (рис. 5). У больного с aberrантным почечным сосудом выполняли перемещение мочеточника кпереди от вены, вызвавшей нарушение оттока мочи. Использовали тонкие абсорбирующиеся нити PDS II 6/0, которые завязывали экстракорпорально. Во всех случаях проводили дренирование лоханки с применением наружного стента Biotec Fr5.

Статистический анализ полученных в ходе исследования данных осуществлялся с применением статистического пакета IBM SPSS Statistics v.19. Ввиду малого числа наблюдений для описания полученных количественных данных использовали среднее арифметическое (M), стандартное отклонение (S), медиану (Me), первый

и третий квартили (Q_1 ; Q_3), рассчитанные с использованием сгибов Тьюки. Качественные данные представлены в виде процентов (%) и 95% доверительного интервала (95% ДИ), рассчитанного методом Клоппера–Пирсона ([L%; U%], где L% – нижняя граница, U% – верхняя граница 95% ДИ). Сравнение количественных данных до и после операции осуществлялось с применением критерия Уилкоксона. Статистически значимыми считались различия при уровне значимости $p < 0,05$.

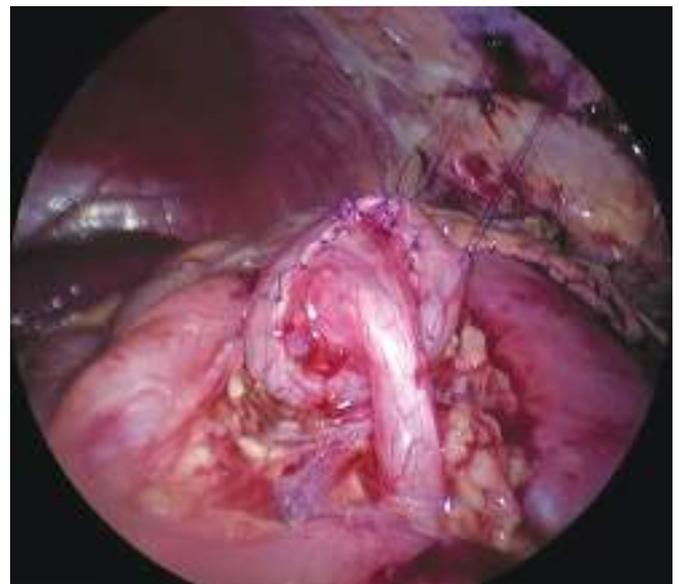


Рис. 5. Внешний вид пиелoureтерального анастомоза.

Fig. 5. View of pyeloureteral anastomosis.

Таблица 1 / Table 1

Периоперативные данные пациентов
Perioperative data of patients

Показатель	№ пациента			$M \pm \sigma$	Me [Q ₁ ; Q ₃]	%
	1	2	3			
Возраст, годы	2	6	5	4,3 ± 2,1	5,0 [3,5; 5,5]	–
Пол	М	Ж	М	–	–	М – 67 [9; 99]; Ж – 33 [1; 91]
Длительность операции, мин	90	75	60	75,0 ± 15,0	75,0 [67,5; 82,5]	–
Длительность пребывания в палате интенсивной терапии, ч	16	24	18	19,3 ± 4,2	18,0 [17,0; 21,0]	–
Длительность госпитализации, дни	7	5	5	5,7 ± 1,2	5,0 [5,0; 6,0]	–
ПЗД лохакни до ОР, мм	50	30	50	43,3 ± 11,5	50,0 [40,0; 50,0]	–
ПЗД лохакни после ОР, мм	10	6	8	8,0 ± 2,0	8,0 [7,0; 9,0]	–
ИР до операции	0,68	0,72	0,71	0,70 ± 0,02	0,71 [0,70; 0,72]	–
ИР после операции	0,60	0,64	0,62	0,62 ± 0,02	0,62 [0,61; 0,63]	–

Таблица 2 / Table 2

Данные литературы о минимально инвазивном лечении обструкции ПУС у пациентов с ПОП
Literature data on minimally invasive treatment of pyeloureteral segment obstruction in patients with the horseshoe kidney

Автор	Год	Число пациентов	Метод	Способ
S. Faddegon и соавт. [4]	2012	4	Пиелопластика	Лапароскопия
T. Blank и соавт. [5]	2014	10	Пиелопластика	Лапароскопия
P. Shadpour и соавт. [6]	2015	8	Перемещение сосудов	Лапароскопия
M. Oderda и соавт. [7]	2017	1	Пиелопластика	Робот-ассистированный
P. Moscardi и соавт. [8]	2017	1	Пиелопластика	Лапароскопия
C. Blevе и соавт. [9]	2017	3	Перемещение сосудов	Лапароскопия
C. Esposito и соавт. [10]	2019	14	Пиелопластика	Робот-ассистированный
S. Ieiri, K. Nagata [11]	2021	1	Перемещение сосудов	Лапароскопия
Всего	–	42	Пиелопластика – 63% Перемещение сосудов – 37%	Лапароскопия – 75% Робот – 25%

Результаты

Периоперативные данные пациентов представлены в табл. 1.

Поражение левой половины ПОП отмечено в 2 случаях, правой – в 1. В качестве окончательного метода лечения использовалась пиелопластика, выполненная по методике Anderson–Hynes.

Все 3 процедуры были выполнены успешно лапароскопическим способом без конверсии в открытую операцию. Продолжительность хирургического вмешательства варьировала от 60 до 90 мин. Среднее время операции составило 75,0 ± 15,0 мин (Me – 75,0 [67,5; 82,5] мин). Средняя продолжительность пребывания в палате интенсивной терапии составила 19,3 ± 4,2 ч (Me – 18,0 [17,0; 21,0] ч) с самым длинным интервалом 24 ч у пациента младшего возраста из-за проблем с деканюляцией трахеи.

Переднезадний диаметр лоханки был измерен до операции и через 6 мес после выполненного хирургического вмешательства. Несмотря на отсутствие статистически значимых различий было установлено, что у всех пациентов достигнуто уменьшение размером лоханки в среднем с 43,3 ± 11,5 до 8,0 ± 2,0 мм (Me – 50,0 [40,0; 50,0] и 8,0 [7,0; 9,0] мм соответственно, $p = 0,109$). Пациенты также демонстрировали положительные тренды восстановления кровотока в поражённом сегменте ПОП. Изменение индекса резистентности (ИР) составило в сред-

нем от 0,70 ± 0,02 до 0,62 ± 0,02 (Me – 0,71 [0,70; 0,72] и 0,62 [0,61; 0,63] соответственно; $p = 0,102$).

Отдалённое наблюдение продемонстрировало эффективность лапароскопии для лечения вазоренального ГН у детей раннего возраста. В раннем и отдалённом периодах наблюдений не отмечалось рецидива заболевания и потери функции почки.

Обсуждение

У значительной части пациентов с подковообразной почкой болезнь является бессимптомной на протяжении всей жизни и диагноз этой аномалии устанавливается спорадически на основании выполненного ультразвукового исследования.

Наиболее распространённой, связанной с ПОП, проблемой является обструкция верхних мочевых путей в области ПУС, которая наблюдается от 20 до 35% случаев [1, 9]. Ассоциированная с ГН мочекаменная болезнь развивается у 20–60% пациентов с ПОП [10]. У пациентов с ПОП регистрируется удвоенный риск развития опухоли Вильмса, частота которой составляет до 28% всех почечных опухолей, по данным A. Khan [12].

Наиболее частой патологией, сочетающейся с ПОП, является обструкция ПУС. Этиологическим фактором возникновения обструкции ПУС является высокое отхождение мочеточника, который расположен выше, чем

обычно. Другой причиной развития ГН являются аберрантные сосуды. Существует широкая вариация сосудистой анатомии у пациентов с ПОП. Около одной трети всех больных с ПОП имеют нормальное кровоснабжение почек, но у оставшихся двух третей определяются одна, две или даже три артерии, которые отходят от аорты к почке, а также существуют добавочные сосуды, направляющиеся непосредственно к перешейку [9]. Почечные артерии могут отходить от аорты, подвздошных артерий и нижней брыжеечной артерии [13, 14]. Была предложена система классификации с шестью основными моделями артериального кровоснабжения, свойственными для каждого сегмента ПОП [15]. Стоит предполагать, что у пациентов с ПОП может встречаться близкий контакт мочеточника с аномальными сосудами, который будет приводить к внешней компрессии мочеточника.

Наше исследование продемонстрировало разнообразный характер обструкции ПУС у пациентов с ПОП – в двух из трёх случаев она сопровождалась высоким отхождением мочеточника, в одном была вызвана аберрантным сосудом.

Существует несколько способов коррекции ГН у пациентов с ПОП. Они представлены классической пиелопластикой по методике Anderson–Hynes и перемещением / вазопексией аберрантных сосудов.

Минимально инвазивный подход для лечения обструкции ПУС впервые был продемонстрирован в 1996 г. G. Janetschek и соавт. [16]. Систематический обзор существующих публикаций обнаружил всего 8 публикаций [4–11], в которых представлены итоги лапароскопических и робот-ассистированных операций, выполненных у детей. Всего упоминается о 42 пациентах, прооперированных с помощью мини-инвазивного доступа. Наименьшая серия насчитывала 1 больного, наибольшая – 14 (табл. 2).

Эти научные исследования демонстрируют редкость ГН у больных с ПОП, а также свидетельствуют о сложности хирургического вмешательства в условиях изменённой почечной анатомии. Предпочтительным методом лечения является пиелопластика, реализованная с помощью минимально инвазивного подхода – лапароскопического (6 исследований) или роботизированного (2 исследования) методов. Среди всех публикаций только в трёх применялась операция сосудистого перемещения и вазопексии.

В своём исследовании мы демонстрируем некоторые ключевые моменты хирургического лечения обструкции ПУС у больных с ПОП, необходимые для достижения высоких показателей послеоперационного успеха.

Во-первых, точная предоперационная визуализация имеет решающее значение для определения анатомии строения ПОП и её сосудов, чтобы планировать оптимальное хирургическое вмешательство [17]. КТ-урография и ангиография позволяют установить истинные причины обструкции ПУС. С помощью этих методов мы установили внутреннюю причину ГН у 2 больных и внешнюю обструкцию аберрантными сосудами у 1 больного.

Во-вторых, анатомия ПОП требует особого размещения лапаропортов на передней брюшной стенке. При ПОП орган расположен низко в сравнении с нормально сформированной почкой и по этой причине лапаропорты устанавливаются более каудально, чтобы обеспечить лучшую визуализацию и манипулирование [18].

Наш опыт продемонстрировал, что лапароскопия является безопасным и эффективным методом лечения обструкции ПУС у пациентов с ПОП. Лапароскопия позволяет хирургу ориентироваться в сложной анатомии почек и предоставляет ему в этих случаях технические преимущества в сравнении с открытой хирургией или ретроперитонеоскопией.

Несомненно стоит отметить, что *ограничением данного исследования является малое число наблюдений.*

Заключение

Хирургическое лечение обструкции ПУС у пациентов с ПОП представляет собой сложную проблему. В основном, это связано с изменённой почечной анатомией и разнообразием причин, вызывающих гидронефроз.

Очевидно, что лапароскопическая пиелопластика является универсальным способом лечения этого состояния. Однако другие методы лечения, например, вазопексия, также могут рассматриваться как метод лечения ГН, вызванного аберрантными сосудами, наравне с пиелопластикой.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Ram A.D., Thomas R.E., Malone P. A new operative technique for a rare case of pyelic fusion. *J Pediatr Urol.* 2011; 7(5): 574–5.
- Gonzalez F., Canning D.A., Hyun G., Casale P. Lower pole pelvi-ureteric junction obstruction in duplicated collecting systems. *BJU Int.* 2006; 97: 161–5.
- Natsis K., Piagkou M., Skotsimara A., Protogerou V., Tsitouridis I., Skandalakis P. Horseshoe kidney: a review of anatomy and pathology. *Surg Radiol Anat.* 2014; 36: 517–526.
- Faddegon S., Granberg C., Tan Y.K., et al. Minimally invasive pyeloplasty in horseshoe kidneys with ureteropelvic junction obstruction: a case series. *Int Braz J Urol.* 2013; 39: 195–202.
- Blanc T., Koulouris E., Botto N., et al. Laparoscopic pyeloplasty in children with horseshoe kidney. *J Urol.* 2014; 191: 1097–103.
- Shadpour P., Akhyari H.H., Maghsoudi R., Etemadian M. Management of ureteropelvic junction obstruction in horseshoe kidneys by an assortment of laparoscopic options. *Can Urol Assoc J.* 2015; 9: 775–9.
- Oderda M., Calleri G., Allasia M., Dalmasso E., Falcone M., Catti M., Merlini E., Gontero P. Robot-assisted laparoscopic pyeloplasty in a pediatric patient with horseshoe kidney: surgical technique and review of the literature. *Urologia.* 2017; 84: 55–60.
- Moscardi P.R., Lopes R.I., Mello M.F., Barbosa C.M. Neto, Cezarino B.N., Oliveira L.M., Dénes F.T., Srougi M. Laparoscopic Pyeloplasty in children with Horseshoe Kidney. *Int Braz J Urol.* 2017; 43(2): 375.
- Bleve C., Bucci V., Conighi M.L., Battaglino F., Costa L., Fasoli L., Zolpi E., Chiarenza S.F. Horseshoe kidney and uretero-pelvic-junction obstruction in a pediatric patient. Laparoscopic vascular hitch: A valid alternative to dismembered pyeloplasty? *Pediatr Med Chir.* 2017; 39(4): 178.
- Esposito C., Masieri L., Blanc T., Manzoni G., Silay S., Escolino M. Robot-assisted laparoscopic pyeloplasty (RALP) in children with horseshoe kidneys: results of a multicentric study. *World J Urol.* 2019; 37(10): 2257–63.
- Ieiri S., Nagata K. Laparoscopic transposition for crossing vessels (vascular hitch) in pure extrinsic pelvic-ureteric junction obstruction: a successful case report of a 2-year-old infant with horseshoe kidney. *Surg Case Rep.* 2021; 7(1): 103.
- Khan A., Myatt A., Palit V., et al. Laparoscopic heminephrectomy of a horseshoe kidney. *J Soc Laparoend Surg.* 2011; 15: 415–20.
- Rossi U.G., Romano M., Ferro C. Seven renal arteries. *Clin Anat.* 2006; 19: 632–3.
- Bamac B., Colak T. Bilateral accessory renal arteries with retroaortic left renal vein: report of an elderly cadaver case. *Clin Anat.* 2006; 19: 714–5.
- Boatman D.L., Cornell S.H., Kolln C.P. The arterial supply of horseshoe kidneys. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med.* 1971; 113: 447–51.
- Janetschek G., Peschel R., Altarac S., Bartsch G. Laparoscopic and retroperitoneoscopic repair of ureteropelvic junction obstruction. *Urology.* 1996; 47: 311–6.
- Mostafavi M.R., Prasad P.V., Saltzman B. Magnetic resonance urography and angiography in the evaluation of a horseshoe kidney with ureteropelvic junction obstruction. *Urology.* 1998; 51: 484–6.
- Esposito C., Masieri L., Blanc T., Musleh L., Ballouhey Q., Fourcade L., Escolino M. Robot-assisted laparoscopic pyeloplasty (RALP) in children with complex pelvi-ureteric junction obstruction (PUJO): results of a multicenter European report. *World J Urol.* 2021; 39(5): 1641–7.

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-367-369>

Клиническое наблюдение / Clinical observation

© Мустакимов Б.Х., Ростовцев Н.М.

Лечение спонтанного гемопневмоторакса у ребёнка 16 лет

ГАУЗ «Челябинская областная детская клиническая больница», 454087, г. Челябинск, Российская Федерация

Введение. Спонтанный гемопневмоторакс – это жизнеугрожающее редкое заболевание, требующее экстренных мер, направленных на устранение пневмоторакса, остановки кровотечения, а также контроля витальных функций организма. Цель – показать редкое клиническое наблюдение с успешным использованием минимально инвазивных технологий.

Описание клинического случая. Представлен случай успешного лечения спонтанного гемопневмоторакса у ребёнка 16 лет. Поступил с жалобами на обморок, вялость, слабость, боли в грудной клетке. Сразу выполнена мультиспиральная компьютерная томография (МСКТ) грудной клетки, которая показала тотальный правосторонний напряжённый гидроневмоторакс. Выполнено дренирование плевральной полости, получено до 2000 мл крови. После у ребёнка упало артериальное давление, восстановлено путём введения кристаллоидных растворов. За следующие 2 ч выделилось ещё 200 мл крови. Выполнена гемотрансфузия свежезамороженной плазмы и эритроцитарной массы. При дальнейшем наблюдении отделяемое прекратилось, воздухоотечения не было. После стабилизации состояния пациента на следующие сутки выполнена торакоскопия. В плевральной полости имелось большое количество сгустков крови, полость санирована. На вершине правого лёгкого выявлены блябы диаметром до 0,5 см, другой органической патологии и источника продолжающегося кровотечения не выявлено. Выполнена атипичная резекция апикальных сегментов лёгкого. Больной выписан на 7-е сутки. На контрольной рентгенограмме через 1 мес у пациента выявлен ненапряжённый пневмоторакс справа, госпитализирован повторно. Выполнена торакоскопия, в плевральной полости имелся невыраженный спаечный процесс, другой патологии не выявлено. Проведено рассечение спаек и субтотальная плеврэктомия. Выписан на 6-е сутки. В течение 12 мес послеоперационного наблюдения отдалённых осложнений не отмечено, данных за рецидив заболевания не выявлено.

Заключение. Продемонстрировано успешное лечение больного со спонтанным гемопневмотораксом. При данном осложнении спонтанного пневмоторакса показано раннее оперативное лечение, при стабильном состоянии выполнение торакоскопии. Возникший рецидив пневмоторакса ставит вопрос о выполнении плеврэктомии первично.

Ключевые слова: гемопневмоторакс; торакоскопия; пневмоторакс; дети

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациента. Законные представители участника исследования дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Мустакимов Б.Х., Ростовцев Н.М. Лечение спонтанного гемопневмоторакса у ребёнка 16 лет. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 367-369. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-367-369>

Для корреспонденции: Мустакимов Борис Хамисович, врач-детский хирург, торакальный хирург ГАУЗ ЧОДКБ, 454087, г. Челябинск, Россия. E-mail: bhmustakimov@gmail.com

Участие авторов: Мустакимов Б.Х. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста, редактирование; Ростовцев Н.М. – редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 29 ноября 2022 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликована: 30 ноября 2023

© Mustakimov B.Kh., Rostovcev N.M.

Treatment of spontaneous hemopneumothorax in a 16-year-old child

Chelyabinsk Children's Regional Clinical Hospital, 454087 Chelyabinsk, Russian Federation

Introduction. Spontaneous hemopneumothorax is a life-threatening rare disease that requires emergency measures aimed at eliminating pneumothorax, stopping bleeding, as well as controlling vital functions of the body.

Purpose. To describe a rare clinical case with successful application of minimally invasive technologies.

Description of the clinical case. A case of successful treatment of spontaneous hemopneumothorax in a 16-year-old child is presented. The patient was admitted to the hospital with complaints of fainting, lethargy, weakness, chest pain. Multispiral computed tomography (MSCT) of the chest was immediately performed and revealed a total right-sided strained hydropneumothorax. The pleural cavity was drained; up to 2000 ml of blood was obtained. After that procedure, the child's blood pressure dropped and was restored with the infusion of crystalloid solutions. Over the next 2 hours, another 200 ml of blood were discharged. Hemotransfusion of freshly frozen plasma and erythrocyte mass was performed. Upon further observation, the discharge stopped, there was no air flow. After patient's condition was stabilized, thoracoscopy was made next day. In the pleural cavity, a large number of blood clots was revealed; the cavity was sanitized. Blebs up to 0.5 cm in diameter were found on the top of the right lung; no other organic pathology and any sources of ongoing bleeding were detected. A typical resection of the apical segments of the lung was made. The patient was discharged on day 7.

Conclusion. Successful treatment of a patient with spontaneous hemopneumothorax has been demonstrated. With this complication of spontaneous pneumothorax, early surgical treatment is indicated, with a stable condition, thoracoscopy is performed. The resulting recurrence of pneumothorax raises the question of performing a pleurectomy first.

Keywords: hemopneumothorax, thoracoscopy, pneumothorax, children

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Mustakimov B.Kh., Rostovcev N.M. A clinical case of spontaneous hemopneumothorax in a child. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 367-369. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-367-369> (In Russian)

For correspondence: Boris Kh. Mustakimov, pediatric surgeon, Chelyabinsk Children's Regional Clinical Hospital, Chelyabinsk, 454087, Russian Federation. E-mail: bhmustakimov@gmail.com

Information about authors:

Mustakimov B.H., <https://orcid.org/0000-0003-1765-9955>

Rostovcev N.M., <https://orcid.org/0000-0002-2823-8286>

Author contribution: Mustakimov B.H – study concept and design, material collection and processing, text writing, editing; Rostovcev N.M. – editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: November 29, 2022 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Спонтанный гемопневмоторакс (СГП) – это жизнеугрожающее состояние, возникающее на фоне полного здоровья, характеризуется скоплением воздуха и крови в плевральной полости. За последние 10 лет в мировой и отечественной литературе имеются единичные сообщения о СГП, особенно в детской популяции. Частота встречаемости 1,4–6,4% [1–5]. Чаще встречается у мужской половины населения, чем у женской [1, 2]. Отдельной классификации СГП нет, он входит в группу осложнений классификации спонтанного пневмоторакса. Основным методом лечения данной патологии является оперативное вмешательство: дренирование плевральной полости, торакотомия, и в последние десятилетия всё чаще стали использовать минимально инвазивные технологии [2, 3, 6].

Цель работы – представить опыт лечения ребёнка со СГП, вылеченного с использованием минимально инвазивных технологий, а также рецидива пневмоторакса.

Описание клинического наблюдения

Мальчик Ш., 16 лет, доставлен в областную детскую клиническую больницу г. Челябинска бригадой скорой медицинской помощи через 16 ч от начала заболевания из районной больницы. Ночью при подъёме с кровати упал в обморок, стал жаловаться на вялость, слабость, боли в грудной клетке. До этого у врачей по поводу хронических и инфекционных заболеваний органов грудной клетки не наблюдался. Травм не было, не курил. Заболеваний лёгких у ближайших родственников нет. По месту жительства выполнен общий анализ крови (ОАК) (гемоглобин 130 г/л, эритроциты $4,3 \cdot 10^9$ /л), рентгенография грудной клетки не проводилась, после направлен в областное учреждение.

При поступлении ребёнок передвигался самостоятельно, гемодинамических нарушений не отмечено, артериальное давление (АД) 105/65 мм рт. ст., частота сердечных сокращений (ЧСС) 85 в 1 мин, SpO₂ – 97%. В ОАК анемии не было (гемоглобин 127 г/л, эритроциты $4,3 \cdot 10^9$ /л, гематокрит 0,36). При аускультации справа имеется ослабление дыхания. ПЦР-исследование на Sars-cov-2 – отрицательный. Пациенту выполнена рентгенография и компьютерная томография (КТ) грудной клетки – выявлен напряжённый гидропневмоторакс (рис. 1). Выполнено дренирование правой плевральной полости

под общей анестезией в 6-м межреберье по средней подмышечной линии, одномоментно эвакуировано до 2000 мл крови. Появилась гиповолемия, падение АД до 70/40 мм рт. ст. Гемодинамика восстановлена путём проведения инфузионной терапии глюкозо-солевыми растворами. За 2 ч выделилось ещё 200 мл геморрагического отделяемого, в динамике появилась анемия (в ОАК гемоглобин 83 г/л, эритроциты $2,74 \cdot 10^9$ /л, гематокрит 0,23). Проведено переливание свежей замороженной плазмы, эритроцитарной массы. Геморрагическое отделяемое прекратилось, воздухоотечения не было. После стабилизации состояния, на следующие сутки ребёнку выполнена диагностическая торакоскопия в экстренном порядке. В плевральной полости имелось большое количество сгустков крови, полость санирована. На верхушке правого лёгкого выявлены блебы диаметром до 0,5 см (рис. 2), другой органической патологии и источника продолжающегося кровотечения не выявлено. Выполнена атипичная резекция изменённой части апикальных сегментов лёгкого. Плевральная полость дренирована, дренаж после проведения провокационной пробы на 3-и сутки удалён, на контрольной рентгенограмме лёгкие полностью расправлены. Больной выписан домой на 7-е сутки.



Рис. 1. КТ органов грудной клетки при поступлении.

Fig. 1. CT of thoracic cavity organs on admission.

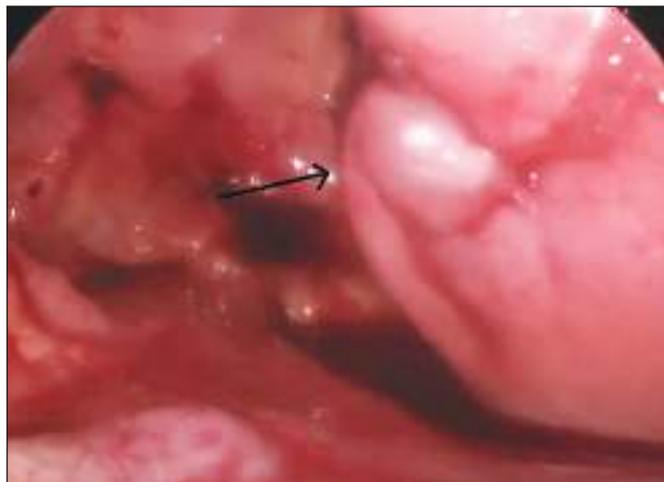


Рис. 2. Блебы на верхушке лёгкого (указаны стрелкой).

Fig. 2. Blebs on the top of the lung (arrow).

На контрольной рентгенограмме через 1 мес у больного выявлен ненапряжённый пневмоторакс справа, госпитализирован в экстренном порядке. Выполнена повторная торакоскопия. В плевральной полости имелся невыраженный спаечный процесс, другой органической патологии не выявлено. Зона ранее проведённой резекции без особенностей. Спайки рассечены и выполнена субтотальная плеврэктомия. Выписан на 6-е сутки. В течение 12 мес послеоперационного наблюдения отдалённых осложнений не отмечено, данных за рецидив заболевания не выявлено.

Обсуждение

Спонтанный гемопневмоторакс является редким заболеванием, особенно у детей [2]. При несвоевременном оказании помощи может привести к летальному исходу. К методам лечения относят дренирование плевральной полости, торакотомию и торакоскопию [2, 7–9]. Нами был выбран минимально инвазивный доступ, так как он менее травматичный, болевой синдром не требует применения наркотических препаратов, имеет низкий риск формирования спаечного процесса [10].

Это позволило использовать данный метод повторно при возникшем рецидиве пневмоторакса. К недостаткам торакокопии можно отнести сложности при удалении сгустков крови через небольшой диаметр троакаров и отсоса, а также требует большого количества растворов для их размывания. Большое количество крови поглощает свет и снижает видимость [1]. Дренирование плевральной полости можно использовать как основной метод лечения [11], но данный метод имеет ограничения, необходимо тщательно следить за отделяемым из дренажа, а также помнить, что дренаж может забиться сгустками крови [12].

К причинам спонтанного гемопневмоторакса обычно относят отрыв спайки между париетальной и висцеральной плеврой, разрывом васкуляризированной буллы или кровотечением из aberrantных сосудов [1, 8]. Основным методом диагностики является рентгенография грудной клетки [2]. При стабильном состоянии пациента желательно выполнить КТ грудной клетки с контрастным усилением [6, 13, 14]. Данный метод позволяет уточнить характер патологического процесса, а также увидеть экстравазацию контрастного вещества в плевральную полость, что на операции выявляет кровотечение из aberrantных сосудов [14, 15]. Первыми основными симптомами начала заболевания являются одышка, боли в грудной клетке, при этом в большинстве случаев артериальное давление,

частота сердечных сокращений остаются в норме, большие передвигаются самостоятельно [8].

Проблема с гемодинамикой и развитием гиповолемического шока появляются сразу, или через некоторое время после дренирования плевральной полости [3, 14]. Во всех случаях удаётся стабилизировать состояние больных, и провести необходимое хирургическое лечение [2].

Несмотря на всю опасность спонтанного пневмоторакса, при своевременном оказании медицинской помощи летальных исходов в литературе не описано [2, 3]. Возможно низкая летальность обусловлена тем, что возникает на фоне полного крепкого здоровья у молодых людей.

Заключение

Нами был пролечен больной со спонтанным гемопневмотораксом. Мы считаем оправданным выполнение раннего оперативного лечения, а при стабильном состоянии пациента – выполнение торакокопии. Также у больного возник рецидив пневмоторакса, что ставит вопрос о необходимости выполнения плеврэктомии на первой процедуре оперативного вмешательства.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Hsu N.Y., Shih C.S., Hsu C.P., Chen P.R. Spontaneous hemopneumothorax revisited: clinical approach and systemic review of the literature. *Ann Thorac Surg.* 2005; 80(5): 1859–63. <https://doi.org/10.1016/j.athoracsur.2005.04.052>
- Tay C.K., Yee Y.C., Asmat A. Spontaneous hemopneumothorax: our experience with surgical management. *Asian Cardiovasc Thorac Ann.* 2015; 23(3): 308–10. <https://doi.org/10.1177/0218492314561502>
- Issaivanan M., Baranwal P., Abrol S., Bajwa G., Baldauf M., Shukla M. Spontaneous hemopneumothorax in children: case report and review of literature. *Pediatrics.* 2006; 118(4): e1268–70. <https://doi.org/10.1542/peds.2006-0766>
- Золотарев Д.В., Хрупкин В.И., Дегтярева Е.В. Хирургическое лечение осложнённых форм спонтанного пневмоторакса. *Медицинский алфавит.* 2015; 2(9): 40–1. <https://elibrary.ru/udopon>
Zolotarev D.V., Brilkin V.I., Degtyareva E.V. Surgical treatment of complicated forms of spontaneous pneumothorax. *Medicinskij alfavit.* 2015; 2(9): 40–1. <https://elibrary.ru/udopon> (in Russian)
- Столяров С.И., Добров А.В., Арсютов В.П. и др. Хирургическая тактика при спонтанном гемопневмотораксе. В кн: *Актуальные вопросы клинической хирургии: Сборник научных статей.* Чебоксары: Чувашский государственный университет имени И.Н. Ульянова; 2020: 56–61. <https://elibrary.ru/mudkbj>
Stolyarov S.I., Dobrov A.V., Arsyutov V.P., et al. Surgical tactics in spontaneous hemopneumothorax. In: *Topical issues of clinical surgery: A collection of scientific articles [Aktual'nye voprosy klinicheskoy khirurgii: Sbornik nauchnyh statej].* Cheboksary: I.N. Ulyanov Chuvash State University; 2020: 56–61. <https://elibrary.ru/mudkbj> (in Russian)
- Разумовский А.Ю., Митупов З.Б., Алхасов А.Б., Петров А.В. Современная тактика лечения спонтанного пневмоторакса у детей. *Детская хирургия.* 2021; 25(S1): 60. <https://elibrary.ru/xeusza>
Razumovsky A.Yu., Mitupov Z.B., Alkhasov A.B., Petrov A.V. Modern tactics of treatment of spontaneous pneumothorax in children. *Det'skaya khirurgiya.* 2021; 25(S1): 60. <https://elibrary.ru/xeusza> (in Russian)
- Chen Y., Guo Z. Unusual case of primary spontaneous hemopneumothorax in a young man with atypical tension pneumothorax: a case report. *J Med Case Rep.* 2018; 12(1): 188. <https://doi.org/10.1186/s13256-018-1732-x>
- Onuki T., Goto Y., Kuramochi M., Inagaki M., Sato Y. Spontaneous hemopneumothorax: epidemiological details and clinical features. *Surg Today.* 2014; 44(11): 2022–7. <https://doi.org/10.1007/s00595-013-0746-7>
- Aragão A.H.M., Fonseca L.A., Deulefeu F.C., Medeiros I.L., de Araújo R.F.V., da Cruz Neto C.A., Neto A.G. Spontaneous hemopneumothorax: a rare cause of unexplained hemodynamic instability in a young patient. *Case Rep Pulmonol.* 2020; 2020: 5026759. <https://doi.org/10.1155/2020/5026759>
- Aljehani Y.M., Almusairi J.A. Efficacy of uniportal video assisted thoracoscopic surgery in management of primary spontaneous hemopneumothorax. *Int J Surg Case Rep.* 2019; 55: 47–9. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2019.01.007>
- Chong K., Qureshi SA., Badaea G., Lok S. Spontaneous haemopneumothorax. *BMJ Case Rep.* 2011; 2011: bcr0420114065. <https://doi.org/10.1136/bcr.04.2011.4065>
- Inafuku K., Maehara T., Yamamoto T., Masuda M. Assessment of spontaneous hemopneumothorax: Indications for surgery. *Asian Cardiovasc Thorac Ann.* 2015; 23(4): 435–8. <https://doi.org/10.1177/0218492314568105>
- Koike Y., Namkoong H., Otake S., Asamura H. Detection of the early stage of spontaneous hemopneumothorax by CT attenuation values. *Clin Case Rep.* 2020; 8(7): 1321–2. <https://doi.org/10.1002/ccr3.2849>
- Nose N., Mori H., Yonei A., Maeda R., Ayabe T., Tomita M., Nakamura K.A. Case of spontaneous hemopneumothorax in which the condition worsened after chest drainage. *J Surg Case Rep.* 2018; 2018(8): rjy217. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjy217>
- Long A., Grimaldo F. Spontaneous hemopneumothorax in a patient with COVID-19. *Am J Emerg Med.* 2021; 40: 228.e1–228.e2. <https://doi.org/10.1016/j.ajem.2020.07.065>

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-370-376>

Клиническое наблюдение

© Асадов Р.Н., Текоев А.Р., Туманян Л.Р., Индерейкин М.В., Врублевская Е.Н., Крапивкин А.И., Врублевский С.Г., Романов П.А., Прокопьев Г.Г., Сарафанова М.Е.

Хирургическое лечение множественных билатеральных абсцессов головного мозга и субдуральных эмпием у ребёнка 6 лет с гнойным риносинуситом

ГБУЗ «Научно-практический центр специализированной медицинской помощи детям имени В.Ф. Войно-Ясенецкого Департамента здравоохранения города Москвы», 119620, Москва, Российская Федерация

Введение. Бактериальные абсцессы и субдуральные эмпиемы головного мозга являются редкими осложнениями риносинуситов, что особенно актуально в педиатрической практике в связи с отсутствием знаний о патогенезе интракраниальных гнойно-воспалительных заболеваний. Гнойные скопления могут локализоваться в субдуральном и эпидуральном пространствах, в веществе головного мозга и являются опасным для жизни состоянием, требующим неотложного, как правило, хирургического лечения.

Цель работы – клиническая демонстрация успешного хирургического лечения пациента с множественными билатеральными абсцессами головного мозга и субдуральными эмпиемами в результате течения гнойного воспаления околоносовых пазух, недиагностированного на догоспитальном этапе.

Клиническое наблюдение. Представляем клиническое наблюдение лечения мальчика М., 6 лет, с множественными билатеральными абсцессами головного мозга и субдуральными эмпиемами. Ребёнку с успехом проведено комплексное лечение, включающее антибактериальную терапию, санацию и дренирование околоносовых пазух, удаление интракраниальных гнойных скоплений с использованием минимально инвазивных доступов с применением точных расчётов на основании проведённой магнитно-резонансной томографии (МРТ) головы.

Наблюдение подтверждает, что абсцессы и субдуральные эмпиемы у пациента явились осложнением гнойного воспаления околоносовых пазух. Для контроля удалённых очагов и исключения появления новых гнойных интракраниальных скоплений в динамике проводилось многократное МРТ-исследование головного мозга. Для успешного лечения гнойных скоплений использовалась методика вскрытия, дренирования, санации с применением антисептических растворов с интраоперационной аспирацией экссудата.

Заключение. Абсцессы и эмпиемы головного мозга у детей являются серьёзными, угрожающими для жизни, заболеваниями, всегда требующими госпитализации и неотложного лечения. Множественные абсцессы и субдуральные эмпиемы у детей, как правило, являются осложнением течения риносинуситов. Интракраниальное распространение инфекции, вероятно, происходит гематогенным путём. Во время лечения ключевое значение имеет динамическое КТ/МРТ-исследование головного мозга, как для контроля удалённых очагов, так и для исключения появления новых гнойных скоплений.

Активная хирургическая тактика в комбинации с антибактериальной терапией позволяет провести успешное лечение пациентов с интракраниальными гнойными скоплениями, осложняющими течение риносинуситов.

Ключевые слова: абсцесс головного мозга; субдуральная эмпиема; абсцесс головного мозга и субдуральная эмпиема у детей

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Все участники исследования (или их законные представители) дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Асадов Р.Н., Текоев А.Р., Туманян Л.Р., Индерейкин М.В., Врублевская Е.Н., Крапивкин А.И., Врублевский С.Г., Романов П.А., Прокопьев Г.Г., Сарафанова М.Е. Клинический случай хирургического лечения множественных билатеральных абсцессов головного мозга и субдуральных эмпием у ребёнка с гнойным риносинуситом. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 370-376. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-370-376>

Для корреспонденции: Асадов Руслан Низами-оглы, врач-нейрохирург ГБУЗ города Москвы «Научно-практический центр специализированной медицинской помощи детям имени В.Ф. Войно-Ясенецкого» ДЗМ, 119620, Москва. E-mail: r.asadov@mail.ru

Участие авторов: Асадов Р.Н., Текоев А.Р. – концепция и дизайн исследования, написание текста, ответственность за целостность всех частей статьи; Туманян Л.Р. – сбор и обработка материала, написание текста; Индерейкин М.В., Романов П.А., Прокопьев Г.Г., Сарафанова М.Е. – сбор и обработка материала; Врублевская Е.Н. – редактирование; Крапивкин А.И. – концепция и дизайн исследования, утверждение окончательного варианта статьи; Врублевский С.Г. – утверждение окончательного варианта статьи.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 10 февраля 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-370-376>

Clinical observation

© Asadov R.N., Tekoyev A.R., Tumanyan L.R., Indereykin M.V., Vrublevskaya E.N., Krapivkin A.I., Vrublevskiy S.G., Romanov P.A., Prokopev G.G., Sarafanova M.E.

surgical treatment of multiple bilateral brain abscesses and subdural empyas in a 6-year-old child with purulent rhinosinusitis

Voyno-Yasenetsky Scientific and Practical Center of Specialized Medical Care for Children, 119620 Moscow, Russian Federation

Introduction. Bacterial brain abscesses and subdural empyema are often rare complications of rhinosinusitis, which is especially important in pediatric practice. Intracranial purulent clusters are life-threatening diseases which require urgent, and as a rule, surgical management.

Purpose. To illustrate successful surgical treatment of a patient with multiple bilateral brain abscesses and subdural empyemas as a result of purulent inflammation - paranasal sinusitis, which had not been diagnosed at the prehospital stage.

Material and methods. A case of a 6-year-old boy with multiple bilateral brain abscesses and subdural empyemas is described in the article. The patient had antibacterial therapy; paranasal sinuses were sanitized; all intracranial purulent foci were removed with minimally invasive approaches and accurate calculations based on findings of MRI examination.

Results. It had been confirmed that abscesses and subdural empyemas in the described patient was a complication of purulent inflammation in paranasal sinuses. To control treated foci and to exclude development of new purulent intracranial clusters in dynamics, multiple MRI examinations of the brain were performed. For successful management of purulent foci, the technique of incision, drainage, sanitation with antiseptic solutions and intraoperative exudate aspiration was applied.

Conclusion. Abscesses and empyemas of children's brain are serious, life-threatening pathologies that always require hospitalization and emergency measures. Multiple abscesses and subdural empyemas is, as a rule, complication of rhinosinusitis. Multiple dynamic CT/MRI examinations of the brain is of a key importance, both for controlling removed foci and for excluding development of new purulent intracranial clusters. Active surgical tactics in the combination with antibacterial therapy leads to successful outcomes in patients with intracranial purulent lesions complicating the course of rhinosinusitis.

Key words: brain abscess; subdural empyema; pediatric brain abscesses and subdural empyemas

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Asadov R.N., Tekoyev A.R., Tumanyan L.R., Indereykin M.V., Vrublevskaya E.N., Krapivkin A.I., Vrublevskiy S.G., Romanov P.A., Prokopev G.G., Sarafanova M.E. surgical treatment of multiple bilateral brain abscesses and subdural empyas in a 6-year-old child with purulent rhinosinusitis. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 370-376. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-370-376> (In Russian)

For correspondence: Ruslan N. Asadov, neurosurgeon, Voyno-Yasenetsky Scientific and Practical Center of Specialized Medical Care for Children, 119620 Moscow, Russian Federation. E-mail: r.asadov@mail.ru

Information about authors:

Asadov R.N., <https://orcid.org/0000-0001-7848-1658>

Tekoev A.R., <https://orcid.org/0000-0002-4006-6499>

Tumanyan L.R., <https://orcid.org/0000-0002-2295-3051>

Indereykin M.V., <https://orcid.org/0000-0001-9260-4036>

Vrublevskaya E.N., <https://orcid.org/0000-0001-7312-5945>

Krapivkin A.I., <https://orcid.org/0000-0002-4653-9867>

Vrublevskiy S.G., <https://orcid.org/0000-0001-9400-7673>

Romanov P.A., <https://orcid.org/0000-0002-1898-7769>

Prokopev G.G., <https://orcid.org/0000-0002-7148-5637>

Sarafanova M.E., <https://orcid.org/0000-0002-2021-9742>

Author contribution: Asadov R.N., Tekoev A.R. – study concept and design, text writing, responsibility for the integrity of all parts of the article; Tumanyan L.R. – material collection and processing, text writing; Indereykin M.V., Romanov P.A., Prokopyev G.G., Sarafanova M.E. – material collection and processing; Vrublevskaya E.N. – editing; Krapivkin A.I. – study concept and design, approval of the final version of the article; Vrublevskiy S.G. – approval of the final version of the article.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: February 10, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Абсцесс головного мозга (АГМ) – это фокальная инфекционная патология, которая характеризуется скоплением гноя, окружённого васкуляризированной капсулой, в веществе головного мозга [1]. Встречаемость абсцессов головного мозга в развивающихся странах составляет около 8%, а в развитых странах – 1–2% [1]. Субдуральная эмпиема – это скопление гноя в пространстве между твёрдой мозговой оболочкой и арахноидальной оболочкой, составляющая 15–20% всех внутричерепных инфекций [1].

Бактериальные абсцессы головного мозга и субдуральные эмпиемы являются редкими осложнениями респираторных инфекций и синуситов [2–7], что особенно актуально в педиатрической практике [8, 9]. Интракраниальное распространение инфекционного процесса объясняется близостью околоносовых пазух к полости черепа и наличием системы бесклапанных анастомозов между венозной сетью лица и интракраниальными венами [6]. Внутричерепные гнойные воспаления у детей сопровождаются головной болью, лихорадкой, тошнотой, рвотой, менингеальными симптомами и судорогами. Очаговая неврологическая симптоматика, такая как парез черепно-мозговых нервов и конечностей, зависит от размеров и локализации гнойного очага [5].

Абсцессы головного мозга и субдуральные эмпиемы, являясь жизнеугрожающими состояниями, всегда требуют стационарного лечения и определения хирургической тактики [9].

Способы лечения интракраниальных гнойных скоплений многообразны – от минимально инвазивных (аспирация и/или дренирование гнойных полостей) до высокотехнологичных инвазивных краниотомий с удалением деструктивных участков поражения головного мозга [1, 2, 4, 5, 8, 10–12]. При субдуральных эмпиемах с выраженной компрессией и отёком вещества головного мозга проводится декомпрессионная краниоэктомия [7].

Динамическое наблюдение и консервативное лечение с применением антибактериальной, дезинтоксикационной терапии возможно при небольших гнойных очагах без значимой компрессии головного мозга, в динамике не увеличивающихся в объёме [13].

В литературе мы встретили единичные случаи комбинации субдуральных эмпием и абсцессов головного мозга, как правило, у взрослых пациентов, в одном из полушарий головного мозга [2, 12]. Билатеральная эмпиема

у взрослого пациента описана лишь у одного автора [6]. В детской практике представлен случай множественных интракраниальных гнойных скоплений при монолатеральном поражении полушария головного мозга у ребёнка 2 лет [10], и абсцесс головного мозга в комбинации с субдуральной эмпиемой в правом полушарии головного мозга у пациента 13 лет [8].

В настоящей статье описан редчайший случай успешного хирургического лечения ребёнка 6 лет с множественными билатеральными абсцессами головного мозга и субдуральными эмпиемами в результате течения гнойного воспаления околоносовых пазух.

Клиническое наблюдение

Мальчик М., 6 лет, заболел за 14 дней до госпитализации, когда впервые появились симптомы острого респираторного заболевания – насморк, лихорадка до 38,3 °С, рвота до 10 раз в сутки. На следующий день после дебюта симптомов возникли отёк в левой подглазничной области и левой щеки, жалобы на боль в области зуба (2.6 зуб на верхней челюсти слева).

Ребёнок осмотрен врачом-стоматологом и через 2 дня проведено удаление больного зуба. Однако вышеуказанные симптомы и жалобы сохранились, и родители обратились к педиатру, который назначил антибактериальную и дезинтоксикационную терапию.

В течение 11 дней, несмотря на проводимое лечение, сохранялась гектическая температура, головная боль и рвота. На 12-е сутки от начала заболевания вызвана бригада скорой медицинской помощи и ребёнок госпитализирован в детское инфекционное боксированное отделение Московского многопрофильного клинического центра «Коммунарка», а в дальнейшем по тяжести состояния переведён в отделение реанимации и интенсивной терапии (ОРИТ), где была выполнена диагностическая лумбальная пункция с клиническим исследованием ликвора. В анализе ликвора выявлены признаки инфекционно-воспалительного процесса – цитоз 4995/3 (1665•10⁶/л). В анализах крови значительное повышение маркеров системного воспаления (лейкоцитоз 30•10⁹/л, С-реактивный белок 400 мг/л). В условиях стационара мальчик получал антибактериальную терапию (меропенем, ванкомицин) в менингеальных дозировках.

С учётом клинических проявлений заболевания с целью верификации диагноза пациенту проведена магнит-

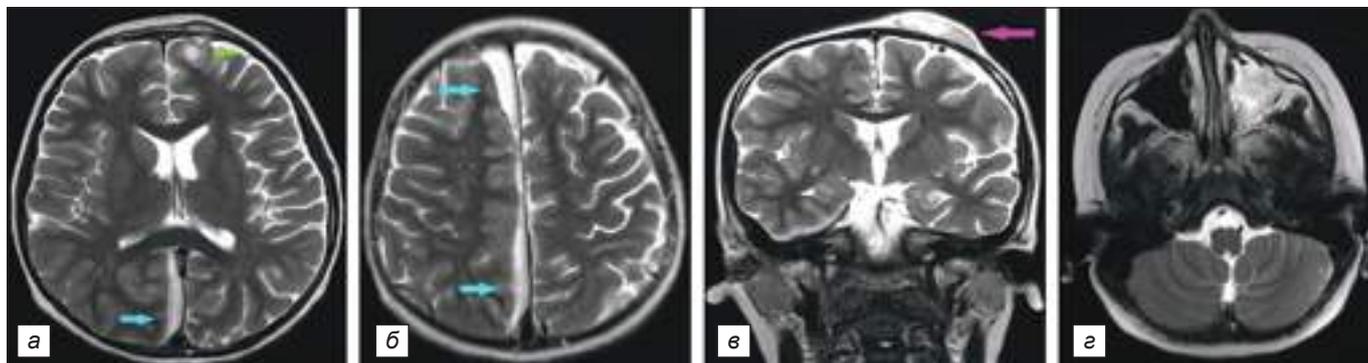


Рис. 1. Первичное МРТ головы пациента М., 6 лет, при поступлении: *a* – внутримозговой абсцесс левой лобной доли (зелёная стрелка), эмпиема межполушарной щели справа (голубая стрелка); *б* – эмпиема межполушарной щели справа (голубые стрелки); *в* – подапонеуротическая флегмона в левой лобно-теменной области (красная стрелка); *г* – гнойный верхнечелюстной синусит слева.

Fig. 1. Primary MRI of the head of patient M., aged 6 years, upon admission: *a* – intracerebral abscess of the left frontal lobe (green arrow), empyema of the interhemispheric fissure on the right (blue arrow); *б* – empyema of the interhemispheric fissure on the right (blue arrows); *в* – subaponeurotic phlegmon in the left frontal-parietal region (red arrow); *г* – purulent maxillary sinusitis on the left.

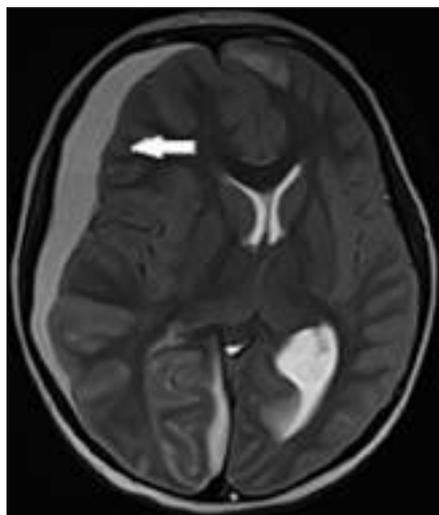


Рис. 2. МРТ головы пациента М. 6 лет. на следующие сутки после госпитализации в НПЦ спец.мед.помощи детям. Вновь образовавшаяся субдуральная эмпиема справа над латеральными отделами правого полушария, вызывающая компрессию и дислокацию структур головного мозга (указано стрелкой).

Fig. 2. MRI of the patient next day after hospitalization. A newly formed subdural empyema on the right above the lateral parts of the right hemisphere causing compression and dislocation of brain structures (arrow).

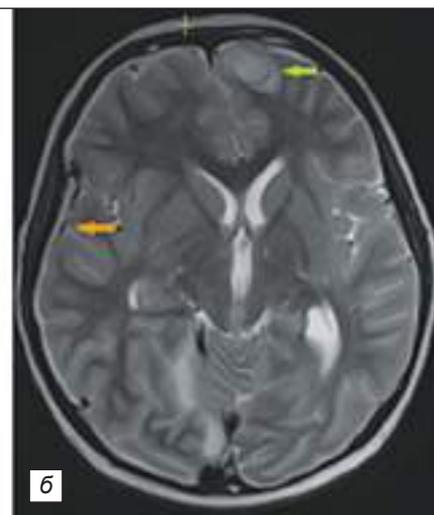
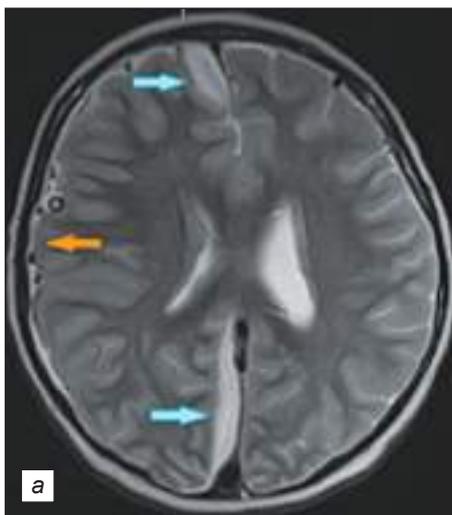


Рис. 3. МРТ головы пациента М., 6 лет, после первой операции: *a* – субдуральная эмпиема справа над латеральными отделами правого полушария регрессировала (оранжевая стрелка), нарастание эмпиемы межполушарной щели справа (голубые стрелки); *б* – увеличение внутримозгового абсцесса левой лобной доли (зелёная стрелка).

Fig. 3. MRI of the head after the first surgical intervention: *a* – subdural empyema on the right above the lateral parts of the right hemisphere has regressed (orange arrow), enlarged empyema of the interhemispheric fissure on the right (blue arrows); *b* – enlarged intracerebral abscess of the left frontal lobe (green arrow).

но-резонансная томография (МРТ) головы и выявлены множественные гнойные очаги поражения: эмпиема межполушарной щели головного мозга справа, абсцесс в левой лобной доле, подпапневротическое скопление в левой теменной области, признаки деструкции левой теменной кости, левосторонний верхнечелюстной синусит, этмоидит, целостность стенок пазух сохранена (рис. 1).

Для дальнейшего лечения ребёнок переведён в ГБУЗ «Научно-практический центр специализированной медицинской помощи детям имени В.Ф. Войно-Ясенецкого Департамента здравоохранения города Москвы».

При поступлении в хирургическое отделение сознание пациента не нарушено, ясное, в неврологическом статусе отмечалась выраженная менингеальная симптоматика (ригидность затылочных мышц, положительный симптом Кернига, светобоязнь), головная боль. Значимой очаговой неврологической симптоматики не выявлено. Выполнена коррекция антибактериальной терапии широкого спектра действия. В день поступления, учитывая данные первичного МРТ, проведена пункция левой гайморовой пазухи, получено около 10 мл густого гноя. После предоперационной подготовки на 2-е сутки госпитализации выполнено дренирование подпапневротической флегмоны левой теменной области, получено 18 мл густого гноя. Через сутки состояние пациента резко ухудшилось. Возникло угнетение уровня сознания до глубокого оглушения, нарастания цефалгического синдрома, развитие судорожных приступов, нарастание менингеальной симптоматики, появление среднетазовой симптоматики и левостороннего гемипареза. Для оценки течения деструктивных процессов выполнена МРТ головы (рис. 2), по данным которой выявлена субдуральная эмпиема над правым полушарием головного мозга тол-

щиной до 15 мм с выраженной дислокацией срединных структур головного мозга влево (до 18 мм), гнойный верхнечелюстной синусит слева.

В экстренном порядке пациенту выполнено хирургическое вмешательство – вскрытие, аспирация и дренирование субдуральной эмпиемы справа. Одновременно проведена гайморотомия слева. При микробиологическом исследовании содержимого эмпиемы выявлен рост *Staphylococcus epidermidis*, чувствительного ко всем основным группам антибиотиков. По наружному субдуральному дренажу после операции отделяемого не было, последний удалён на 5-е сутки после операции. На контрольной МРТ головного мозга выявлен полный регресс субдуральной эмпиемы справа, одновременно наблюдалось увеличение размеров внутримозгового абсцесса в левой лобной доле головного мозга и межполушарной эмпиемы справа (рис. 3).

Пациенту выполнена повторная операция – функциональное удаление внутримозгового абсцесса левой лобной доли, вскрытие, аспирация и дренирование субдуральной эмпиемы в задних отделах межполушарной щели.

При контрольном МРТ головного мозга через 2 дня подтверждён регресс внутримозгового абсцесса левой лобной доли и эмпиемы в задних отделах межполушарной щели, при сохраняющейся эмпиеме в передних отделах межполушарной щели, видимо из-за наличия изолированности её передних и задних отделов (рис. 4).

Полученная нейровизуализация доказала необходимость вскрытия, аспирации и дренирования субдуральной эмпиемы спереди. В обоих случаях по дренажам отделяемого не было, и на 3-и сутки после операции они удалены.

Через 3-е суток после дренирования эмпиемы передних отделов межполушарной щели выполнена динамическая МРТ головного мозга, по данным которой внутрив-

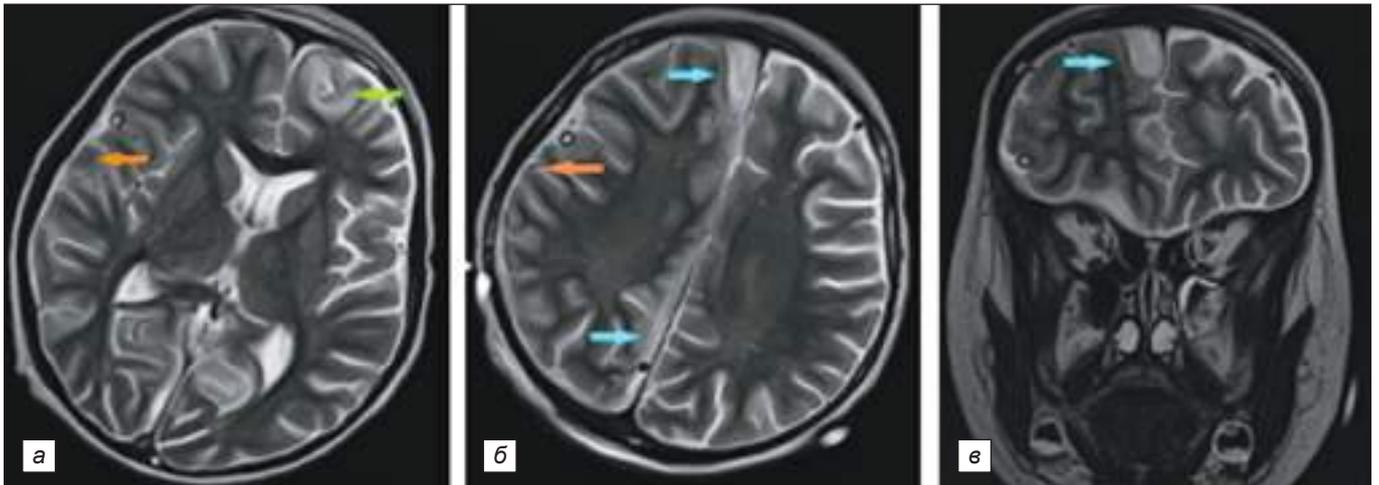


Рис. 4. МРТ головы пациента М., 6 лет, после 2-й операции: *a* – субдуральная эмпиема справа над латеральными отделами правого полушария регрессировала (оранжевая стрелка); абсцесс левой лобной доли эвакуирован (зелёная стрелка); *б, в* – регресс эмпиемы в задних отделах межполушарной щели при сохраняющейся эмпиеме в передних отделах межполушарной щели (голубые стрелки).

Fig. 4. MRI of the head after the second intervention: *a* – subdural empyema on the right above lateral parts of the right hemisphere has regressed (orange arrow); abscess of the left frontal lobe was evacuated (green arrow); *б, в* – regression of the empyema in posterior parts of the interhemispheric fissure with persisting empyema in anterior parts of the interhemispheric fissure (blue arrows).

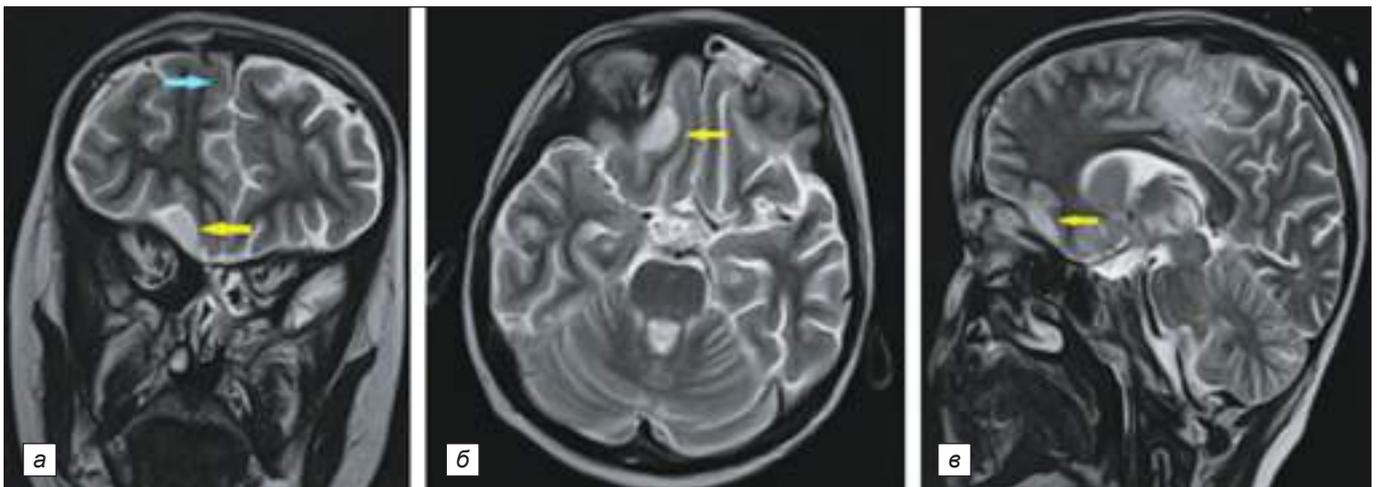


Рис. 5. МРТ головы пациента М., 6 лет, после 3-й операции: *a* – коронарный срез; *б* – аксиальный срез; *в* – парасагиттальный срез. Вновь сформировавшийся абсцесс в базальных отделах правой лобной доли головного мозга (жёлтая стрелка). Эмпиема в передних отделах справа регрессировала (голубая стрелка).

Fig. 5. MRI of the head after the third surgery : *a* – coronary section; *б* – axial sections; *в* – parasagittal section. A newly formed abscess in basal parts of the right frontal lobe of the brain (yellow arrow). Empyema in the anterior sections on the right has regressed (blue arrow).

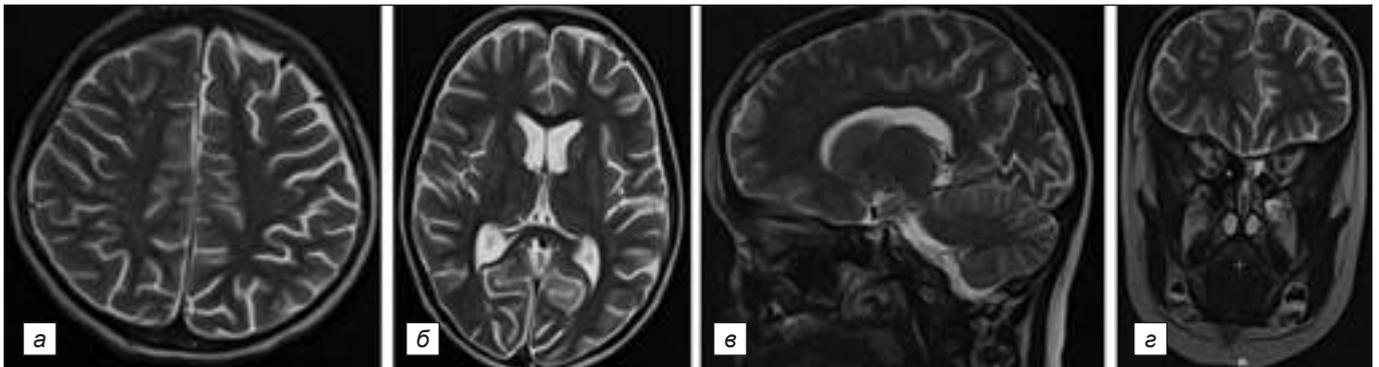


Рис. 6. МРТ головы пациента М., 6 лет, перед выпиской из стационара: *a, б* – аксиальные срезы; *в* – парасагиттальный срез; *г* – коронарный срез. Интракраниальные гнойные очаги не визуализируются.

Fig. 6. MRI of the head of patient M., 6 y. o., before discharge from the hospital: *a, б* – axial sections; *в* – parasagittal section; *г* – coronary section. Intracranial purulent foci are not visualized.

репные эмпиемы полностью регрессировали, однако выявлен новый абсцесс в базальных отделах правой лобной доли головного мозга (рис. 5).

Учитывая локализацию очага, пункционная аспирация абсцесса технически не представлялась возможной, поэтому выполнена краниотомия надбровным доступом. После смещения правой лобной доли кверху проведено вскрытие и аспирация гнойного содержимого, с последующим промыванием полости физиологическим раствором. Следует отметить, что имелись технические сложности на этапе доступа к базальным отделам лобной доли при диссекции субархноидального пространства из-за выраженного спаянного процесса, что сопровождалось повышенной травматизацией вещества головного мозга. В дальнейшем, при контрольном МР-исследовании, после операции травматических и интракраниальных гнойных очагов не выявлено (рис. 6). Клиническое исследование ликвора воспалительных изменений не выявило, посев ликвора был стерильен. Пациент выписан домой в удовлетворительном состоянии без значимого неврологического дефицита.

Обсуждение

Бактериальные абсцессы головного мозга и субдуральные эмпиемы у детей, как правило, являются редкими осложнениями гнойных риносинуситов. В большинстве случаев возбудителями являются стрептококки: *Streptococcus intermedius* (41,6%) и *Streptococcus anginosus* (18,4%), но также данные заболевания могут вызываться другими бактериями, такими как стафилококки или являться полимикробными [9]. Интракраниальное распространение инфекционного процесса объясняется близостью околоносовых пазух к полости черепа. Инфицирование оболочек головного мозга и мозговой ткани происходит контактно, например, при разрушении инфекционно-воспалительным процессом задней стенки лобной пазухи или гематогенным путём по системе бесклапанных анастомозов между сосудистой сетью лица и интракраниальными венами [6].

Абсцессы и эмпиемы головного мозга у детей являются серьёзными, угрожающими жизни заболеваниями, всегда требующими госпитализации и неотложного лечения. Без должного лечения случаи гнойных абсцессов головного мозга и субдуральных эмпием приводят к летальному исходу [5, 6]. Смертность зависит от сроков постановки диагноза и составляет 10% [5]. Основными клиническими проявлениями деструктивных процессов в мозге у детей являются менингеальная симптоматика, головная боль (48%), лихорадка (48%), тошнота, рвота (36%) и судорожные приступы (29,3%) [4]. Наличие очаговой неврологической симптоматики зависит от локализации поражения. Компьютерная томография (КТ) или МРТ головного мозга являются «золотым» стандартом диагностики данных заболеваний [5].

Методом выбора лечения интракраниальных гнойных скоплений должно быть сочетание хирургического вмешательства и антибактериальной терапии [5]. Своевременное хирургическое удаление гнойных интракраниальных очагов и лечение основного синусита может обеспечить полное выздоровление без каких-либо неврологических последствий [5, 6]. Также возможно консервативное лечение не увеличивающихся в объёме небольших гнойных очагов без значимой компрессии головного мозга [13]. Хирургическое удаление интракраниальных гнойных скоплений проводится как минимально инвазивно – аспирация и/или дренирование гнойных полостей через наложенные фрезевые отверстия, так и путём проведения краниотомии

с удалением гнойных скоплений [1, 2, 4, 5, 8, 10–12]. Однако аспирация и дренирование часто являются неэффективными, и требуются повторные вмешательства с удалением гнойных очагов. Как правило, более травматичные операции (краниотомия с удалением гнойных скоплений) требуются при длительном течении заболевания, на операциях выявляется хорошо сформированная капсула вокруг гнойных скоплений без удаления которой радикальное излечение абсцессов или эмпием невозможно [1, 5, 8, 12]. При субдуральных эмпиемах с выраженной компрессией и отёком головного мозга, некоторые авторы, кроме удаления эмпиемы рекомендуют выполнять декомпрессионную краниоэктомию [7].

Нами описан редкий случай успешного хирургического лечения пациента с множественными билатеральными абсцессами головного мозга и субдуральными эмпиемами. Особый интерес представляет собой как возраст ребёнка, так и множественность и двусторонность гнойных очагов. Интракраниальные гнойные скопления у данного пациента являются вторичными как осложнения воспаления околоносовых пазух, так как до появления симптомов интракраниальной инфекции у ребёнка наблюдались течение респираторной инфекции и клинические признаки воспаления околоносовых пазух. Множественные гнойные очаги в обоих полушариях головного мозга, подапоневротическая флегмона в левой лобной области, расположенные вне зоны непосредственного контакта с околоносовыми пазухами, отсутствие деструкции стенок околоносовых пазух и гнойных очагов в других органах и системах, вероятно, подтверждают теорию гематогенного пути интракраниального распространения инфекции через систему бесклапанных венозных анастомозов между сосудистой сетью лица и интракраниальными венами.

Несмотря на то что основным возбудителем абсцессов головного мозга и субдуральных эмпием, вторичных по отношению к риносинуситам являются стрептококки, в нашем наблюдении микробиологическое исследование гноя из субдуральной эмпиемы выявило рост *Staphylococcus epidermidis*, чувствительного к большинству антибиотиков. В связи со стабильным общим состоянием ребёнка при поступлении, небольшими размерами межполушарной эмпиемы справа и внутримозгового абсцесса в левой лобной доле (диаметром приблизительно 1 см) без компрессии структур головного мозга, первоначально выбрана консервативная и малоинвазивная тактика хирургического лечения интракраниальных гнойных очагов, назначена антибактериальная терапия широкого спектра действия, проведена пункция и санация левой гайморовой пазухи, вскрытие и дренирование подапоневротической флегмоны в левой лобной области.

За время наблюдения отмечалось ухудшение состояния ребёнка в виде угнетения сознания до глубокого оглушения, появления судорожных приступов и очаговой неврологической симптоматики (левосторонний гемипарез), что было связано с прогрессированием заболевания и формированием гнойных очагов в различных краниальных и субкраниальных структурах головного мозга.

Суммарно ребёнку выполнено 5 нейрохирургических вмешательств: 3 – по поводу эмпием, 2 – удаления абсцессов головного мозга. Во всех 5 операциях интраоперационно какой-либо значимой капсулы вокруг гнойных очагов не обнаружено, все гнойные очаги вскрыты, аспирированы шприцом (эмпиемы через установленный дренаж) или отсосом, полости промыты физиологическим раствором. Установленные наружные дренажи в последующем

существенной роли не играли. По дренажам гнойного отделяемого не отмечалось, сроки удаления дренажей, по мере накопления опыта и уверенности, мы постоянно сокращали.

По мнению ряда авторов, аспирация и дренирование интракраниальных абсцессов или эмпием часто неэффективны, и требуются повторные вмешательства с проведением краниотомии с удалением гнойных скоплений вместе с капсулой, что скорее всего определяется длительными сроками предоперационного наблюдения, обоснования оперативного лечения и окончательной верификации диагноза [1, 5, 8, 12].

В приведённом нами случае, учитывая небольшую длительность заболевания, адекватную противомикробную терапию, своевременное выявление интракраниальных гнойных очагов, все интракраниальные гнойные скопления удалось удалить только за счёт однократного вскрытия, опорожнения и аспирации с промыванием их полости. 4 из 5 проведённых вмешательств выполнены малоинвазивно, через единственное фрезевое отверстие. Краниотомия проведена только при удалении абсцесса базальных отделов правой лобной доли головного мозга и была вынужденной из-за особенностей локализации очага. На операции мы столкнулись с техническими сложностями из-за выраженного спаечного процесса при субарахноидальной диссекции на этапе доступа к абсцессу, что сопровождалось излишней травматизацией головного мозга. МР-томографию головного мозга мы проводили в режиме динамического контроля после каждого хирургического вмешательства и для исключения появления новых интракраниальных гнойных скоплений. Данная тактика себя полностью оправдала, так как на протяжении всего лечения почти каждое МР-исследование позволяло визуализировать неожиданные находки и рационально сформировать тактику дальнейшего лечения.

Заключение

Клинический пример демонстрирует успешное лечение пациента с редким билатеральным гнойным поражением структур головного мозга, как осложнения течения риносинусита на фоне вирусной инфекции многопрофильной командой специалистов.

Неоценимая роль в обосновании последовательности, тактики и объёма хирургического вмешательства отведена динамической магнитно-резонансной томографии, позволившей наиболее рационально выбрать способы и последовательность доступа к гнойным очагам, что привело к положительному исходу лечения и выписки пациента из стационара без неврологического дефицита.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Клинические рекомендации по лечению абсцессов головного мозга, внутримозговых эпидуральных и субдуральных эмпием. Ассоциация нейрохирургов России. М.; 2015. Clinical guidelines for the treatment of brain abscesses, intracranial epidural and subdural empyema. Russian Association of Neurosurgeons Moscow; 2015. (in Russian)
2. Шейх Ж.В., Араблинский А.В., Газарян Я.Р., Николаев Э.В., Курзанцева О.О., Бжедуг М.А. Субдуральная эмпиема и абсцессы головного мозга у больного гнойным синуситом. *REJR*. 2017; 7(4): 171–9. <https://doi.org/10.21569/2222-7415-2017-7-4-171-179>
3. Sheikh Zh.V., Arablinskiy A.V., Kurzantseva O.O., Bzhegurov M.A., Gazaryan Ya.R., Nikolaev E.V. Subdural empyema and brain abscesses in patient with a purulent sinusitis. *REJR*. 2017; 7(4): 171–9. <https://doi.org/10.21569/2222-7415-2017-7-4-171-179> (in Russian)
3. Niehaus M., Krape K., Quinn S., Kane B. Frontal sinusitis complicated by a brain abscess and subdural empyema. *Radiol Case Rep*. 2018;13(2): 456–9. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2018.02.003>
4. Van Alphen H., Dreissen J. Brain abscess and subdural empyema. Factors influencing mortality and results of various surgical techniques. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1976; 39(5): 481–90. <https://doi.org/10.1136/jnnp.39.5.481>
5. Niklewski F., Petridis A.K., Al Hourani J., Blaeser K., Ntoulis G., Bitter A., Rosenbaum T., Scholz M. Pediatric parafalcine empyemas. *J Surg Case Rep*. 2013; 2013(8): rjt 067. <https://doi.org/10.1093/jscr/rjt067>
6. Sung J., Kwon O., Kim D., Kim K. Bilateral subdural empyemas with meningitis secondary to acute barosinusitis. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2018; 135(6): 457–9. <https://doi.org/10.1016/j.anorl.2018.03.006>
7. Peyser E. Subdural empyemas. *Ann Surg*. 1957; 146(2): 215–20. <https://doi.org/10.1097/0000658-195708000-00009>
8. Yeşilbaş O., Tahaoğlu I., Yozgat C., Duramaz B., Türel Ö., Tekin N., Uzuner S., Abdallah A. Subdural empyema, brain abscess, and superior sagittal sinus venous thrombosis secondary to *Streptococcus anginosus*. *Turk Arch Pediatr*. 2021; 56(1): 88–91. <https://doi.org/10.14744/TurkPediatriArs.2020.03743>
9. Accorsi E.K., Chochua S., Moline H.L., Hall M., Hersh A.L., Shah S.S., Britton A., Hawkins P.A., Xing W., Onukwube Okaro J., Zielinski L., McGee L., Schrag S., Cohen A.L. Pediatric Brain Abscesses, Epidural Empyemas, and Subdural Empyemas Associated with *Streptococcus Species* – United States, January 2016 – August 2022. *MMWR Morb Mortal Wkly Rep*. 2022; 71(37): 1169–73. <https://doi.org/10.15585/mmwr.mm7137a2>
10. Кривопапов А.А., Лейко Д.В., Щербук А.Ю., Щербук Ю.А., Шамкина П.А., Маркова А.М. Множественные отогенные абсцессы головного мозга у ребёнка. *Российская оториноларингология*. 2019; 18(5): 96–101. <https://doi.org/10.18692/1810-4800-2019-5-96-101>
10. Krivopalov A.A., Leiko D.V., Shcherbuk A.Yu., Shcherbuk Yu.A., Shamkina P.A., Markova A.M. Multiple otogenic brain abscesses in a child. *Rossiyskaya otorinolaringologiya*. 2019; 18(5): 96–101. <https://doi.org/10.18692/1810-4800-2019-5-96-101> (in Russian)
11. Bernardini G. Diagnosis and management of brain abscess and subdural empyema. *Curr Neurol Neurosci Rep*. 2004; 4(6): 448–56. <https://doi.org/10.1007/s11910-004-0067-8>
12. Zhang J., Chen Z., Xie L., Zhao C., Zhao H., Fu C., Chen G., Hao Z., Wang L., Li W. Treatment of a subdural empyema complicated by intracerebral abscess due to *Brucella* infection. *Braz J Med Biol Res*. 2017; 50(5): e 5712. <https://doi.org/10.1590/1414-431X20165712>
13. Leys D., Christiaens J., Derambure P., Hladky J., Lesoin F., Rousseaux M., Jomin M., Petit H. Management of focal intracranial infections: is medical treatment better than surgery? *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1990; 53(6): 472–5. <https://doi.org/10.1136/jnnp.53.6.472>

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-377-382>

Клиническое наблюдение / Clinical observation

© Бардеева К.А.^{1,2}, Мишкин В.В.², Писклаков А.В.^{1,2}, Пономарев В.И.^{1,2}, Павленко Н.И.^{1,2}

Хирургическое лечение новорождённого ребёнка с врождённой аплазией кожи волосистой части головы

¹ФГБОУ ВО «Омский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 644099, г. Омск, Российская Федерация;

²БУЗОО «Областная детская клиническая больница», 644001, г. Омск, Российская Федерация

Введение. Аплазия кожи – порок развития, представленный различным по протяжённости дефектом кожи, часто в сочетании с дефектом подлежащих тканей – подкожно-жировой клетчатки, мышц и с различными формами дизрафий – незакрытия эмбриональных щелей. Частота встречаемости порока по материалам различных авторов варьирует в диапазоне от 1 на 1000 до 1 на 10 000 новорождённых. Врождённая очаговая аплазия кожи и подкожной клетчатки может располагаться на ограниченных участках, наиболее часто диагностируется на волосистой части головы и реализуется одиночными или множественными очаговыми дефектами кожи. Достаточно часто очаговая аплазия затрагивает кожу туловища, конечностей.

Описание клинического наблюдения. В статье приведён клинический случай врождённой очаговой аплазии кожи головы и костей черепа у новорождённого ребёнка. Данный тип врождённой аплазии кожи по классификации I. Frieden соответствует I группе врождённых аплазий кожи с поражением волосистой части головы. При проведении экспертного метода исследования – мультиспиральной компьютерной томографии – диагностировано отсутствие участка теменной кости. Таким образом дном дефекта являлась твёрдая мозговая оболочка. В данном случае применение консервативного метода лечения у пациента авторы посчитали неприемлемым в связи с длительным временем заживления и высоким риском присоединения вторичной инфекции. Хирургическое лечение позволило добиться удовлетворительного косметического результата. Состояние костных структур оценено катанестически.

Заключение. Современные методы диагностики доказывают, что активная хирургическая тактика в отношении детей с врождённой аплазией кожи головы оправдана.

Ключевые слова: аплазия кожи головы; новорождённые; мультиспиральная компьютерная томография; хирургическое лечение

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациента. Законные представители участника исследования дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Бардеева К.А., Мишкин В.В., Писклаков А.В., Пономарев В.И., Павленко Н.И. Хирургическое лечение новорождённого ребёнка с врождённой аплазией кожи волосистой части головы. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 377-382. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-377-382>

Для корреспонденции: Бардеева Ксения Альбертовна, кандидат мед. наук, доцент кафедры детской хирургии и репродуктивной медицины детского возраста ФГБОУ ВО «ОГМУ» МЗ РФ, 644099, г. Омск, Россия. E-mail: Bardeeva@list.ru

Участие авторов: Бардеева К.А. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста; Мишкин В.В. – концепция и дизайн исследования; Павленко Н.И. – сбор и обработка материала; Пономарев В.И. – написание текста; Писклаков А.В. – редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 23 февраля 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

Bardeeva K.A.^{1,2}, Mishkin V.V.², Pisklakov A.V.^{1,2}, Ponomarev V.I.^{1,2}, Pavlenko N.I.^{1,2}

Surgical treatment of a newborn child with congenital aplasia of the scalp

¹Omsk State Medical University, 644099 Omsk, Russian Federation;

²Children's Regional Clinical hospital, 644001 Omsk, Russian Federation

Introduction. Skin aplasia is a developmental defect represented by a skin defect of varying extent, often in combination with the defect of underlying tissues – subcutaneous fat, muscles and with various forms of dysraphy - non-closed embryonic slits. By various authors, defect frequency ranges from 1 per 1 000 to 1 per 10 000 newborns. Congenital focal aplasia of the skin and subcutaneous tissues can be located in limited areas; most often it is diagnosed on the scalp looking like single or multiple focal skin defects. Quite often, focal aplasia also affects the skin on the trunk and limbs.

Description of observation. The article presents a clinical case of congenital focal aplasia of the scalp and skull bones in a newborn child. This type of skin congenital aplasia by I. Frieden classification corresponds to Group I of congenital aplasia of the skin with lesions on the scalp. At the expert examination with multispiral computed tomography, the absence of parietal bone was diagnosed. So, the defect bottom was dura mater. In this case, the authors considered conservative approach to be unacceptable because of long period of healing and high risk of secondary infection. The performed surgery has led to a satisfactory cosmetic result. The state of bone structures was assessed catamnetically.

Conclusion. Modern diagnostic techniques have proven that an active surgical tactics in children with congenital aplasia of the scalp is justified.

Keywords: scalp aplasia, newborns, multispiral computed tomography, surgical management

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Bardeeva K.A., Mishkin V.V., Pisklakov A.V., Ponomarev V.I., Pavlenko N.I. Surgical treatment of a newborn child with congenital aplasia of the scalp. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 377-382. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-377-382> (In Russian)

For correspondence: Ksenya A. Bardeeva, associate professor, department of pediatric surgery, Omsk State Medical University, 644099 Omsk, Russian Federation. E-mail: Bardeeva@list.ru

Information about authors:

Bardeeva K.A., <https://orcid.org/0000-0002-5871-751X>

Pisklakov A.V., <https://orcid.org/0000-0001-7594-7723>

Pavlenko N.I., <https://orcid.org/0000-0001-6242-6195>

Mishkin V.V., <https://orcid.org/0000-0002-5034-3357>

Ponomarev V.I., <https://orcid.org/0000-0002-2555-7994>

Author contribution: Bardeeva K.A. – study concept and design, material collection and processing, text writing; Mishkin V.V. – study concept and design; Pavlenko N.I. – material collection and processing; Ponomarev V.I. – text writing; Pisklakov A.V. – editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: February 23, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Аплазия кожи – порок развития, представленный различным по протяжённости дефектом кожи, часто в сочетании с дефектом подлежащих тканей – подкожно-жировой клетчатки, мышц и с различными формами дизрафий – незакрытия эмбриональных щелей. По мнению П.Г. Хёгер, аплазия кожи является одной из форм дефекта нервной трубки [1].

Частота встречаемости порока, по материалам различных авторов, варьирует в диапазоне от 1 на 1000 до 1 на 10 000 новорождённых. Вероятно, частота встречаемости данного порока выше в странах Африки и Латинской Америки [1–3].

Врождённая очаговая аплазия кожи и подкожной клетчатки может располагаться на ограниченных участках, наиболее часто диагностируется на волосистой части головы и реализуется одиночным или множественными очаговыми дефектами. Достаточно часто очаговая аплазия затрагивает кожу туловища, конечностей. Впервые упоминание об очаговой аплазии кожи области нижних конечностей встречается в 1767 г. (M. Cordon), позже, в 1826 г. описан очаг аплазии кожи на волосистой части головы (W. Campbell) [4].

Очаговая аплазия кожи волосистой части головы может затрагивать только эпидермис, при этом подлежащая дерма имеет дефектное строение, содержит только компактный коллаген, не имея эластических волокон. Более глубоко расположенный очаг аплазии распространяется в зависимости от локализации, затрагивает апоневроз, подкожную жировую клетчатку, кости черепа, прилегающую твёрдую мозговую оболочку, мозговое вещество. В случаях очагового отсутствия костей черепа может формироваться энцефалоцеле [5]. Очаговая аплазия кожи головы в сочетании с аплазией костей черепа и твёрдой мозговой оболочки встречается в 30% случаев [6]. Клинические проявления данного порока, в зависимости от глубины по-

ражения, различные – от незначительного косметического дефекта до жизнеугрожающих состояний, приводящих к инвалидизации пациента. Порок в ряде случаев является одиночным, в большинстве случаев сочетается с другими пороками развития: желудочно-кишечного тракта (омфалоцеле, гастрошизис), центральной нервной системы (пороки головного и спинного мозга), костной системы (деформация верхних и нижних конечностей), патологией верхних мочевых путей. Нередко сочетается с дефектом твёрдого неба, микрофтальмией, сосудистыми аномалиями верхней половины туловища, пороками развития кожи невоидного характера [5, 7].

Возникновение данных пороков связано с первичным нарушением закладки эпидермального ростка на ранних этапах гестации [8]. Причина возникновения порока мультифакторальна – отводится роль неспецифической бактериальной и вирусной инфекции, отмечено влияние некоторых лекарственных препаратов с эмбриотоксическим действием (метимазол, тимазол). Вероятность возникновения данного порока повышается при проведении лучевых рентгенологических методов обследования во время беременности. В литературе описано влияние механического сдавления, например, внутриутробное сдавление черепа прилегающими костями таза матери [9], внутриматочные травмы [1].

Изучены аутосомно-доминантный и аутосомно-рецессивный типы наследования аплазии кожи. Выявлен ген, рибосомальная ГТФаза *BMS1*, связанный с изолированной врождённой аплазией кожи [3]. В ряде случаев порок кожи и её дериватов сопровождается хромосомными аномалиями.

Классификация врождённых аплазий кожи (ВАК) предложена Илоной Фриден (I. Frieden) в 1986 г. [1], она предусматривает деление ВАК на 9 групп в зависимости от локализации порока и сопутствующей патологии:

- I группа – ВАК волосистой части головы без аномалий или исключительно с изолированными аномалиями.

- II группа – ВАК волосистой части головы с дефектом укороченных конечностей (синдром Анамса–Оливера с аутосомно-доминантным типом наследования).
- III группа – ВАК волосистой части головы в сочетании с эпидермальными или органоидными невусами (линейный бородавчатый эпидермальный невус, линейный невус сальных желез)
- IV группа – ВАК в сочетании с вызвавшими её врождёнными пороками развития (энцефалоцеле, менингоцеле, менингомиелоцеле, врождённая расщелина позвоночника, врождённая порэнцефалия по средней линии, омфалоцеле, гастрошизис).
- V группа – ВАК в сочетании с «бумажным плодом» или инфарктом плаценты.
- VI группа – ВАК с буллёзным эпидермолизом (простая, пограничная или дистрофическая форма буллёзного эпидермолиза).
- VII группа – ВАК в области конечностей.
- VIII группа – ВАК, вызванная специфическими тератогенами (метамизол, внутриутробное инфицирование вирусом простого или опоясывающего герпеса).
- IX группа – ВАК в составе синдромов при аномалиях развития:
 - трисомия Д (хромосомы 13–15): мембранозная ВАК с голопрозэнцефалией, эпилепсией, дефектом нервной трубки, пороками развития глаз, глухотой;
 - 4p-синдром (Вольфа–Хиршхорна): задержка психического развития, глухота, глазные пороки, эпилепсия;
 - Хр22-синдром микроделеции: билатеральная линейная ВАК в области щёк, микрофтальмия, склерокорнея;
 - различные дефекты хромосом 16–18: обширная ВАК волосистой части головы с артериовенозными пороками развития в области волосистой части головы и дефектами костей;
 - офтальмо-церебро-кожный синдром (синдром Деллемана–Оортуиса): мембранозная ВАК с кистами глазницы, фибромами лица, церебральными пороками, эпилепсией, задержкой психического развития;
 - Опитца синдром: мембранозная ВАК с гипертелоризмом, волчьей пастью, гипоспадией, крипторхизмом;
 - Йохансона–Близзарда синдром: мембранозная ВАК волосистой кожи головы и гипоплазия кожи носа, карликовый рост, гипотиреоз, экзокринная недостаточность поджелудочной железы (аутосомно-рецессивный тип наследования);
 - фокальная дермальная гипоплазия (битемпоральная ВАК, Setleis-синдром).

Аплазия кожи в области волосистой части головы визуализируется как очаг различных очертаний и размеров, чётко отграниченный от неизменной кожи, дно дефекта может быть красного цвета (грануляции). Возможно внутриутробное инфицирование, тогда дно дефекта представлено раневым дефектом с налётом фибрина. Наиболее часто дефект локализуется в теменной области, возможно битемпоральное расположение, иногда одиночный дефект располагается парасагиттально. Очаги могут быть от небольших (1–4 см) до гигантских (более 10 см) в диаметре [5].

Основа диагностики ВАК – клинический осмотр. В родильном зале при оценке состояния ребёнка визуализируется различный по размерам и глубине ограниченный дефект кожных покровов. Для оценки состояния подлежащих тканей широко используется ультразвуковая диагностика; при расположении дефекта кожи на волосистой части головы для оценки состояния костей черепа и головного мозга, проведения дифференциальной диагностики возможно применение экспертных методов – магнитно-резонансной томографии (МРТ), компьютерной

томографии (КТ) [1]. Наиболее часто данное состояние приходится дифференцировать с нарушением целостности кожных покровов при родовой травме, врождённым буллёзным эпидермолизом, энцефалоцеле и менингоцеле. С течением времени очаг аплазии на волосистой части головы может напоминать рубцовые изменения кожных покровов в результате перенесённых внутриутробных герпетических и бактериальных инфекций, дерматофию, очаговую алопецию [10].

Очевидно, что прогноз напрямую зависит от локализации, глубины и степени поражения подлежащих тканей и органов. Течение процесса отягощается присоединением вторичной инфекции, формируется длительно незаживающий дефект. Учитывая анатомо-физиологические особенности области, в которой расположен участок аплазии, возможно развитие септического процесса с неблагоприятным исходом. Таким образом, лечение аплазий кожи на волосистой части головы направлено на предупреждение вторичного инфицирования и связанных с ним осложнений, закрытие дефекта тканей и коррекцию сопутствующих состояний. Известно, что изолированные небольшие дефекты кожи закрываются самостоятельно путём краевой эпителизации с формированием рубцовоизменённой ткани. Рецидивирующее образование в очагах корок может замедлять их заживление на месяцы или годы [11]. Обширные поверхностные очаги аплазии кожи заживают длительно, высок риск присоединения вторичной инфекции [12]. По данным литературы, высокий процент летальности (около 20%) у пациентов с аплазией кожи волосистой части головы связан и с внутричерепным инфекционным процессом, возможным кровотечением при вовлечении в эрозивный процесс синусов головного мозга и явлениями полиорганной недостаточности при септическом течении процесса. В исходе воспаления вещества головного мозга, подлежащего очагу аплазии, формируются участки глиоза, кистозно-атрофические изменения, приводящие к стойкому неврологическому дефициту и инвалидизации ребёнка [1, 10].

В литературе описаны случаи консервативного лечения различных размеров дефектов на волосистой части головы. Их суть сводится к подсушиванию дефекта, применению растворов с дубящим, антисептическим действием, образованию плотной корки и заживлению дефекта путём краевой эпителизации. Данный способ не приемлем, если есть дефект костных структур, так как в таком случае дном очага является твёрдая мозговая оболочка, вещество головного мозга. Есть единичные описания хирургического лечения, предложено использовать аллотрансплантат, аутогенный трансплантат в виде перфорированного кожного лоскута, который накладывался сразу после рождения [11]. В литературе нам не встретилось описания хирургического метода лечения данной патологии в периоде новорожденности и отдалённого результата лечения пациентов с данной патологией.

Цель работы – учитывая редкую встречаемость врождённой аплазии кожи головы в практике, описать клинический случай, демонстрирующий вариант лечебной тактики и исход заболевания ребёнка с синдромом Андерсена–Нови.

Клиническое наблюдение

Мальчик М.С., поступил из родильного дома в реанимационное отделение БУЗОО «Областная детская клиническая больница» г. Омска в первые сутки жизни с диагнозом: врождённая аплазия кожи и костей черепа в теменно-затылочной области (синдром Андерсена–Нови).

Из анамнеза известно, что матери 24 года, наследственность отягощена по сердечно-сосудистым заболеваниям



Рис. 1. Внешний вид головы пациента. Визуализируется дефект мягких тканей на волосистой части головы.

Fig. 1. Patient's appearance. A soft tissue defect on the scalp is visualized.

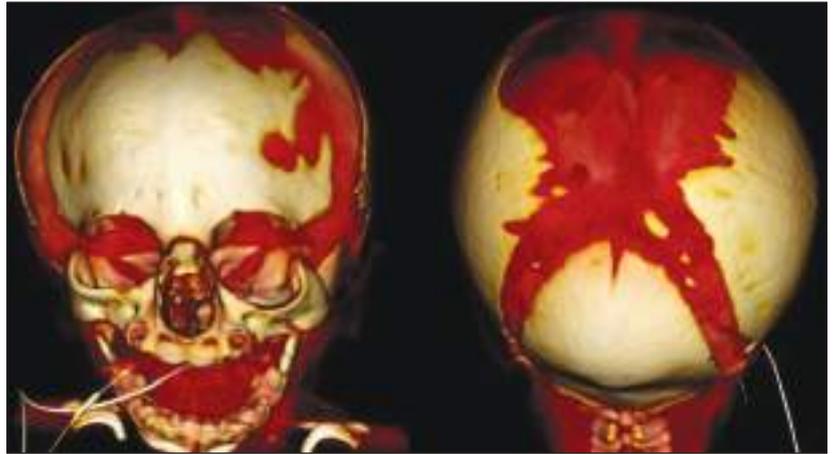


Рис. 2. МСКТ в режиме костной 3D-реконструкции. Просматриваются широко открытые швы, локальные участки истончения лобной кости.

Fig. 2. MSCT in 3D bone reconstruction mode. Wide-open sutures, local areas of thinning of the frontal bone are visible.

(у матери 2 года назад геморрагический инсульт), гинекологический анамнез – хронический аднексит. Фенотипических данных о синдромальной патологии у женщины нет. Отец ребёнка здоров, профессиональных вредностей, вредных привычек нет. Генеалогический анамнез семьи неотягощён. Акушерский анамнез: беременность первая, на фоне угрозы прерывания в 9 нед гестации, проходила стационарное лечение. В 15 нед беременности перенесла ОРВИ, ринофарингит, трахеит с повышением температуры тела до 39 °С, проходила амбулаторное лечение, проведена антибактериальная терапия (цефтриаксон 1,0 в/м 7 дней). В 22 нед при ультразвуковом исследовании (УЗИ) диагностированы признаки внутриутробной инфекции – нарушение плодно-плацентарного кровотока, признаки гиперэхогенного кишечника у плода, симптом «гольфного мяча», маловодие. В 27–28 нед – угрожающие преждевременные роды, стационарное лечение. На 34-й нед беременности подтекание околоплодных вод, роды преждевременные, в 34 нед гестации, I период – 8 ч 10 мин, II период – 20 мин, безводный период – 16 ч 30 мин. Родился мальчик, оценка по Шкале Апгар 6/7 баллов. Проведены реанимационные мероприятия: лучистое тепло, санация верхних дыхательных путей, тактильная стимуляция. Ведущий синдром при рождении: дыхательная недостаточность, угнетение центральной нервной системы. Масса тела при рождении 1884 г, длина тела 41 см, окружность головы 30 см, окружность грудной клетки 27 см.

При осмотре новорождённого состояние тяжёлое по наличию порока развития, требующего оперативного вмешательства. Голова округлой формы, кости черепа по стреловидному шву не конфигурированы, большой родничок 3 × 3 см, на стыке затылочной и теменных костей имеется дефект мягких тканей, костных структур размером 4 × 3 см, дно дефекта покрыто плёнкой с фибриновыми наложениями, визуализируется крупный кровеносный сосуд (рис. 1).

Поza афизиологическая, рефлексы угнетены. Кожа розовая, с цианотическим оттенком. Физическое развитие по массе тела соответствует гестационному возрасту. Дыхание пуэрильное, хрипов нет. Тоны сердца ясные, ритмичные, ритм не нарушен. Пуповинный остаток на скобке. Живот мягкий, пальпации доступен. Печень по краю рёберной дуги. Селезёнка не пальпируется. Половые органы сформированы по мужскому типу. Меконий отходит. Мочевыделение не нарушено.

Общеклинические анализы без отклонений от возрастной нормы. Кровь (ИФА) ЦМВ IgG – 50,0%; ВПГ IgG – 60,7%; токсоплазмоз IgG – 94,7%.

Нейросонография в первые сутки жизни – боковые желудочки не расширены, на уровне передних рогов 1 мм, на уровне тел 3 мм, на уровне затылочных рогов 5 мм. В области сагиттального шва диастаз между теменными костями от 14 до 19 мм. В проекции диастаза оболочки мозга утолщены до 3 мм, плотно прилежат друг к другу. В подкорковых ядрах линейные гиперэхогенные тяжи – лентикюлостриальная васкулопатия. ИР 0,60 – снижен, признаки гипоперфузии. Заключение: признаки диффузного отёка мозговой ткани, аномалия развития мягких тканей головы и костей черепа.

УЗИ абдоминальное – признаки холестаза новорождённого, умеренных диффузных изменений в почках. Эхокардиография – функционирующее открытое овальное окно. При проведении цитогенетического исследования – кариотип 46 XY.

Мультиспиральная компьютерная томография (МСКТ) костей черепа и головного мозга – срединные структуры не смещены, боковые желудочки асимметричны, на уровне тел левый 8 мм, правый 5 мм. Дифференцировка на белое и серое вещество не нарушена. Наружные ликворные пространства не расширены. Миндалики мозжечка выше уровня большого затылочного отверстия. Форма черепа симметричная с преобладанием мозгового отдела. Крупный дефект костей свода черепа, переходящий в сагиттальный и лямбдовидный швы, верхние отделы теменных костей отсутствуют (рис. 2).

В первые сутки жизни проведено оперативное лечение – пластическое закрытие дефекта мягких тканей теменно-затылочной области. Интраоперационная картина – после обработки дефекта мягких тканей водным раствором антисептика, фибриновой плёнки, визуализировано дно дефекта, представляющее собой твёрдую мозговую оболочку, с центральным проходящим сагиттальным синусом. Твёрдая мозговая оболочка не повреждена. Проведено отделение кожи по краю дефекта от duramater, удалены некротизированные участки кожи по периферии. Размер дефекта мягких тканей 3 × 4 см. В связи с большим диастазом краёв дефекта выполнены дополнительные послабляющие разрезы кожи до 1,5 см. Края раны сопоставлены. Наложены инвертированные швы на апоневроз, узловые швы на кожу.



Рис. 3. Вид операционной раны. Дефект на волосистой части головы 3 × 4 см.

Fig. 3. Surgical wound view. The defect on the scalp is 3 × 4 cm.



Рис. 4. Вид послеоперационной раны.

Fig. 4. View of the postoperative wound.



Рис. 5. Краниография в прямой проекции. Костно-травматической, деструктивной патологии нет.

Fig. 5. Craniography in the direct projection. There is no any bone-traumatic, destructive pathology.

Учитывая интраоперационные находки – целая твёрдая мозговая оболочка, отсутствие грыжевого мешка и его содержимого, дефект костей черепа – послеоперационный диагноз: врождённая аплазия кожи и костей черепа в теменно-затылочной области (синдром Андерсена–Нови). Ранний послеоперационный период протекал гладко, ребёнок получал антибактериальную, симптоматическую терапию, швы сняты на 15-е сутки, послеоперационный рубец состоятелен (рис. 3, 4).

Нейросонография в динамике – мозговая и перивентрикулярная ткань повышенной эхогенности, однородной структуры. Ликворная система не расширена. В подкорковых ядрах сохраняются единичные линейные гиперэхогенные тяжи.

По окончании хирургического этапа, после снятия швов для дальнейшего лечения ребёнок переведён в отделение патологии новорождённых, откуда по окончании курса стационарного лечения выписан.

После выписки из стационара диспансерные осмотры родители ребёнка не посещали. В возрасте 2 лет 6 мес ребёнок М. обратился к нейрохирургу по неотложной помощи с подозрением на черепно-мозговую травму. В соматическом и неврологическом статусе изменений не выявлено. В теменно-затылочной области послеоперационный рубец Н-образной формы, состоятельный, без особенностей. Пальпаторно дефект костных структур не определяется. В лобной области справа участок осаднения кожи 2 × 2 см. Наряду с другими инструментальными методами, для уточнения диагноза, проведена краниография в двух проекциях. Костно-травматической, деструктивной патологии не выявлено. После проведения клиничко-инструментального обследования черепно-мозговой травма исключена, диагностирован ушиб мягких тканей головы (рис. 5).

Таким образом, огромный костный дефект, визуализированный на МСКТ в периоде новорождённости, заместился костной тканью самостоятельно, не требуя пластического закрытия.

Данный тип врождённой аплазии кожи по классификации I. Frieden соответствует I группе ВАК с поражением волосистой части головы.

Заключение

Данное сообщение иллюстрирует законченный клинический случай, успешный результат лечения редко встречающейся патологии. В преобладающем большинстве случаев дефект костей черепа и мягких тканей сопровождается грубой генетической и соматической патологией.

В литературе описаны единичные случаи синдрома Андерсона – Нови и нет данных о состоянии костного дефекта в отдалённом периоде. Нет описания применения экспертного метода диагностики костных структур – мультиспиральной компьютерной томографии, позволяющей визуализировать не только малейшие изменения в костях и надкостнице, подлежащих кожному дефекту, но и оценить состояние мозгового вещества и сосудов в зоне патологии.

При наличии очага на волосистой части головы очень важно уточнить, что является дном дефекта, при расположении очага парасагиттально важно оценить состояние твёрдой мозговой оболочки и сагиттального синуса, поэтому считаем необходимым проведение МСКТ в данной клинической ситуации.

Активная хирургическая тактика является оправданной при ВАК с дефектом кожи на волосистой части головы и обязательной при дефекте костных структур, в связи с высоким риском развития менингоэнцефалита и летального исхода.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Хегер П.Г. *Детская дерматология. Дифференциальная диагностика и лечение у детей и подростков*. М.: Изд-во Панфилова: БИНОМ, 2013.
Heger P.G. *Pediatric dermatology. Differential diagnosis and treatment in children and adolescents [Detskaya dermatologiya. Differentsial'naya diagnostika i lechenie u detej i podrostkov]*. Moscow: Panfilov Publishing House: BINOM, 2013. (in Russian)
- Balsa R.E., Retruccelli M.C., Nichilo M.A. Aplasia cutis congenital. *Dermatologia (Mexico)*. 1974; (18): 5.
- Черных О.О., Титова Н.Д. Врождённая аплазия кожи: практический подход к оценке и лечению редкой врождённой аномалии у

- новорождённого. В кн: *Актуальные проблемы медицины: сборник материалов итоговой научно-практической конференции*. Гродно; 2020: 769–73.
- Chernykh O.O., Titova N.D. Congenital aplasia of the skin: a practical approach to the assessment and treatment of a rare congenital anomaly in a newborn. In: *Actual problems of medicine: a collection of materials of the final scientific and practical conference [Aktual'nye problemy mediciny: sbornik materialov itogovoy nauchno-prakticheskoy konferencii]*. Grodno; 2020: 769–73. (in Russian)
4. Скрипкина Ю.К., Бутова Ю.С. *Клиническая дерматовенерология. В 2 т. Т. 2*. М.: ГЭОТАР-Медиа; 2009.
Skripkina Yu.K., Butov Yu.S. *Clinical dermatovenerology. In 2 vols. 2 [Klinicheskaya dermatovenerologiya. V 2 t. T. 2]*. Moscow: GEOTAR-Media; 2009. (in Russian)
 5. Козин В.М., Клишко С.С., Юнес И.В. и др. Очаговая аплазия кожи волосистой части головы у новорождённых монозиготных близнецов. *Вестник ВГМУ*. 2013; 12(2): 87–90.
Kozin V.M., Klishko S.S., Yunis I.V., et al. Focal aplasia of the scalp skin in newborn monozygotic twins. *Vestnik VGMU*. 2013; 12(2): 87–90. (in Russian)
 6. Bharti G., Groves L., David L.R., et al. Aplasia Cutis Congenita. *J. Craniofac. Surg.* 2011; 22(1): 159–65.
 7. Сиротина З.В., Хомякова В.Н., Каргин В.П. Врождённая очаговая аплазия кожи у новорождённых (случай из практики). *Здравоохранение Дальнего Востока*. 2017; 2: 65–6.
Sirotnina Z.V., Khomyakova V.N., Kargin V.P. Congenital focal aplasia of the skin in newborns (a case from practice). *Zdravoohranenie Dal'nego Vostoka*. 2017; 2: 65–6. (in Russian)
 8. Pers M. Congenital absence of skin: pathogenesis and relation to ring-constriction. *ActaChir. Scand.* 1963; 126: 388–96.
 9. Студнищина А.А. *Дифференциальная диагностика кожных болезней (руководство для дерматологов)*. М.: Медицина; 1983.
Studnitsina A.A. *Differential diagnosis of skin diseases (a guide for dermatologists) [Differencial'naya diagnostika kozhnyh boleznej (rukovodstvo dlya dermatologov)]*. Moscow: Medicine; 1983. (in Russian)
 10. Рук А., Даубер Р. *Болезни волос и волосистой части головы*. М.: Медицина; 1985.
Ruk A., Dauber R. *Diseases of the hair and scalp [Bolezni volos i volosistoj chasti golovy]*. Moscow: Medicine; 1985. (in Russian)
 11. Silberstein E., Pagkalos V., Landau D. Aplasia cutis congenita: clinical management and a new classification system. *Plast. Reconstr. Surg.* 2014; 134(5): 766–74.
 12. Яп П., Мохаммад Шах Н.С., Мат Саад А.З. Комплексная регенерация кожи головы при врожденной аплазии с использованием заменителя дермы INTEGRA. *Ортопедия, травматология и восстановительная хирургия детского возраста*. 2021; 9(2): 229–34.
Yap P., Mohammad Shah N.S., Mat Saad A.Z. Complex regeneration of the scalp in congenital aplasia using INTEGRA derma substitute. *Ortopediya, travmatologiya i vosstanovitel'naya hirurgiya detskogo vozrasta*. 2021; 9(2): 229–34. (in Russian)

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-383-389>

Клиническое наблюдение / Clinical observation

© Окунев Н.А.¹, Окунева А.И.¹, Калабкин Н.А.^{1,2}, Павкина А.Г.¹

Случай эмфизематозного остеомиелита в педиатрической практике

¹Медицинский институт ФГБОУ ВО «Национальный исследовательский Мордовский государственный университет имени Н.П. Огарева» 430000, г. Саранск, Российская Федерация;

²ГБУЗ Республики Мордовия «Детская республиканская клиническая больница» 430000, г. Саранск, Российская Федерация

КОММЕНТАРИЙ заведующей кафедрой детской хирургии Уральского медицинского университета доктора медицинских наук, профессора Н.А. Цап:

Статья затрагивает актуальные вопросы: 1) развитие у ребёнка редкой формы остеомиелита и 2) дифференциальная диагностика остеомиелитов разного генеза. Динамика клинической картины и лабораторные данные не позволяли констатировать наличие патологического очага в правой бедренной кости. На этапе лучевой визуализации (мультиспиральная компьютерная томография – МСКТ) заподозрен эмфизематозный остеомиелит головки правой бедренной кости. Но затем на магнитно-резонансной томографии (МРТ) не отражены характерные для остеомиелита изменения костного мозга, а акцентированы посттравматические осложнения. В такой ситуации для полного и достоверного диагноза необходимо морфологическое исследование биоптата кости.

Представлен катанез ребёнка, оперированного в федеральном центре, из которого следует, что окончательный диагноз не соответствует первичному предположению о эмфизематозном остеомиелите. При резекции патологических очагов кости был выявлен актиномикоз проксимального эпифиза правой бедренной кости, также редкий вариант остеомиелита. Результат лечения ребёнка – инвалидность. По прочтению статьи остаются сомнения в достоверности диагноза «эмфизематозный остеомиелит», устанавливать который только на основании данных компьютерной томографии (КТ) неэтично.

Публикация важна с точки зрения напоминания детским хирургам о возможности встретиться в своей клинической практике с такой редчайшей патологией как эмфизематозный или грибковый остеомиелит у ребёнка.

Введение. Эмфизематозный остеомиелит представляет собой опасное для жизни и редко встречающееся в клинической практике заболевание. Отличительной особенностью является наличие газа в костях и в окружающих мягких тканях на фоне предрасполагающих факторов, значительно ухудшающих общее состояние больного (злокачественные новообразования, сахарный диабет, иммунодефицитные состояния, а также травмы и переломы). В статье представлено клиническое наблюдение диагностики и лечения эмфизематозного остеомиелита головки правой бедренной кости у ребёнка 12 лет на этапе оказания помощи в условиях региона. Заболевание развилось через 2 мес после закрытого правостороннего перелома вертела бедренной кости. В данных литературы зафиксированных случаев эмфизематозного остеомиелита насчитывается не более 50.

Актуальность. В доступной медицинской литературе нам не удалось найти описание эмфизематозного остеомиелита в педиатрии, поэтому сочли целесообразным опубликовать редкий клинический случай.

Цель – проанализировать редкий случай эмфизематозного остеомиелита у ребёнка и выявить возможные диагностические и лечебные ошибки при оказании медицинской помощи в условиях Детской республиканской клинической больницы (ДРКБ) Республики Мордовия.

Заключение. В настоящее время гематогенный остеомиелит у детей стал встречаться реже, в связи с чем отсутствует настороженность врачей по данному заболеванию, а с эмфизематозным остеомиелитом в своей практике мы встретились впервые. Поэтому только при ухудшении состояния ребёнка на 4-е сутки госпитализации были назначены дополнительные методы исследования (рентгенография коленных и КТ тазобедренных суставов) и подключена антибактериальная терапия.

Ключевые слова: эмфизематозный остеомиелит; инфекционный процесс; внутрикостный газ; компьютерная томография; кость

Для цитирования: Окунев Н.А., Окунева А.И., Калабкин Н.А., Павкина А.Г. Случай эмфизематозного остеомиелита в педиатрической практике. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 383-389. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-383-389>

Для корреспонденции: Окунева Александра Ивановна, кандидат мед. наук, доцент кафедры факультетской хирургии с курсами топографической анатомии и оперативной хирургии, урологии и детской хирургии Медицинского института ФГБОУ ВО «Национальный исследовательский Мордовский государственный университет им. Н.П. Огарева», 430000, г. Саранск, Россия. E-mail: tororkinaokuneva@yandex.ru

Участие авторов: Окунева А.И. – концепция и дизайн исследования, сбор и обработка материала, написание текста; Калабкин Н.А. – концепция и дизайн исследования; Павкина А.Г. – сбор и обработка материала, написание текста; Окунев Н.А. – редактирование. Все соавторы – утверждение окончательного варианта статьи, ответственность за целостность всех частей статьи.

Благодарность. Выражаем благодарность врачам ФГБУ «Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии» Минздрава России и ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр детской травматологии и ортопедии имени Г.И. Турнера» за проведённые консультации и помощь в лечении данного пациента.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 24 февраля 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-383-389>

Clinical observation

© Okunev N.A.¹, Okuneva A.I.¹, Kalabkin N.A.^{1,2}, Pavkina A.G.¹

A case of emphysematous osteomyelitis in the pediatric practice

¹Ogarev Mordovia State University, 430000 Saransk, Russian Federation

²Children's Republic Clinical Hospital, 430000 Saransk, Russian Federation

EDITORIAL COMMENTS. The article discusses topical issues: 1) a rare form of osteomyelitis in a child and 2) differential diagnostics of osteomyelitis of various genesis. Dynamics of the clinical picture and laboratory findings were not indicative for a pathological focus in the right femur. At the radiation videodiagnostics (multispiral computed tomography – MSCT), emphysematous osteomyelitis in the right femur head was suspected. But then, magnetic resonance imaging (MRI) did not reveal any bone marrow changes characteristic for osteomyelitis, and focused attention on post-traumatic complications. In such a situation, to have a complete and reliable diagnostics, morphological examination of a bone biopsy must be done.

The catamnesis of a child who was operated on at a federal center is presented, from which one can see that the final diagnosis does not correspond to the primary assumed diagnosis "emphysematous osteomyelitis". During resection of pathological foci in the bone, actinomycosis of the proximal epiphysis of the right femur was revealed, which is also a rare form of osteomyelitis. The outcome of child's management is disability. After reading the article, doubts remain on the reliability of diagnosis "emphysematous osteomyelitis", because it is unethical to put such a diagnosis using only computed tomography (CT) findings.

The publication of this article is important so as to remind pediatric surgeons of a chance to meet such a rare pathology as emphysematous or fungal osteomyelitis in children in their clinical practice.

Introduction. Emphysematous osteomyelitis is a life-threatening and rare disease in the clinical practice. A distinctive feature of the disease is gas in bones and in surrounding soft tissues on the background of predisposing factors which significantly worsen patient's general condition (malignant neoplasms, diabetes mellitus, immunodeficiency, injuries and fractures). The authors present a clinical observation of diagnostics and management of emphysematous osteomyelitis in the right femur head in a 12-year-old child. The disease developed two months after a closed right-sided fracture of the femoral trochanter. In the literature, one can meet not more than 50 cases of emphysematous osteomyelitis.

Relevance. In the available medical literature, we have not found any description of emphysematous osteomyelitis in children, so we considered it appropriate to publish a rare clinical case.

Purpose. To analyze a rare case of emphysematous osteomyelitis in a child and to identify possible diagnostic and therapeutic errors occurred in the discussed case in Children's Republic Clinical Hospital in Saransk.

Conclusion. Currently, hematogenous osteomyelitis in children has become less common, and therefore there is no alertness for this pathology in physicians. We also have faced emphysematous osteomyelitis in our practice for the first time. Therefore, only when child's condition worsened on day 4 after hospitalization, additional diagnostic tools were added, namely, X-ray of the knee and CT of the hip joint. Antibacterial therapy was started as well.

Keywords: emphysematous osteomyelitis; infection process; intraosseous gas; computed tomography; bone

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Okunev N.A., Okuneva A.I., Kalabkin N.A., Pavkina A.G. A case of emphysematous osteomyelitis in pediatric practice. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 383-389. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-383-389> (In Russian)

For correspondence: Aleksandra N. Okuneva, associate professor, department of faculty surgery, Ogarev Mordovia State University, 430000 Saransk, Russian Federation. E-mail: toropkinaokuneva@yandex.ru

Information about authors:

Okunav N.A., <https://orcid.org/0000-0001-8786-6998>

Okuneva A.I., <https://orcid.org/0000-0002-7182-2197>

Kalabkin N.A., <https://orcid.org/0000-0002-6916-9766>

Pavkina A.G., <https://orcid.org/0000-0002-4229-062X>

Author participation: Okuneva A.I. – study concept and design, material collection and processing, text writing; Kalabkin N.A. – study concept and design; Pavkina A.G. – material collection and processing, text writing; Okunev N.A. – editing. All co-authors – approval of the final version of the article, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Acknowledgment. We express our gratitude to doctors of St. Petersburg Research Institute of Phthisiopulmonology of the Ministry of Health of the Russian Federation and to doctors of Turner National Medical Research Center for Pediatric Traumatology and Orthopedics for their consultations and assistance in managing this patient.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: October 5, 2022 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Эмфизематозный остеомиелит является редким и опасным инфекционным заболеванием, представляющим собой наличие полостей в костях, заполненных газом. Первый случай внутрикостного пневматоза был установлен как симптом остеомиелита с помощью мультиспиральной компьютерной томографии (МСКТ) в 1981 г. [1–4].

Инфекционным компонентом являются газообразующие микроорганизмы. По данным разных авторов, чаще всего встречается *Escherichia coli* [2, 5–8], *Klebsiella pneumoniae* [4, 9], *Staphylococcus aureus* [10], стрептококк группы G [11], ассоциация микроорганизмов тоже не редкость [2]. Также в практике был зарегистрирован уникальный случай эмфизематозного остеомиелита, вызванного *Salmonella typhi* на фоне бета-талассемии [3].

Механизмом развития данного заболевания является гематогенное распространение возбудителей из первичного очага инфекции с поражением костей и прилегающих к ним мягких тканей [4, 7, 12]. Эмфизематозный остеомиелит локализуется в костях позвонков, таза, бедренной, большеберцовой и малоберцовой костей. Также сообщается о необычных локализациях инфекционного процесса – в костях стопы [6, 10].

Факторами риска для развития данного заболевания являются злокачественные новообразования, иммунодефицитные состояния, злоупотребление алкоголем, а также сахарный диабет [2, 5–9, 11, 12]. Наличие высокого уровня глюкозы в крови и нарушение кровообращения способствуют созданию благоприятной среды для анаэробных бактерий, что и приводит к повышенному газообразованию [8].

Клиническая картина зависит от локализации инфекционного процесса и характеризуется болезненностью в той или иной области. При пальпации кожа в месте поражения гиперемирована, конечность отёчна. Возможна местная инфильтрация и болезненность мягких тканей, локальное повышение температуры поражённой части тела [1], сопровождающееся нарушением функции [12]. Присутствует тяжёлый интоксикационный синдром, повышение температуры тела до субфебрильных и фебрильных значений, тахикардия [1, 6, 12].

Патогномичным симптомом эмфизематозного остеомиелита является обнаружение на рентгенографии, компьютерной томографии (КТ) и магнитно-резонансной томографии (МРТ) пузырьков газа в костях [1–3, 7–9]. Важно знать и отличать этот признак, поскольку ранняя постановка правильного диагноза позволяет снизить риск развития таких осложнений, как гильотинная ампутация конечности [1, 6, 10, 12] и летальный исход [4].

Причинами появления внутрикостного газа может быть некроз тканей, биопсия, ранения [1, 8], что и используется в качестве дифференциальной диагностики. Также газ внутри позвонков наблюдается при дегенеративно-дистрофическом изменении позвоночного диска за счёт отрицательного давления [6]. Внутрикостный пневматоз часто возникает после хирургических вмешательств на кости, травм и переломов [13]. Заподозрить эмфизематозный остеомиелит можно если нет прямого сообщения с окружающей средой и воздухом. Некоторые авторы повествуют о случаях идиопатического эмфизематозного остеомиелита [14]. Несмотря на то, что заболевание встречается в клинической практике единично, средние показатели летальности достигают до 32% [1, 4–6].

В дифференциальный ряд можно смело включать небактериальный остеомиелит, который связан с иммунным ответом и в основе которого лежит дисбаланс между провоспалительными и противовоспалительными

цитокинами [15]. Главным отличием эмфизематозного остеомиелита от небактериального состоит в локальном изменении костной ткани на КТ: в первом случае – разрежение, остеолитиз и периостит, а во втором – пузырьки газа в толще костной ткани.

Лечение пациентов с данной патологией комплексное, включает в себя консервативные мероприятия и операционное вмешательство. В зависимости от клиники и причин возникновения заболевания, тактика ведения больных различная. При более лёгких клинических проявлениях операция ограничивается чрезкожным дренированием полости поражённой кости [11]. Некоторые авторы предлагают проводить ревизию кости под общей анестезией, затем ставить дренаж для оттока гноя и отделяемого [3]. В тяжёлых случаях хирургическая операция выполняется в 3 этапа. На первом этапе осуществляют вскрытие гнойно-некротического очага с рассечением кожи и фасции, иссекаются некротизированные мягкие ткани. На втором этапе – проводят гильотинную ампутацию конечности. И на последнем этапе – формируют культю [1]. Также описан случай выздоровления пациента, отказавшегося от хирургического вмешательства, при назначении только консервативного лечения, больным принимались большие дозы антибиотиков [14].

Сразу после завершения операционного вмешательства назначается внутривенная антибиотикотерапия. В первое время используют антибиотики широкого спектра действия до идентификации возбудителя. Чаще всего применяют цефтриаксон, линкомицин и метронидазол [1, 5]. Некоторые авторы предлагают для лечения эмфизематозного остеомиелита пиперациллин/тазобактам [2, 12], гентамицин и ципрофлоксацин [4, 8] в больших дозировках. В целях устранения интоксикационного синдрома и нормализации водно-электролитного баланса используют инфузионную терапию и кровезаменители.

Во всём мире описанных клинических случаев насчитывается не более 50 [1, 2, 9, 12]. В это число не входит ни одна история болезни ребёнка с данным диагнозом. Поэтому мы хотим поделиться клиническим случаем эмфизематозного остеомиелита, повстречавшимся в нашей педиатрической практике.

Материал и методы

Ребёнок Н., 12 лет 4 мес., мальчик, поступил в Детскую республиканскую клиническую больницу (ДРКБ) г. Саранска с жалобами на боль, выраженное нарушение функции правой нижней конечности, на скованность движений до 30 мин по утрам. Никакие движения в суставах правой нижней конечности невозможны, на неё не опирается, передвигается на костылях. Температура тела повышается до 37,3 °С.

Из анамнеза заболевания (со слов матери) известно, что ребёнок 2 мес назад получил травму на улице. Обратились в ЦРБ по месту жительства, где было сделано рентгенографическое обследование и выставлен диагноз: закрытый перелом вертела бедренной кости справа. Была наложена гипсовая повязка с целью иммобилизации на 1 мес и назначена обезболивающая терапия – нестероидные противовоспалительные препараты (НПВС). После наложения гипса отмечали в первую неделю повышение температуры тела до 39,5 °С, затем её снижение до субфебрильных значений. Температура держалась до и после снятия гипса. За медицинской помощью по поводу гипертермии не обращались. Самостоятельно лечились ранее назначенными препаратами (НПВС). После снятия гипса стали отмечать нарушение функций правого тазобедренного сустава, выраженный болевой синдром

и нарушение движений в правой ноге, утреннюю скованность движений в течение 30 мин. Самостоятельно обратились за помощью в консультативную поликлинику ДРКБ г. Саранска к травматологу-ортопеду, после осмотра которого исключена хирургическая патология, передан кардиоревматологу и госпитализирован в отделение кардиологии и ревматологии с диагнозом: реактивная артропатия неуточнённая.

Анамнез жизни. Ребёнок от первой физиологической беременности. При рождении масса тела 2890 г, длина тела 49 см, закричал сразу, к груди приложен в первые сутки. Период новорождённости без особенностей, характер вскармливания грудной. Психомоторное развитие по возрасту.

Аллергии на лекарственные препараты ранее не отмечалось. Привит по возрасту. Препараты и компоненты крови не переливались. Контакт с инфекционными больными не установлен. Перенесённые заболевания: ОРВИ. Наследственность: у бабушки по линии матери – артроз, грыжа поясничного отдела позвоночника, у прабабушки сахарный диабет, гангрена голени.

При поступлении масса тела 32,5 кг, длина тела 147 см. Состояние средней тяжести по заболеванию. Положение вынужденное. Температура тела 36,5 °С. Носовое дыхание свободное. Кожные покровы физиологической окраски и влажности. По дыхательной, пищеварительной и сердечно-сосудистой системам без патологии. На диспансерном наблюдении у узких специалистов не состоит.

Костно-суставная система. Правая нога ротирована наружу, попытка движений в голеностопном, коленном, тазобедренном суставах резко болезненная. Стопы тёплые, отмечается увеличение в объёме и деформация правого коленного сустава. Приведение коленной к груди и пяток к ягодицам справа невозможно, слева в полном объёме. В тазобедренном суставе справа движения невозможны, слева в полном объёме. На пятки не садится. Голеностопные суставы не изменены, объёмы равны и составляют 22 см. Ахиллобурсит справа, диаметр правого бедра на 2,5 см меньше левого. Мышцы безболезненные при пальпации, объёмных образований не пальпируется. Гипотрофия мышц голени не наблюдается, объёмы симметричны – по 28 см. Коленные суставы: правый больше левого на 2 см. Объём правого коленного сустава 32 × 33,5 × 39 см, левого – 30 × 31,5 × 28 см. Амиотрофия мышц правого бедра. Развитие мышц достаточное за исключением правого бедра. Пульсация бедренных артерий положительная, симметричная. Лимфатические узлы не увеличены. Подкожно-жировой слой развит умеренно, распределён равномерно.

Пациента госпитализировали в отделение кардиологии и ревматологии, где было проведено обследование: общий анализ крови (ОАК): эр. $4.1 \cdot 10^{12}/л$, Hb 108 г/л, Ht 32.7%, Tr 464.0 $\cdot 10^9/л$, Le 6.2 $\cdot 10^9/л$, Ne(Ce) 56.0%, Li 35.0%, СОЭ 46 мм/час. Заключение: анемия лёгкой степени. Ускорение СОЭ. Общий анализ мочи: цвет жёлтый, прозрачная, pH 5.5; уд. вес – 1022, белок отрицательный, ацетон отрицательный, уробилин 0,1, Le 2–3 в поле зрения (п.зр), соли оксалаты +++, эритроциты неизменённые в п.зр. 11–12. Заключение: оксалатурия.

Биохимический анализ крови: общий белок – 80,15 г/л, альбумины – 45,30%, α 2-глобулины – 13,9%, γ -глобулины – 23%, ревматоидный фактор – отрицательно, K^+ – 5,8 ммоль/л, Na^+ – 137,4 ммоль/л, Ca^{++} – 1,33 ммоль/л, хлориды – 98,9 ммоль/л. АЛТ – 5,72 Е/л, АСТ 12,9 Е/л, холестерин общий – 4,11 ммоль/л, глюкоза – 4,72 ммоль/л, мочевина – 6,8 ммоль/л, креатинин 0,052 ммоль/л, щелочная фосфатаза 71,0 Е/л, орозомукоид-1,72 г/л,

С-реактивный белок (СРБ) – отрицательный. Заключение: биохимические показатели в пределах нормы.

Ультразвуковое исследование (УЗИ) коленных и голеностопных суставов: УЗ-признаки небольших выпотов в верхнебоковых заворотах коленных суставов больше справа, утолщения и неоднородности связочного аппарата правого коленного и голеностопного суставов, изменений мягких тканей справа. УЗИ тазобедренных суставов: УЗ-признаки выраженного расширения шеечно-капсульного пространства правого тазобедренного сустава со структурными изменениями.

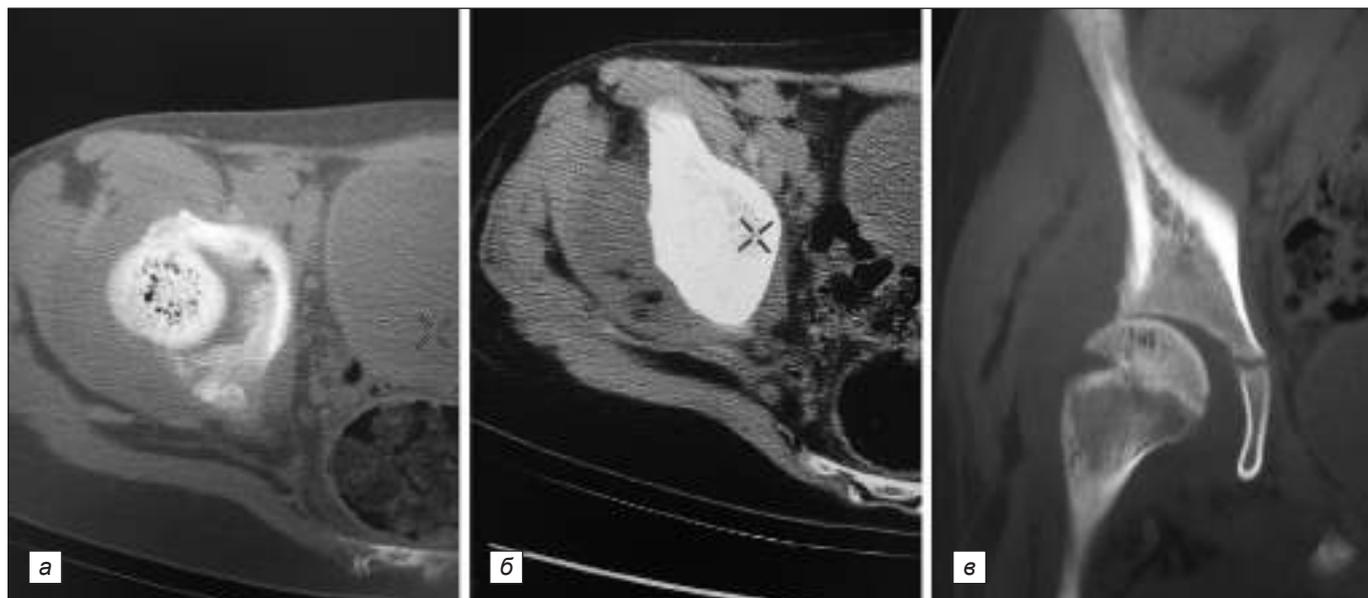
Электrokардиография: синусовая тахикардия с АВ-блокадой 1-й степени. Нормальное положение электрической оси сердца.

Цветное дуплексное сканирование (ЦДС) вен нижних конечностей: 1) проходимость глубоких и подкожных вен нижних конечностей сохранена, признаки (перенесённого?) флебита бедренной вены; 2) артериальный кровоток нижних конечностей не снижен, не изменён.

На основании вышеизложенного выставлен предварительный диагноз: олигоартрит неуточнённый, активность 2–3-й степени, нарушения функций сустава (НФС) 3 степени. Нельзя исключить дебют ювенильного артрита.

Назначено лечение: диклофенак по 3 мл в/м на 3 дня; затем нимесулид 100 мг/сут, омепразол 0,02 мг 1 раз в сутки, парацетамол 500 мг, цефтриаксон 2,0 (60 мг/кг/сут) в/в капельно; анальгин 50% 1 мл + димедрол 1% 1 мл в/м однократно, бифиформ 1 капсул. 3 раза в сутки, местно диклофенак-гель на область поражённых суставов.

На 4-е сутки на фоне проводимого лечения самочувствие больного ухудшилось: появились жалобы на усиление боли в правых коленном и тазобедренном суставах, отёчность правой нижней конечности, её вынужденное положение, сопровождающиеся дрожью в теле, клонус стопы справа. Пациент был осмотрен сосудистым хирургом, выполнено ЦДС вен нижних конечностей по *cito*. Заключение: тромбоз малой подкожной и подколенной вен справа. Анализ крови на коагулограмму: повышение фибриногена до 3,85 г/л, D-димера до 570 нг/мл, РФМК до 21 мкг/100 мл, снижение АЧТВ – 25,8 с. В ОАК: лейкоцитоз до $11,6 \cdot 10^9/л$ со сдвигом влево (Ne(Ce) – 88%, Li – 7%). Анемия лёгкой степени (эр. $4,0 \cdot 10^{12}/л$, Hb 108 г/л). Тромбоцитоз до $421 \cdot 10^9/л$. Ускорение СОЭ 43 мм/час. Биохимический анализ крови: повышение общего белка – 81,87 г/л, за счёт глобулиновой фракции (альфа1 – 6,3%, альфа2 – 13,4%, гамма – 22,3%) и снижение альбуминов до 46,2%. Повышение СРБ до 12,2 мг/л и орозомукоида до 1,56 г/л. Ревматоидный фактор – отрицательно. Рентгенография коленных суставов: в левом коленном суставе – без особенностей, в правом определяется диффузное повышение рентгенопрозрачности структуры костей, формирующих коленный сустав, надколенника. Суставные поверхности не деформированы. Суставные щели не изменены. Периапартулярные мягкие ткани без особенностей. КТ тазобедренных суставов: исследование выполнено по программе спирального сканирования с последующей мультипланарной и 3D-реконструкцией изображения. В правом тазобедренном суставе определяется дисконгруэнтность суставных поверхностей за счёт дислокации головки бедренной кости наружу и краниально. Суставная щель неравномерная, в полости визуализируется жидкость 2–5 ед. НУ, ширина её в медиальных отделах до 7 мм. Определяется линейная периостальная реакция со стороны нижней передней подвздошной кости, протяжённостью максимально 33 мм. В структуре головки бедренной кости между костными трабекулами множественные, хаотично расположенные, участки газовой плотности. В области препаратозного обездвиживания правой



КТ правого тазобедренного сустава: *а* – в структуре головки бедренной кости, между костными трабекулами, множественные хаотично расположенные участки газовой плотности; *б* – в области препаратормного обызвествления правой бедренной кости, по наружному контуру, определяется участок деструкции костной ткани с нечёткими неровными контурами, размер 9×8 мм; *в* – в передних отделах вертлужной впадины участок деструкции костной ткани размером 4×3 мм. Контурсы большого вертела правой бедренной кости чёткие.

CT of the right hip joint: *a* – multiple randomly located areas of gas density in the femoral head between bone trabeculae; *б* – a zone with destructed bone tissue having unclear uneven contours, sized 9×8 mm, is seen in the area of preparative calcification of the right femur, along the outer contour; *в* – an area of bone tissue destruction, sized 4×3 mm, is seen in the anterior coxal cavity. Large trochanter contours of the right femur are clear.

бедренной кости по наружному контуру определяется участок деструкции костной ткани с нечёткими неровными контурами размером 9×8 мм. Прилежащая костная структура не изменена. В передних отделах вертлужной впадины участок деструкции костной ткани размером 4×3 мм. Контурсы большого вертела правой бедренной кости чёткие, плотность 18–40 ед. НУ. Периартикулярные мягкие ткани утолщены, с включениями газа. Плотность прилежащих мягких тканей понижена 15–27 ед. НУ. Правая подвздошно-поясничная мышца утолщена. В левом тазобедренном суставе без особенностей. Заключение: КТ-картина может соответствовать правостороннему кокситу. Подвывих правого тазобедренного сустава. КТ-признаки газообразующей инфекции (см. рисунок).

Проконсультирован детским хирургом, травматологом, детским онкологом и фтизиатром. Проведён диаскинтест – отрицательный.

Ребенок переведён в отделение реанимации и интенсивной терапии (ОРИТ). Назначено лечение: цефтриакон 2,0 г из расчёта 62 мг/кг/сут в/в капельно 1 раз в сут, инфузионная терапия из расчёта 67 мл/кг/сут в объёме $\frac{1}{3}$ от суточной потребности, с дотацией калия хлорида 4% – 1 мэкв/кг/сут, магния сульфата 25% – 0,1 мл/кг/сут, нимесулид 100 мг внутрь 1 раз в сут, омепразол 200 мг 1 раз в сутки, внутрь; линекс по 1 капсуле 3 раза в сутки, внутрь. По рекомендации сосудистого хирурга дополнительно назначили гепаринотерапию.

На 11-е сутки пребывания в отделении ОРИТ состояние ребёнка стабилизировано, болевой синдром в динамике уменьшился. В гемограмме отмечается снижение лейкоцитоза до $5,0 \cdot 10^9$ г/л, СОЭ 42 мм/час – на прежних цифрах, биохимический анализ: СРБ – снижение до 6 мг/л. Повторный осмотр онколога: опухолевый процесс маловероятен.

Для дальнейшего обследования и лечения ребёнок переведён в отделение травматологии и ортопедии с диагнозом: артрозо-артрит правого тазобедренного сустава. Неполный эпифизиолиз головки правой бедренной кости.

С целью консультации данные пациента были направлены в ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр детской травматологии и ортопедии имени Г.И. Турнера» и в ФГБУ «Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии» Минздрава России (ФГБУ «СПбНИИФ» МЗ РФ) для уточнения диагноза и тактики лечения. Высказано предположение о диагнозе остеомиелит головки правой бедренной кости специфической (анаэробной) этиологии? Рекомендовано дополнение к медикаментозному лечению в виде пассивной иммунизации пентаглобином 5%, усиления антибактериальной терапии метронидазолом 49,0 мл в/в капельно из расчёта 7,5 мг/кг в разовой дозе. В плане диагностики проведение МРТ тазобедренного сустава справа с последующей госпитализацией в клинику детской хирургии и ортопедии ФГБУ «СПбНИИФ» МЗ РФ для хирургического лечения – санации полостей деструкции с последующим комплексным патоморфологическим исследованием полученного материала и фиксации конечности в функционально выгодном положении.

По данным МРТ тазобедренных суставов картина неполного эпифизиолиза головки правой бедренной кости, правосторонний синовит, выраженный артрозо-артрит справа, признаки подвывиха головки бедренной кости кнаружи. МР-признаки субтотального повреждения связки головки бедренной кости справа, разволокнение капсулы сустава справа, выраженный отёк мягких тканей правого бедра, подвздошной и паховой областей справа, умеренная регионарная лимфаденопатия справа.

Для исключения онкологической патологии по телемедицинской рекомендации ФГБУ «НМИЦ детской травматологии и ортопедии им. Г.И. Турнера» пациент консультирован гематологом-онкологом. Был выставлен диагноз: остеонекроз неуточнённый. Диагноз основной клинический: правосторонний неспецифический (гниойный) коксит; осложнение основного диагноза: подвывих правого бедра. Рекомендована консультация онколога и специалистов ФГБУ «СПбНИИФ» МЗ РФ (проф. А.Ю. Мушкин) с целью решения вопроса о проведении аспирационной или открытой биопсии и дальнейшей тактики лечения.

После проведённого обследования и лечения ребёнка выписан из стационара с улучшением по общему состоянию: уменьшение болевого синдрома, общее состояние удовлетворительное. По общему анализу крови: Эр. $4.15 \cdot 10^{12}/л$, Нб увеличился с 108 до 118 г/л, Нт увеличился с 32,7 до 34,6%, Тг $355,0 \cdot 10^9/л$, Le $6,3 \cdot 10^9/л$, Ne(Ce) 61%, Li 28%, СОЭ снизилось с 46 до 28 мм/час. По биохимическому анализу крови: общий белок – 82,15 г/л, показатель альбуминов поднялся до 47,7%, α_2 -глобулины показатель снизился до 12,6%, показатель γ -глобулины снизился до 22,4%, орозомукоид снизился до 1,07 г/л. Рекомендации и назначения: наблюдение ортопеда по месту жительства; исключить нагрузку (опору) на правую ногу, ходьба на костылях; выполнить рекомендации по госпитализации на оперативное лечение в ФГБУ «СПбНИИФ» МЗ РФ в клинику детской хирургии и ортопедии Центра патологии позвоночника.

Катамнез: обращение в консультативную поликлинику ДРКБ г. Саранска через 2 года 6 мес с жалобами на боль в правом тазобедренном суставе и нарушение его функции. Из выписки ФГБУ «СПбНИИФ» МЗ РФ: в марте 2021 г. проведена операция – артротомия с вывихом головки правой бедренной кости, синовэктомия, резекция патологических очагов; аутопластика. В мае 2022 г. выполнена трепанобиопсия. Диагноз: последствия неспецифического хронического остеомиелита, актиномикоза проксимального эпифиза правой бедренной кости. Правосторонний коксит. Патологический эпифизиолиз головки правого бедра. Наблюдение и реабилитация в центре ФГБУ «СПбНИИФ» МЗ РФ.

Ортопедический статус в день обращения: имеют место ограничение сгибания, ротация в правом тазобедренном суставе. Укорочение правой нижней конечности за счёт бедра до 4,5 см, гипотрофия мышц. Сгибательная контрактура правого голеностопного сустава, дефицит тыльной флексии 30 градусов. При ходьбе отмечается хромота на правую ногу. Планируется продолжить реабилитационное лечение в условиях ДРКБ г. Саранска и решение вопроса о проведении оперативной коррекции укорочения конечности в федеральном центре.

Обсуждение

По данным литературы, для постановки диагноза эмфизематозный остеомиелит необходимо провести рентгенографию и КТ и/или МРТ, на которых выявляются пузырьки газа в костной ткани. В нашем клиническом случае при проведении КТ обнаружены множественные хаотично расположенные участки газовой плотности (газовые пузырьки) между костными трабекулами в правом тазобедренном суставе в структуре головки бедренной кости.

По данным литературы, внутрикостный пневматоз может возникать после травм и переломов без нарушения целостности мягких тканей. В нашем случае ребёнок за 2 мес до обращения в стационар лечился по поводу закрытого перелома вертела бедренной кости

справа. Согласно данным литературы, клиническая картина зависит от локализации инфекционного процесса и характеризуется местными и общими признаками воспалительного процесса (боль, нарушение функции, инфильтрация и болезненность мягких тканей, локальное и общее повышение температуры). У данного пациента гипертермия отмечалась с момента иммобилизации конечности (вторые сутки после травмы) до обращения в ДРКБ г. Саранска, то есть на протяжении 2 мес.

Вероятнее всего, эпифизиолиз головки правой бедренной кости, правосторонний синовит, выраженный артрозо-артрит справа, признаки подвывиха головки бедренной кости кнаружи, МР-признаки субтотального повреждения связки головки бедренной кости справа, разволокнение капсулы сустава справа, выраженный отёк мягких тканей правого бедра, подвздошной и паховой областей справа, умеренная регионарная лимфаденопатия справа, являются результатом длительного инфекционного процесса в кости и отсутствия должной иммобилизации конечности до госпитализации в стационар.

Заключение

В настоящее время гематогенный остеомиелит у детей стал встречаться реже, в связи с чем отсутствует настороженность врачей по данному заболеванию, а с эмфизематозным остеомиелитом в своей практике мы встретились впервые. Поэтому только при ухудшении состояния ребёнка на 4-е сутки госпитализации были назначены дополнительные методы исследования (рентгенография коленных и КТ тазобедренных суставов), подключена антибактериальная терапия. Ребёнок находился на лечении в стационаре в карантинный период по COVID-19, сотрудники кафедры Медицинского института на осмотр и проводимые консилиумы не привлекались. История болезни была проанализирована после выписки пациента.

Благодарность. Выражаем благодарность врачам ФГБУ «Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт фтизиопульмонологии» Минздрава России и ФГБУ «Национальный медицинский исследовательский центр детской травматологии и ортопедии имени Г.И. Турнера» за проведённые консультации и помощь в лечении данного пациента.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Белобородов В.А., Фролов А.П. Эмфизематозный остеомиелит, осложнённый некротизирующим фасциитом и миозитом. *Новости хирургии*. 2020; 28(3): 344–9.
2. Beloborodov V.A., Frolov A.P. Emphysematous osteomyelitis complicated by necrotizing fasciitis and myositis. *Novosti hirurgii*. 2020; 28(3): 344–9. (in Russian)
3. Lee J., Jeong C.H., Lee M.H., et al. Emphysematous Osteomyelitis due to *Escherichia coli*. *Infect Chemother*. 2017; 49: 151–4.
4. Doctor P.N., Verma M., Varaiya A., et al. Emphysematous osteomyelitis caused by *Salmonella typhi* in beta thalassemia major. *J Postgrad Med*. 2019; 65(1): 41–3.
5. Kim Y.K., Min Jo K., Jang J.H., et al. Rapidly fatal emphysematous osteomyelitis with multiple septic emboli and liver abscess caused by *Klebsiella pneumoniae*. *Infect Chemother*. 2018; 50(3):268–73.
6. Mujer M.T.P., Rai M.P., Hassanein M., Mitra S. Emphysematous osteomyelitis. *BMJ Case Rep*. 2018; 15: 1–3. <https://doi.org/10.1136/bcr-2018-225144>
7. Mautone M., Gray J., Naidoo P., et al. A case of emphysematous osteomyelitis of the midfoot: imaging findings and review of the literature. *CaseRepRadiol*. 2014; 2014:1–4.
8. D. Stasi M., Pontillo G., Bartolini A., et al. Spontaneous emphysematous osteomyelitis of the spine: A case report. *Radiology case reports*. 2020; 15: 1552–4.
9. Velickovic M., Hockertz T. Sacral emphysematous osteomyelitis caused by *escherichia coli* after arthroscopy of the knee. *CaseRepOrthop*. 2016: 1–4.

9. Neelakandan S., Viswanathan S., Selvaraj J., et al. Concurrent presentation of emphysematous pyelonephritis, emphysematous osteomyelitis, and psoas abscesses. *Cureus*. 2021; 13(6): 1–5.
10. Abdelbaki A., Bhatt N., Gupta N., et al. Emphysematous osteomyelitis of the forefoot. *Proc (BaylUniv Med Cent)*. 2017; 31(1): 100–1.
11. Tanaka K., Yonezawa N., Takei T. Vertebral osteomyelitis concurrent with emphysematous pyelonephritis and psoas abscess. *Clin Case Rep*. 2020; 8: 3646–7.
12. Khanduri S., Singh M., Goyal A., et al. Emphysematous osteomyelitis: report of two cases and review of literature. *Indian J Radiol Imaging*. 2018; 28(1): 78–80.
13. Basha A.Ch., Khalifa M., Hussein M., et al. Hip bone osteonecrosis with intraosseous pneumatosis after abdominal aortic aneurysm repair: a case of emphysematous osteomyelitis. *BJR Case Reports*. 2020; 10: 1–5.
14. Velickovic M., Hockertz T. Sacral emphysematous osteomyelitis caused by *Escherichia coli* after arthroscopy of the knee. *Case Rep Orthop*. 2016; 2016: 1961287.
15. Копчак О.Л., Мушкин А.Ю., Костик М.М., Малетин А.С. Вертебральная форма небактериального остеомиелита: клинико-лабораторная характеристика и особенности лечения. *Хирургия позвоночника*. 2016; 13(3): 90–101.
Kopchak O.L., Mushkin A.Yu., Kostik M.M., Maletin A.S. Vertebral form of non-bacterial osteomyelitis: clinical and laboratory features and treatment characteristics. *Hirurgiya pozvonochnika*. 2016;13(3): 90–101. (In Russian)

<https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-390-396>

Клиническое наблюдение / Clinical observation

© Холостова В.В.^{1,2}, Смирнов А.Н.^{1,2}, Война С.А.², Шумихин В.С.^{1,2}, Горохова М.М.¹

Приобретённый ректо-перинеальный свищ в исходе лечения крестцово-копчиковой тератомы у новорождённого

¹ФГАОУ ВО «Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, 117997, г. Москва, Россия;

²ГБУЗ города Москвы «Детская городская клиническая больница имени Н.Ф. Филатова Департамента здравоохранения города Москвы», 123001, Москва, Россия

Введение. Приобретённые ректо-перинеальные свищи (РПС) в детском возрасте встречаются достаточно редко. Одна из основных причин возникновения – травматическое повреждение промежностной части прямой кишки и анального канала. Именно в исходе коррекции болезни Гиршпрунга и аноректальных мальформаций чаще всего встречаются приобретённые ректо-перинеальные свищи.

Материалы и методы. Представлен редкий клинический случай у новорождённого с рецидивирующим течением приобретённого ректо-перинеального свища в исходе лечения крестцово-копчиковой тератомы. В возрасте 3 суток ребёнку выполнено удаление тератомы, осложнившееся расхождением швов в области дефекта стенки прямой кишки. После ушивания швов была наложена раздельная сигмостома. В возрасте 6 мес было выполнено закрытие сигмостомы, однако через несколько дней выявлены свищи в области стояния дренажа и послеоперационного рубца, потребовавшие восстановления сигмостомы. На фоне проводимой терапии свищи облитерировались, ребёнку выполнено повторное закрытие стомы. Через 2 нед у пациента отмечали ухудшение общего состояния и вновь появившиеся свищи, продолжавшие рецидивировать. Решено выполнить демукозацию отключённой прямой кишки выше уровня анального сфинктера и сквозное дренирование свища через просвет прямой кишки.

Заключение. Приобретённые РПС в детском возрасте – редко рецидивирующее заболевание. Несмотря на своевременное выявление возникших у ребёнка послеоперационных осложнений, добиться самостоятельного закрытия свища не удавалось, несмотря на многочисленные вмешательства. По сути, только экстирпация прямой кишки позволила разобщить свищевой ход с просветом кишки. Этот вид вмешательства считается достаточно редким, обычно удаётся устранить осложнение менее радикальным способом.

Ключевые слова: приобретённый ректо-перинеальный свищ; дети; крестцово-копчиковая тератома; демукозация свища; детская хирургия

Соблюдение этических стандартов. Исследование проведено с соблюдением требований конфиденциальности персональных данных, этических норм и принципов проведения медицинских исследований с участием человека, изложенных в Хельсинкской декларации Всемирной медицинской ассоциации «Этические принципы проведения медицинских исследований с участием человека в качестве субъекта».

Согласие пациентов. Законные представители участника исследования дали информированное добровольное письменное согласие на участие в исследовании.

Для цитирования: Холостова В.В., Смирнов А.Н., Война С.А., Шумихин В.С., Горохова М.М. Приобретённый ректо-перинеальный свищ в исходе лечения крестцово-копчиковой тератомы у новорождённого. *Детская хирургия.* 2023; 27(5): 390-396. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-390-396>

Для корреспонденции: Виктория Валерьевна Холостова, доктор мед. наук, доцент кафедры детской хирургии ФГАОУ ВО «РНИМУ им. Н.И. Пирогова» МЗ РФ, 117997, Москва; врач-детский хирург ГБУЗ г. Москвы «ДГКБ им. Н.Ф. Филатова ДЗМ», 123001, Москва. E-mail: vkholostova@yandex.ru.

Участие авторов. Все соавторы внесли равнозначный вклад в исследование и подготовку статьи к публикации, прочли и одобрили финальную версию перед публикацией.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Финансирование. Исследование не имело спонсорской поддержки.

Поступила в редакцию: 03 февраля 2023 / Принята в печать: 25 августа 2023 / Опубликовано: 30 ноября 2023

Kholostova V.V.^{1,2}, Smirnov A.N.^{1,2}, Vojna S.A.², Shumikhin V.S.^{1,2}, Gorokhova M.M.¹

An acquired recto-perineal fistula as the outcome of sacrococcygeal teratoma treatment

¹Pirogov Russian National Research Medical and Surgical Center, Moscow, 117997, Russian Federation;

²Filatov Children's City Clinical Hospital, Moscow, Moscow, 123001, Russian Federation

Introduction. An acquired recto-perineal fistula in childhood is a quite rare pathology. One of its main causes is trauma of the perineal part of the rectum and anal canal. That is why, acquired rectoperineal fistulas most often develop after the correction of Hirschsprung's disease and anorectal malformations.

Material and methods. The publication presents a rare case of a newborn child with recurrent course of an acquired rectoperineal fistula which developed after sacrococcygeal teratoma treatment. The teratoma was removed when the child was 3 days old. The surgery was complicated with suture dehiscence in the rectal wall defect. After suturing, a separate sigmstoma was placed. At the age of 6 months, the sigmstoma was closed, but after a few days, fistulas were found in the area of drainage and postoperative scar, which required sigmstoma restoration. After the prescribed therapy, the fistulas were obliterated; the stoma was closed again. In 2 weeks, child's general condition deteriorated, and newly appeared fistulas were noted. It was decided to perform demucosation of the disconnected rectum above the level of anal sphincter and to make fistula through drainage via the rectum lumen.

Conclusion. Acquired recto-perineal fistulas in childhood is a rare recurrent disease. Though postoperative complications were detected in time, authors do not get independent closure of the fistula, despite numerous interventions. In fact, only the rectum extirpation allowed to separate the fistulous tract from the intestinal lumen. This type of intervention is considered a quite rare one; usually, such complication can be eliminated in a less radical way.

Key words: acquired recto-perineal fistula; children; sacrococcygeal teratoma; fistula demucosation; pediatric surgery

Compliance with ethical standards. The study was conducted in compliance with the requirements of confidentiality of personal data, ethical standards and principles of conducting medical research with human participation, set out in the Helsinki Declaration of the World Medical Association "Ethical principles of conducting medical research with human participation as a subject".

Patient's consent. The legal representatives of the study participant gave informed voluntary written consent to participate in the study.

For citation: Kholostova V.V., Smirnov A.N., Vojna S.A., Shumikhin V.S., Gorokhova M.M. An acquired recto-perineal fistula as the outcome of sacrococcygeal teratoma treatment. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2023; 27(5): 390-396. <https://doi.org/10.55308/1560-9510-2023-27-5-390-396> (In Russian)

For correspondence: Dr. Victoria V. Kholostova, associate professor, department of pediatric surgery, Pirogov Russian National Research Medical and Surgical Center, Moscow, 117997, Russian Federation. E-mail: vkholostova@yandex.ru

Information about the authors:

Smirnov A.N., <https://orcid.org/0000-0002-8646-189X>

Kholostova V.V., <https://orcid.org/0000-0002-3463-9799>

Vojna S.A., <https://orcid.org/0000-0003-2500-4879>

Shumikhin V.S., <https://orcid.org/0000-0001-9477-8785>

Gorokhova M.M., <https://orcid.org/0000-0003-4368-0299>

Author contribution. All co-authors made a significant contribution to the development of concept, research and preparation of the article, read and approved its final version before publication.

Conflict of interest. The authors declare that there is no conflict of interest.

Funding. The study had no sponsorship.

Received: February 3, 2023 / Accepted for publication: August 25, 2023 / Published: November 30, 2023

Введение

Осложнения при хирургическом лечении тератом крестцово-копчиковой области встречаются нечасто. Истинная частота ятрогенных повреждений прямой кишки в ходе удаления тератом и формирование в послеоперационном периоде ректо-перинеальных свищей (РПС) достоверно не известна по понятным причинам, ввиду отсутствия механизмов учёта осложнений, и, вероятно, является намного большей, чем известно [1]. По этим же причинам отсутствует единая тактика лечения подобных осложнений, поэтому нам представляется интересным разбор каждого такого случая.

Клинический случай

Девочка К., первых суток жизни, госпитализирована в отделение хирургии новорождённых с диагнозом крестцово-копчиковая тератома. Диагноз установлен антенатально. Тератома асимметричного типа, смещена вправо (рис. 1, а), по данным компьютерной томографии (КТ), подтверждён IV тип тератомы (рис. 1, б). Ребёнок обследован по плану, оперирован на 3-и сутки жизни – выполнено удаление тератомы, отмечено интимное сращение опухоли с задней стенкой прямой кишки и нарушение целостности кишки размерами 1 × 2 мм. Дефект стенки ушит. Учитывая большую раневую поверхность и большой объём остаточной полости, ретроректальное пространство дренировано выпускником через рану, дополнительно установлен трубчатый дренаж через отдельный прокол в ягодичной области. Ранний послеоперационный период протекал на фоне субфебрильной лихорадки, стул отходил с 1-х суток после операции. На 6-е сутки по дренажу начало отходить каловое содержимое (рис. 2). Ребёнок оперирован повторно в экс-

тренном порядке – выполнена ревизия раны, выявлено расхождение швов в области дефекта стенки прямой кишки – рана ушита повторно. Одновременно наложена раздельная сигмостома. Течение послеоперационного периода без осложнений, рана на промежности полностью зажила, девочка выписана на 12-е сутки после операции в удовлетворительном состоянии (рис. 3).

В возрасте 6 мес после предварительного обследования (ультразвуковое исследование (УЗИ), ректоскопия, дистальная колостомаграфия), подтвердившего целостность стенки прямой кишки, проведено закрытие стомы. Ранний послеоперационный период протекал гладко, стул получен со 2-х суток, однако на 5-е сутки после операции диагностирован кишечный свищ в области послеоперационного рубца (рис. 4), а затем и в месте предшествовавшего стояния дренажной трубки. Проведён курс консервативной терапии – антибиотикотерапия, физиолечение, микроклизмы с антисептиками и заживляющими мазями – в течение 6 сут без эффекта. Ребёнок оперирован повторно – выполнено разобщение сигмо-сигмоанастомоза, восстановлена сигмостома. На протяжении последующих 6 мес регулярно проводились реабилитационные мероприятия – инстилляции антисептиков, физиотерапия, мазовые повязки. На фоне лечения воспалительные явления купированы, свищевые ходы облитерировались. Учитывая клинические проявления и сроки после операции, результаты вновь проведённого обследования, не выявившие никаких отклонений, ребёнку закрыта сигмостома. Течение послеоперационного периода гладкое, пассаж по кишечнику восстановлен.

Через 2 нед после выписки у девочки появилась болезненность в области ягодичы справа, затем присоединились отёк и гиперемия, повышение температуры тела до фебрильных цифр. По месту жительства выполнено

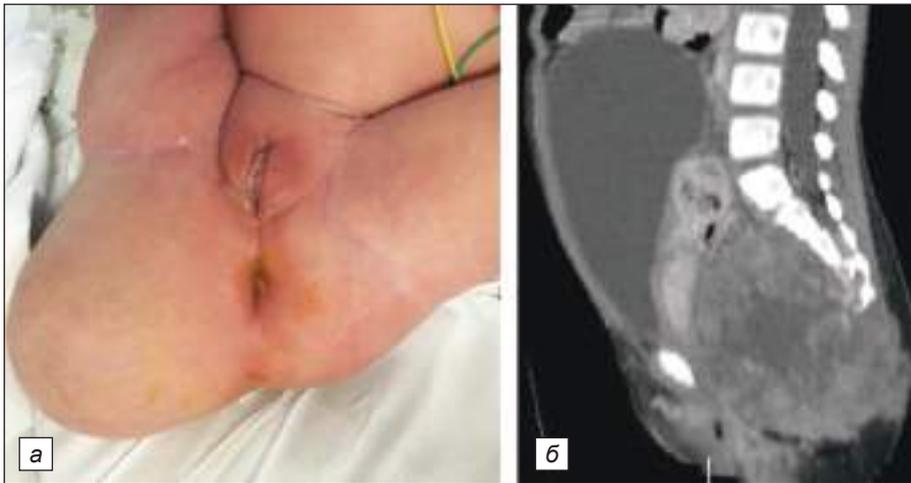


Рис. 1. Пациентка К., 4-е сутки жизни. Тератома асимметричного типа, смещена вправо: *a* – внешний вид тазовой области; *б* – КТ-исследование: тератома IV типа.

Fig. 1. Patient K., 4th day of life. Asymmetric type teratoma, shifted to the right: *a* – appearance of the pelvic area; *b* – CT examination: type IV teratoma.



Рис. 2. Каловое отделяемое по дренажу на 6-е сутки после операции.

Fig. 2. Fecal discharge through drainage on the 6th day after surgery.

вскрытие абсцесса в области правой ягодицы. На фоне консервативного лечения у ребёнка отмечалось периодическое рецидивирование свища с наличием гнойного отделяемого на протяжении последующих 4 мес (рис. 5). Девочка стала плохо набирать в весе, появились симптомы хронической интоксикации.

С этими жалобами ребёнок консультирован и госпитализирован в нашу клинику в возрасте 1 года 9 мес с клиническими проявлениями РПС и абсцесса промежности.



Рис. 3. Внешний вид ягодиц пациента в возрасте 3 мес, заживление раны на фоне стоматологии.

Fig. 3. Appearance of the patient at the age of 3 months, wound healing against the background of stomatology.



Рис. 4. Каловый свищ в области раны через 5 сут после закрытия колостомы.

Fig. 4. Fecal fistula in the wound area 5 days after closure colostomy.

Ребёнку была наложена терминальная колостомы, дистальный отдел прямой кишки заглушен, дренирован абсцесс со стороны промежности. Следует отметить, что в брюшной полости спаек не было. При проведении обследования, включающего КТ-фистулографию, диагностирован затёк контраста в мягкие ткани больших размеров (рис. 6). При проведении ректального осмотра и ректороманоскопии выявлен значительный дефект задне-боковой стенки прямой кишки на $\frac{1}{3}$ её окружности, схематически анатомическая картина отображена на рис. 7.

Учитывая давность заболевания, хронический характер воспалительного процесса и объём поражения прямой кишки, добиться купирования воспалительных явлений на промежности не удавалось, обильное слезотечение из просвета кишки в полость абсцесса поддерживало персистирующее свищевое ход. Решено выполнить демукозацию отключённой прямой кишки выше уровня анального сфинктера и сквозное дренирование свища через просвет



Рис. 5. Формирование хронического параректального свища и абсцесса ягодицы в возрасте 1 года.

Fig. 5. Formation of chronic pararectal fistula and abscess of the buttock at the age of 1 year.



Рис. 6. КТ-фистулография – контрастирована полость абсцесса.
Fig. 6. CT-fistulography – the cavity of the abscess is contrasted.

прямой кишки, схема операции представлена на рис. 8. В послеоперационном периоде воспалительные явления купированы, дренаж удалён на 6-е сут после операции.

Через 5 мес после операции ребенок госпитализирован повторно. При осмотре воспалительных явлений на промежности нет, свищевой ход закрылся, анус сомкнут, анальный рефлекс сохранён, сокращения анального сфинктера достаточной силы. При колостомаграфии контрастирован приводящий отдел толстой кишки – последний в хорошем состоянии, имеется некоторый «запас» сигмовидной кишки для последующего низведения. По данным КТ и МРТ, изменений в мягких тканях промежности нет.

Девочка подготовлена для радикального оперативного вмешательства – низведения сигмовидной кишки и наложения сигмо-анального анастомоза. После дивульсии ануса осмотрена прямая кишка – протяжённость отключённой части прямой кишки составила около 20 мм, стенка кишки герметична. Со стороны живота выделена колостома, мобилизована и подготовлена для низведения сигмовидная кишка (рис. 9, а). На высоте культи прямой кишки начато формирование канала низведения (рис. 9, б), учитывая выраженный рубцовый процесс, канал низведения сформирован путём этапного расширения бужами Герара (рис. 9, в). Через сформированный канал сигмо-



Рис. 7. Схема параректального свища и дренирования.
Fig. 7. Diagram of the pararectal fistula and drainage.

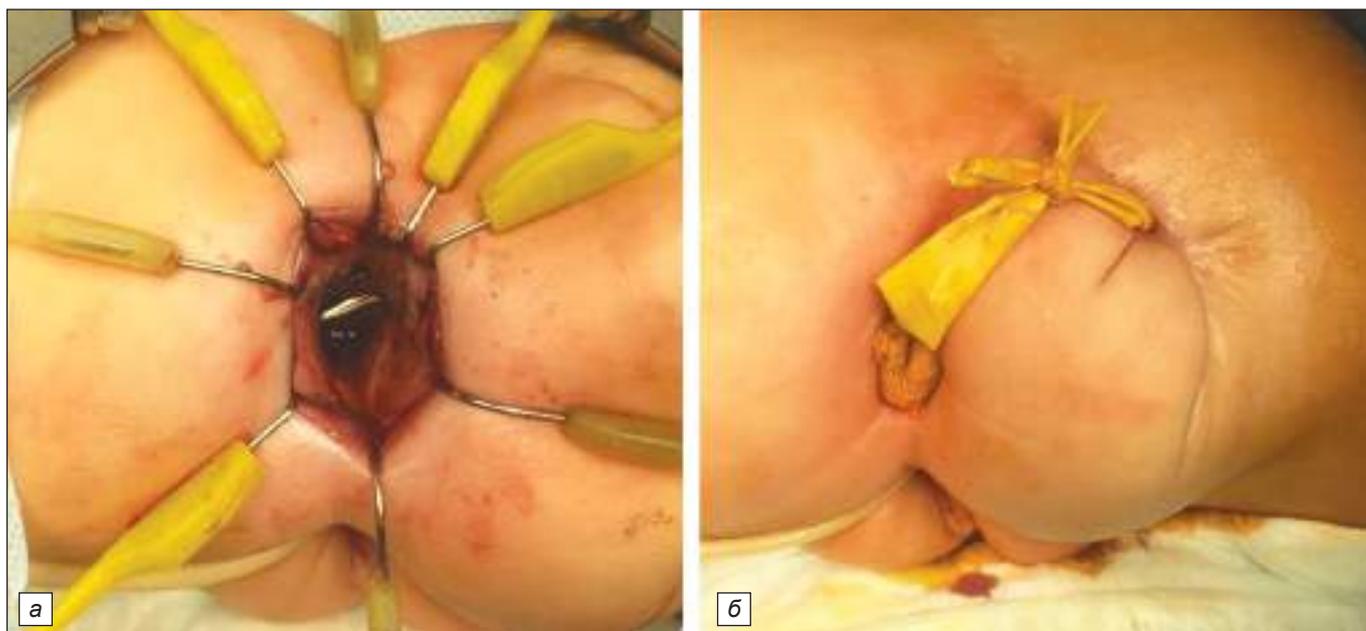


Рис. 8. Интраоперационные фото: кюретаж (а) и дренирование (б) параректального свища.
Fig. 8. Intraoperative photo: curettage (а) and drainage (б) of the pararectal fistula.

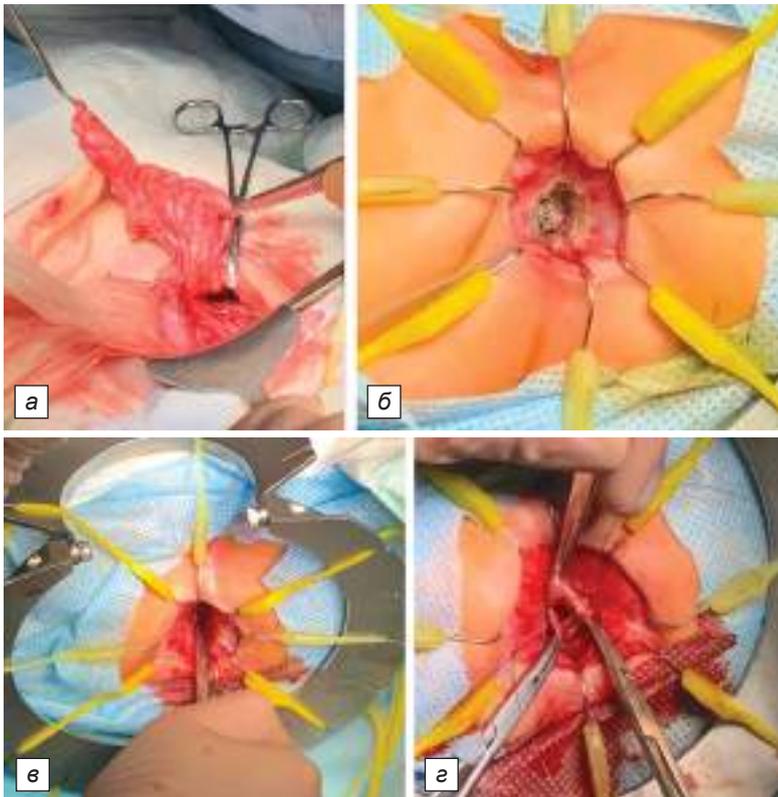


Рис. 9. Схема операции: *а* – мобилизована колостома и левая половина толстой кишки; *б* – вскрыт слепой конец культи прямой кишки; *в* – бужирование и формирование анального канала; *г* – низведение толстой кишки и создание коло-ректального анастомоза.

Fig. 9. Operation diagram: *a* – the colostomy and the left half of the colon have been mobilized; *б* – the blind end of the rectal stump has been opened; *в* – the augmentation and formation of the anal canal; *г* – the reduction of the colon and the creation of a colo-rectal anastomosis.

видная кишка низведена на промежность и сформирован сигмо-анальный анастомоз (рис. 9, *г*). Наложена превентивная илеостома. Послеоперационный период протекал гладко. Анастомоз зажил первичным натяжением. С учётом низведения кишки в условиях выраженного рубцового процесса на промежности, у ребёнка прогнозировалось сужение анального канала, в связи с чем с 10-х суток после операции начато бужирование прямой кишки бужами Гегара № 7–8, что существенно меньше возрастного диаметра.

При проведении контрольной ирригографии через 3 мес после операции было заметно протяжённое сужение низведённой кишки в анальном канале. Продолжено бужирование с постепенным увеличением диаметра бужей до № 14 и противорубцовая терапия. При повторной госпитализации, через 6 мес, в возрасте 4 лет проходимость прямой кишки полностью восстановлена, рубцовые изменения купированы, стенка кишки эластичная, область сигмоанального анастомоза практически не пальпируется. При ирригографии конфигурация толстой кишки нормальная на всём протяжении (рис. 10). Ребёнку закрыта илеостома, послеоперационный период протекал благоприятно.

Через 1 год выполнен 1-й этап пластики ягодич с иссечением части рубцово-изменённой и избыточной кожи. Функциональные и косметические результаты оценены в возрасте 6 лет: девочка имеет самостоятельный про-извольный стул и мочеиспускания, дефекации кратко-



Рис. 10. Ирригография пациентки по окончании лечения – контуры и проходимость толстой кишки не изменены.

Fig. 10. Irrigation of the patient at the end of treatment – the contours and patency of the colon are not changed.

стью 1–3 раза в сутки, недержание только жидкого кала, оформленный стул удерживает (рис. 11). Не пользуется памперсами. При обследовании выявлены признаки нейрогенной дисфункции мочевого пузыря (получает консервативное лечение). Реабилитационные мероприятия соблюдаются в полном объёме. Запланирован второй этап кожно-пластической операции для достижения наилучшего косметического результата.



Рис. 11. Внешний вид ягодич пациентки в возрасте 6 лет.

Fig. 11. Appearance of the patient at the age of 6 years.

Особенности клинического течения заболеваний при формировании РПС

Features of the clinical course in recto-perineal fistula formation

Механизм	Травма	Дебют симптоматики	Клинические проявления		Воспалительный процесс
			ранние	отсроченные	
Бытовая Бужирование Насилие	Тупой характер травмы	Появляется сразу	Острая боль, кровотечение	Каловый свищ	Не выражен
Операционная травма	Острое повреждение прямой кишки	На 2–5-е сутки после операции	Воспаление, нагноение в области раны	Несостоятельность швов Каловый свищ	Выражен
Воспалительный процесс на промежности в исходе операции	–	В отдалённые сроки – от нескольких недель до нескольких месяцев	Острый гнойный парапроктит	Абсцесс Каловый свищ	Выражен

Обсуждение

Приобретённый ректо-перинеальный свищ (РПС) (в англоязычной литературе – Acquired fistula-in-ano) в детской практике представляет разнородную группу заболеваний, истинная частота которых в настоящее время не определена. Наиболее часто в практике педиатров и детских хирургов встречается так называемый младенческий парапроктит, в исходе которого формируется «первичный» ректо-перинеальный свищ (в англоязычной литературе – Perianal abscess and fistula-in-ano (PA/FIA)) – врождённый порок развития прямой кишки и перианальной области, с чёткой наследственной предрасположенностью. Первичные РПС чаще встречаются у мальчиков и среди общего числа РПС составляют до 96% [2].

Истинно приобретённые, или вторичные РПС составляют в детском возрасте не более 4%. В подавляющем большинстве случаев вторичные РПС встречаются у пациентов с первичным или приобретённым иммунодефицитом, в том числе на фоне ВИЧ-инфекции, а также у пациентов с воспалительными заболеваниями кишечника – болезнью Крона и язвенным колитом. Пациенты с иммунологическими нарушениями составляют примерно 2/3 среди детей с вторичными РПС [2]. Остальные случаи обусловлены травматическими повреждениями промежности и прямой кишки и ятрогенными причинами. Именно последняя категория пациентов представляет наибольший интерес для детских хирургов, занимающихся педиатрической колопроктологией. Мы не будем останавливаться на случаях ятрогенных повреждений прямой кишки при проведении лечебно-диагностических процедур (колоноскопии, ректоскопии и различного рода клизм), потому что подобные осложнения характерны для внутрибрюшных отделов толстой кишки, и практически не наблюдаются в прямой кишке, так как формирование РПС происходит, как правило, при повреждении промежностной части прямой кишки и анального канала.

Рассмотрим причины развития РПС в послеоперационном периоде у пациентов колопроктологического профиля. Основные направления детской колопроктологии – коррекции болезни Гиршпрунга и аноректальных мальформаций (АРМ), именно в исходе хирургической коррекции этих пороков чаще всего и встречаются РПС. Причинами их непосредственного развития, по нашему опыту, являются:

- ретракция низведённой кишки при болезни Гиршпрунга и АРМ в силу её натяжения:
 - на фоне недостатка длины низводимой кишки (протяжённая зона аганглиоза, низкорасположенная колостомы, избыточная резекция низводимой кишки);
 - на фоне недостаточной мобилизации брыжейки низводимой кишки;

- в силу особенностей ангиоархитектоники низводимой кишки («короткие» сосуды брыжейки, рассыпной тип кровоснабжения);
- несостоятельность коло-ректального или аноректального анастомозов, причинами которой могут быть:
 - колит у пациентов с болезнью Гиршпрунга, энтероколит у пациентов с протяжённой резекцией кишечника;
 - выполнение реконструктивной операции без защитной колостомы с постоянным попаданием каловых масс на область аноректального анастомоза.
- ранение стенки прямой кишки во время операции:
 - при удалении пресакральных образований (у пациентов с синдромом Кураино, тератомой крестцовой области);
 - коагуляционное повреждение стенки низводимой кишки;
 - повреждение анального кольца или стенки анального канала при проведении бужирования стенозов неоануса и прямой кишки [2, 3].

Таким образом, патогенетическими механизмами формирования вторичных РПС являются травма и воспаление. Особенности клинического течения заболевания при формировании РПС, основанные на нашем опыте ведения таких больных, представлены в таблице.

Заключение

Данное клиническое наблюдение относится к редким случаям рецидивирующего течения приобретённого РПС в детском возрасте. Несмотря на своевременное выявление возникших у ребёнка послеоперационных осложнений, добиться самостоятельного закрытия свища не удавалось, несмотря на многочисленные вмешательства. По сути только экстирпация прямой кишки позволила разобщить свищевой ход с просветом кишки. Данный тип вмешательства в детской практике – большая редкость, так как в большинстве случаев удаётся устранить осложнение менее радикальным способом [3, 4].

Кроме того, в условиях выраженного рубцового процесса на фоне хронического воспаления подобные реконструкции прямой кишки не всегда технически выполнимы, а также сопровождаются высоким риском недостаточности сфинктерных структур прямой кишки. Эти обстоятельства обуславливают высокую потребность в пожизненном стоманосительстве у детей с послеоперационными РПС при болезни Гиршпрунга и АРМ [5].

Приобретённые РПС у детей с тератомами крестцово-копчиковой области также являются большой редкостью. В доступной литературе нам не встретилась статистика подобного осложнения. Данное наблюдение демонстрирует нестандартный вариант реконструкции прямой кишки при приобретённом РПС с хорошим анатомическим и функциональным исходом.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Groom J.S., Nicholls R.J., Hawley P.R., Phillips R.K. Pouch-vaginal fistula. *Br J Surg.* 1993; 80: 936–40.
2. Ашкрафт К.У., Холдер Т.М. *Детская хирургия*. СПб.: Пит – Тал; 1997. Т. 2.
Ashkraft K.U., Holder T.M. *Pediatric surgery [Detskaya khirurgiya]*. St. Petersburg: Pit – Tal; 1997. V. 2. (In Russian)
3. Ионов А.Л., Щербаква О.В. Послеоперационные осложнения в колоректальной хирургии у детей. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реанемотологии*. 2013; (4): 58–8.
4. Горелова: Е.М. Крестцово-копчиковая тератома (ККТ). *Детская хирургия*. 2016; 20(4): 194–9.
Gorelova E.M. Sacrococcygeal teratoma. *Detskaya khirurgiya (Russian Journal of Pediatric Surgery)*. 2016; 20(4): 194–9. (In Russian)
5. Holschneider A.M., Hutson J.M. *Anorectal Malformations in Children. Embryology, Diagnosis, Surgical Treatment, Follow-up*. Berlin – Heidelberg: Springer Verlag; 2006.

