

ГИПЕРПЛАЗИЯ ВНУТРЕННЕГО СФИНКТЕРА ПРЯМОЙ КИШКИ. КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

Ачкасов С.И.¹, Титов А.Ю.¹, Шахматов Д.Г.¹, Сайфутдинова К.Р.²,
Майновская О.А.¹, Зароднюк И.В.¹, Фоменко О.Ю.¹

¹ ФГБУ «ГНЦК им. А.Н.Рыжих» Минздрава России, г. Москва
(директор – чл.-корр. РАН, профессор Ю.А.Шелыгин)

² Кафедра колопроктологии ФГБОУ ДПО «РМАНПО» Минздрава России,
г. Москва
(зав. кафедрой – чл.-корр. РАН, профессор Ю.А.Шелыгин)

В литературе присутствуют единичные сообщения об изолированном утолщении внутреннего анального сфинктера и причинах его развития. Четкой диагностической программы и описания хирургической коррекции при этом состоянии обнаружить не удалось. Данное клиническое наблюдение демонстрирует редкий случай синдрома гиперплазии внутреннего сфинктера прямой кишки с облитерацией анального канала, а также успешную реабилитацию пациента в процессе многоэтапного хирургического лечения.

[Ключевые слова: внутренний анальный сфинктер, гиперплазия]

HYPERPLASIA OF INTERNAL ANAL SPHINCTER. CASE REPORT.

Achkasov S.I.¹, Titov A.Y.¹, Shakhmatov D.G.¹, Saifutdinova K.R.², Mainovskaya O.A.¹, Zarodnuk I.V.¹, Fomenko O.U.¹

¹ State Scientific Centre of Coloproctology, Moscow, Russia

² Russian Medical Postgraduate Education Academy, Moscow, Russia

It is possible to find some reports on isolated thickening of the internal anal sphincter and the causes of its development in the literature. However, no clear diagnostic program and surgical correction description has been detected for this condition. This clinical observation demonstrates a rare case of the hyperplasia of the internal sphincter syndrome with the obliteration of the anal canal, and also successful rehabilitation of the patient during the multi-stage surgical treatment.

[Key words: internal anal sphincter, hyperplasia]

**Адрес для переписки: Сайфутдинова Карина Рафисовна, ФГБУ «ГНЦК им. А.Н.Рыжих» Минздрава России,
ул. Саляма Адила, д. 2, Москва, 123423; e-mail: doctor.carin@gmail.com**

Внутренний анальный сфинктер является утолщением циркулярного мышечного слоя дистального отдела прямой кишки длиной 2,5–4 см и толщиной 5–9 мм [1]. Эта структура обеспечивает герметичное смыкание анального канала, поддерживает постоянное давление в прямой кишке, участвуя в акте дефекации и реализуя ректоанальный ингибиторный рефлекс.

В литературе имеются единичные сообщения об изолированном утолщении внутреннего сфинктера заднего прохода. Впервые это состояние у взрослых описано в 1944 году Miles W.E., который наблюдал пациента со стойкими запорами [2]. Guy R.J. et al. (1997) предположили, что у детей это заболевание является врожденным и часто имеет наследственный характер [3]. В то же время, ряд авторов полагает, что гиперплазия внутреннего сфинктера является вторичным состоянием, развивающимся при хроническом запоре [4–6]. По мнению Thomas E. et al, причиной утолщения внутреннего сфинктера может стать миофиброз на фоне гемор-

роя и анальной трещины [2]. Диагностическая программа при гиперплазии внутреннего сфинктера заднего прохода не выработана, однако наибольшее значение придается эндоректальной ультрасонографии. Этот метод, впервые примененный у взрослых в 1972 г. Dragsted J. и Gammelgaard J., позволяет визуализировать сфинктер и измерить его толщину.

Мы представляем вашему вниманию описание редкого клинического случая гиперплазии внутреннего сфинктера прямой кишки с облитерацией анального канала у мужчины 25 лет. В доступной нам литературе не удалось обнаружить описания хирургической коррекции подобного состояния. Пациент Р. родился со сложной аномалией развития в виде атрезии пищевода и «выбухания заднего прохода». Со слов родителей, «выпадение заднего прохода» в виде цилиндра длиной до 2 см имелось с рождения, стул при этом был самостоятельным, регулярным и контролируемым.

По поводу атрезии пищевода в возрасте 1 года

больному была выполнена экстирпация пищевода с замещением его толстокишечным трансплантатом и формированием анастомоза «бок-в-бок». В послеоперационном периоде развилась несостоятельность эзофагоколоанастомоза, что потребовало наложения гастростомы. После стихания воспалительных изменений и выполнения контрольной рентгенографии гастростомы была закрыта. В дальнейшем жалоб со стороны органов пищеварительной системы не предъявлял, диету не соблюдал.

С 16 лет пациент стал отмечать увеличение длины выбухающей части сфинктера, позже присоединились боли при дефекации. В связи с усилением болевого синдрома пациент в возрасте 21 года был госпитализирован в Воронежскую областную клиническую больницу, где установлен диагноз выпадения прямой кишки, после чего для определения тактики лечения направлен в ФГБУ «ГНЦК им. А.Н.Рыжих».

При осмотре промежности обращало на себя внимание мягкотканное образование цилиндрической формы длиной 6 см, покрытое кожей, на верхушке которого располагалось анальное отверстие. При пальцевом исследовании через это отверстие отмечалось увеличение тонуса стенок указанного образования, что сопровождалось резкой болезненностью. При наружной пальпации анальной области у основания описанного образования определялись мышцы наружного сфинктера, которые сокращались при волевом усилии.

При ультразвуковом исследовании брюшной полости и малого таза выявлены расширенная пневматизированная ободочная кишка, деформация желчного пузыря, признаки спаечного процесса в брюшной полости. На уровне выступающего за пределы ягодиц образования дифференцировался утолщенный внутренний сфинктер шириной 5,8-9,8 мм, более выраженный по передней полуокружности. Структура его неоднородная, со скле-

ротическими изменениями. В дистальной части цилиндрического образования внутренний сфинктер толщиной 6 мм был окружен гиперэхогенным кольцом.

При трансректальном ультразвуковом исследовании (ТРУЗИ) была заподозрена инвагинация прямой кишки на уровне средне- и верхнеампулярного отделов прямой кишки (Рис. 1).

При ирригоскопии с дефекографией выявлен мега-ректум, при этом диаметр прямой кишки составлял 9 см. В покое анальный канал располагался на 8 см ниже лонно-копчиковой линии, на 4 см ниже седалищных бугров и на 3,5 см ниже уровня перинальной кожи, выступая над её уровнем в виде цилиндра или «хоботка». В процессе дефекации отсутствовали собственные пропульсивные сокращения прямой кишки, ее опорожнение происходило за счет сокращения мышц передней брюшной стенки, при этом остаточный объем достигал 60%, а время опорожнения превышало 90 секунд.

Было проведено функциональное исследование запирающего аппарата прямой кишки. По данным суммарной электромиографии (ЭМГ) поверхностными электродами, функционирующих мышечных структур запирающего аппарата на уровне промежности и на поверхности дистального отдела прямой кишки не выявлено. Биоэлектрическая активность регистрировалась на уровне 6 см от наружного края анального канала. Реакция пуборектальной петли проявлялась нормальным угнетением биоэлектрической активности. При профилометрии в покое в анальном канале на уровне 6-7 см в проекции предполагаемого внутреннего сфинктера регистрировалась зона асимметричного распределения давления. Зарегистрировано снижение среднего давления в анальном канале в покое до 17,5 мм рт.ст. и максимального давления до 25,7 мм рт.ст., при нижней границе нормы 44,0 мм рт.ст. и 89,4 мм рт.ст., соответственно.

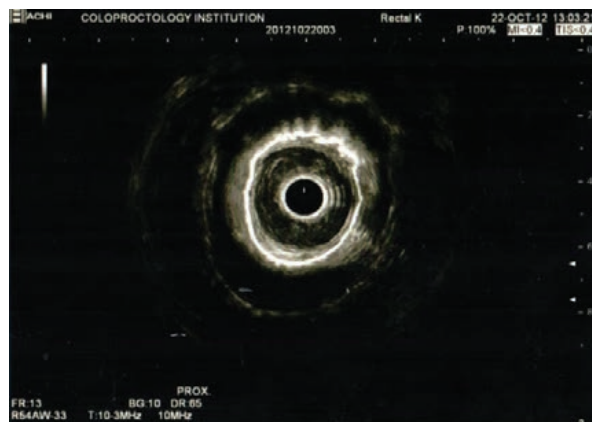


Рисунок 1. ТРУЗИ пациента Р

Таким образом, на основании данных обследования, проведенного в октябре 2012 года в ГНЦ колопроктологии, пациенту был установлен диагноз: аномалия анального сфинктера с выпадением анального канала и внутренней инвагинацией, мегаректум. Учитывая выраженный болевой синдром, больному была произведена дивульсия анального сфинктера под обезболиванием, при этом установлено, что кожа, покрывавшая образование, вворачивалась в анальный канал на глубину 1,5 см. Проксимальнее внутренняя поверхность выступающего цилиндра, протяженность которого составляла 7 см, была выстлана анодермой. Зубчатая линия визуализировалась внутри цилиндра на уровне его основания. Слизистая дистальной части прямой кишки складчатая, нависала над входом в анальный канал, по задней полуокружности на 6 часах определялся дефект тканей размерами 1×0,5 см. В послеоперационном периоде проводилось пальцевое бужирование анального канала, местное лечение, направленное на эпителизацию анальной трещины, включавшее аппликации с метилурациловой мазью, облепиховым маслом. На фоне проведенного лечения болевой синдром купирован, пациент в удовлетворительном состоянии выписан из стационара на амбулаторное лечение.

В декабре 2014 года пациент поступил в срочном порядке в частную клинику г. Тбилиси с клинической картиной механической кишечной непро-



Рисунок 2. Фотография перианальной области пациента Р.

ходимости. Выполнена лапаротомия, разделение спаек. В ходе дальнейшей интраоперационной ревизии обнаружена удлиненная и расширенная сигмовидная кишка. Операция выполнена в объеме резекции мегадолихосигмы по типу операции Гартмана, санации и дренирования брюшной полости. Послеоперационный период протекал без осложнений, пациент выписан на 7-е сутки в удовлетворительном состоянии.

В 2016 году повторно обратился в ГНЦК для решения вопроса о возможности восстановления непрерывности кишечника. При поступлении общее состояние удовлетворительное. В левом нижнем квадранте живота визуализировалась одноствольная колостома без признаков парастомальных осложнений. При осмотре промежности расчесов и мацерации кожи не выявлено. Наружные половые органы сформированы правильно. В проекции заднего прохода определялся мягкотканый цилиндр, покрытый кожей, диаметром около 4 см, длиной 7 см, болезненный при пальпации. Заднепроходное отверстие облитерировано. При волевом сокращении отмечалось сморщивание кожи в области верхушки цилиндра с образованием невыраженного втяжения. По всей видимости, вышеописанное втяжение – облитерированное наружное отверстие анального канала (Рис. 2).

С целью уточнения характера выявленных изменений больной был обследован. При магнитно-резонансной томографии органов малого таза было отмечено циркулярное утолщение внутреннего мышечного слоя прямой кишки с переходом изменений на анальный канал, выходом за его пределы с формированием цилиндра в виде псевдомышечной манжетки (Рис. 3).

При ультразвуковом исследовании органов брюшной полости, органов малого таза, мягких тканей промежности картина соответствовала выпадению прямой кишки.

При колоноскопии, осуществленной через сигмостому, в функционирующих отделах патологических изменений не выявлено, ранее сформированный трансверзо-сигмоидный анастомоз не определялся.

На основании данных комплексного обследования, обнаруженные изменения внутреннего сфинктера и дистального отдела прямой кишки были трактованы как врожденная гиперплазия продольного мышечного слоя дистальной части прямой кишки с формированием псевдомышечной манжетки и облитерацией анального канала.

Пациент обсужден на консилиуме ФГБУ «ГНЦК имени А.Н.Рыжих». С целью социальной реабилитации больного, восстановления анальной дефекации, а также учитывая выраженный дискомфорт,

обусловленный наличием мягкотканного образования в промежности, и риск осложнений, связанных с недренируемой отключенной прямой кишкой, снижение качества жизни, решено выполнить хирургическое вмешательство.

Больному была запланирована следующая операция: резекция гиперплазированного участка псевдомышечной манжетки с созданием анального канала, формирование реконструктивно-восстановительного колоректального анастомоза.

В ходе обсуждения плана хирургического вмешательства высказывались опасения о возможных технических трудностях, обусловленных перенесенной в детстве пластикой пищевода участком толстой кишки и связанными с этим изменениями кровоснабжения оставшихся отделов ободочной кишки. Очевидно, что при мобилизации ободочной кишки у данного пациента непреднамеренное повреждение ветвей нижней брыжеечной артерии, питающих толстокишечный трансплантат, имело бы драматические последствия. Поэтому в случае, если при интраоперационной ревизии нижняя брыжеечная артерия четко не была бы идентифицирована, а длины функционирующей кишки было бы недостаточно для формирования соустья, рассматривался вариант вмешательства, включающий ререзекцию ободочной кишки с сохранением ее брыжейки, мобилизацией и разворотом слепой и восходящей ободочной кишки с последующим формированием асцендоректального анастомоза. 07.09.2016 пациент в плановом порядке был оперирован. После выполнения лапаротомии произведена ревизия органов брюшной полости, при которой установлено, что ободочная кишка расширена до 5-6 см, при этом ранее сформированный трансверзо-сигмоидный анастомоз не визуализи-

руется. Нижние брыжеечные сосуды сохранены. Стома наложена на дистальную треть сигмовидной кишки, длины которой достаточно для низведения в малый таз. Купол культи отключенной прямой кишки располагался на уровне промоториума. Для точного определения хода анального канала решено прибегнуть к комбинированному брюшно-промежностному доступу. Со стороны промежности произведено вскрытие просвета кишки в области верхушки цилиндра. Через просвет вскрыта культя прямой кишки, из нее извлечены каловые камни размером 7×8 и 8×9 см (Рис. 4). Сформирован ручной двухрядный сигморектальный анастомоз.

Промежностной бригадой хирургов острым путем произведено иссечение выпадающей части образования с оставлением культи длиной 1 см. При этом выявлено, что стенка образования представлена гипертрофированными мышечными структурами с сохранением просвета кишки, выстланного неизменной слизистой. С целью формирования анального канала кожа подшита к краю слизистой отдельными узловыми швами без натяжения. Избыток кожи отсечен при помощи электрокоагуляции, раны ушиты. Операция завершена илеостомией по Торнболлу.

При патоморфологическом исследовании в анодерме определяется умеренный фиброз основы с большим количеством разнокалиберных сосудов, преимущественно тонкостенных, отдельные сосуды порочно развиты. Определяется разрастание гладкомышечной ткани с большим количеством сосудов в толще, наличием крупных сосудов с гиперплазией мышечного слоя, дистрофическими изменениями в гладкомышечных клетках. Выявленные изменения были расценены как картина выраженной гиперплазии гладкомышечной ткани.

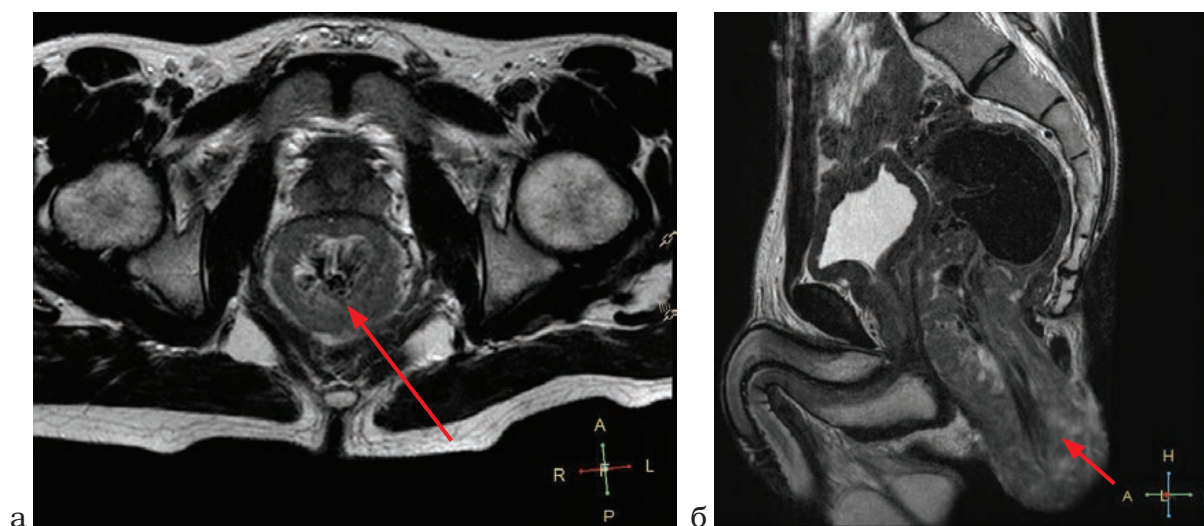


Рисунок 3. МРТ органов малого таза больного Р. а – аксиальная проекция, б – сагиттальная проекция. Стрелкой отмечено циркулярное утолщение внутреннего сфинктера

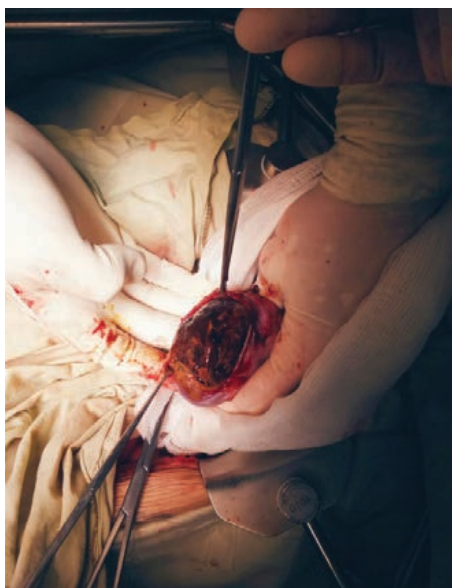


Рисунок 4. Интраоперационная фотография. Каловые камни культи прямой кишки пациента



Рисунок 5. Интраоперационная фотография промежности больного. Окончательный вид после формирования анального канала



а



б

Рисунок 6. Фотография послеоперационной раны со стороны промежности на 19-е (а) и 27-е (б) сутки после операции

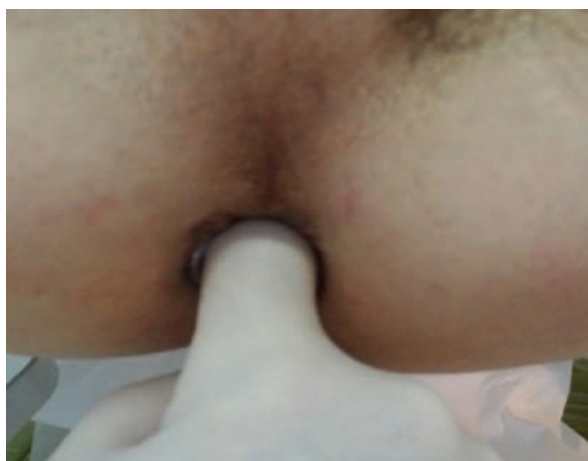


Рисунок 7. Фотография промежности пациента спустя 5 месяцев после операции

Послеоперационный период протекал без осложнений, пациент выписан на 15-е сутки в удовлетворительном состоянии. Дальнейшая реконвалесценция также происходила гладко.

Через 5 месяцев при контрольном сфинктерометрическом исследовании сформированного запирающего аппарата прямой кишки выявлены отклонения, соответствующие анальной недостаточности II степени – среднее давление покоя составило 29 мм рт.ст., максимальное давление сокращения – 84 мм рт.ст. при норме 43-61 мм рт.ст. и 121-227 мм рт.ст., соответственно.

В феврале 2017 года двустольная илеостома была закрыта. В послеоперационном периоде осложнений не отмечено.

При контрольном осмотре в июне 2017 года жалоб не предъявляет, чувствует себя удовлетворительно. Стул регулярный, контролируемый, при этом пациент удерживает газы, жидкие и твердые компоненты кала.

Представленное клиническое наблюдение демонстрирует редкий случай синдрома гиперплазии внутреннего сфинктера прямой кишки с облитерацией анального канала, а также успешную реабилитацию пациента в процессе многоэтапного хирургического лечения.

ЛИТЕРАТУРА

1. Одарюк, Т.С. Хирургия рака прямой кишки / Т.С.Одарюк, Г.И.Воробьев, Ю.А.Шельгин // М: Дедалус, 2005. – с. 50-51.
2. Комиссаров, М.И. Диагностика и лечение хронических запоров у детей. Дис.... канд. мед. наук. – Санкт-Петербург, 2009. – с. 17-23.
3. Guy, R.J. Internal anal sphincter myopathy causing proctalgiafugax and constipation: further clinical and radiological characterization in a patient/ R.J.Guy, M.A.Kamm, J.E.Martin //Eur. J. Gastroenterol. Hepatol. – 1997. – v. 9. – № 2. – p. 221-224.
4. Zorzi, A. Anal sphincter dysplasia as cause of chronic defecation disorders: a clinical and genetic study/ A.Zorzi, A.Schinzel, J.Hirsig // Schweiz.Med. Wochenschr. – 1991. – v. 121. – № 43. – p. 1567-1575.
5. Keshtgar, A.S. Investigations for incontinence and constipation after surgery for Hirschsprung's disease in children / A.S.Keshtgar, H.C.Ward, G.S.Clayden et al. // Pediatr.Surg. Int. – 2003. – v. 19. – p. 4-8.
6. Schmittenebecher, P. Thickening of the internal anal sphincter in idiopathic constipation in children / P.Schmittenebecher //J. Pediatr. Surg. – 2005. – v. 40. – № 7. – p. 1217.