

Streszczenie

Malformacje odbytniczo-odbytowe stanowią szerokie spektrum licznych wad dystalnego odcinka przewodu pokarmowego, często powiązanych z anomaliami układu moczowo-płciowego. Zabiegi operacyjne mają na celu przywrócenie prawidłowej anatomii i czynności dystalnego odcinka przewodu pokarmowego. Niestety w wielu przypadkach, nawet najlepiej przeprowadzony zabieg nie jest w stanie zapewnić dziecku prawidłowej funkcji tego odcinka przewodu pokarmowego. Ocena funkcji tego odcinka przewodu pokarmowego jest niezbędna dla uzyskania informacji na temat patofizjologii jego zaburzeń czynnościowych, strukturalnych, postawienia diagnozy i wdrożenia odpowiedniego sposobu leczenia.

Technologiczny postęp jaki dokonał się w ostatnich latach umożliwił rozwój manometrii odbytniczo-odbytovej wysokiej rozdzielczości 3D. Pozwala ona na wielopunktowy, jednoczasowy ciągły pomiar ciśnień w obrębie anorectum, a następnie na jego analizę i przetworzenie uzyskanych danych na trójwymiarowy obraz ciśnień generowanych przez kompleks mięśniowy zwieraczy odbytu. Uzyskane w badaniu rzeczywiste odwzorowanie przestrzenne 3D zwieraczy odbytu pozwala zidentyfikować pewne ubytki/asymetrię w ich budowie. Dzięki temu badaniu mamy możliwość lepszego zrozumienia i wyjaśnienia przyczyn dysfunkcji tego odcinka przewodu pokarmowego, postawienia właściwej diagnozy, a także wyboru odpowiedniego sposobu leczenia, zwłaszcza u dzieci po operacjach malformacji odbytniczo-odbytowych.

Cele pracy

- Ocena przydatności manometrii odbytniczo-odbytovej wysokiej rozdzielczości 3D w diagnostyce zaburzeń funkcji motorycznej oraz nieprawidłowości w budowie struktur kompleksu mięśniowego odbytu u dzieci po operacjach wad odbytniczo-odbytowych.
- Zebranie danych tj.: wiek pacjenta w chwili przeprowadzenia manometrii odbytniczo-odbytovej, typ wady, obecność anomalii w budowie kości krzyżowej, występowanie powikłań odległych po PSARP.
- Zebranie i opracowanie wybranych danych tj.: poziom ciśnienia spoczynkowego w kanale odbytu, poziom ciśnienia skurczowe, obecność czucia wypełnienia odbytnicy

uzyskanych podczas wykonywania manometrii odbytniczo-odbytowej wysokiej rozdzielczości 3D.

- Analiza i opracowanie obrazu ciśnień wywołanych przez zwieracze odbytu w badaniu manometrycznym:
 - ✓ Obecność symetrii/asymetrii w obrazie 3D podczas rozkładu ciśnień w kanale odbytu w spoczynku
 - ✓ obecność symetrii/asymetrii w obrazie 3D podczas rozkładu ciśnień w kanale odbytu w skurczu
 - ✓ analiza obrazu rozkładu ciśnień odpowiadających czynności mięśnia łonowo-odbytniczego w obrazie 3D
- Przeprowadzenie analizy korelacji uzyskanych wyników.

Materiał i metodologia

Grupę badaną stanowiło 48 dzieci. Do grupy referencyjnej zakwalifikowano 28 dzieci u których nie występowały zaburzenia motoryki dystalnego odcinka przewodu pokarmowego tj. zaparcia lub nietrzymanie stolca, i u których nigdy nie przeprowadzono leczenia inwazyjnego okolicy kroczonej.

Wiek dzieci w obu grupach wahał się w przedziale 3 a 17 lat. Na potrzeby analizy danych utworzono trzy grupy wiekowe: grupa I (3-7 lat), grupa II (8-13 lat), grupa III (14-17 lat). W grupie badanych dzieci na podstawie analizy dokumentacji medycznej oraz podczas badania podmiotowego zebrano dane dotyczące:

- typu wady odbytniczo-odbytowej. Dla potrzeb analizy uzyskanych wyników zastosowano podział typów wad odbytu i odbytnicy na dwie grupy w zależności od ryzyka występowania powikłań po zabiegu PSARP takich jak zaparcia lub nietrzymanie stolca.
- obecności anomalii w budowie kości krzyżowej
- obecności powikłań. Uzyskane na podstawie wywiadu informacje dotyczące obecności powikłań takich jak zaparcia lub nietrzymanie stolca pozwoliły podzielić badanych pacjentów na:
 - ✓ grupę 1- dzieci ze sprawną funkcją motoryczną dystalnego odcinka przewodu pokarmowego,

- ✓ grupę 2 – dzieci z zaparciami,
- ✓ grupę 3 – dzieci z nietrzymaniem stolca.

Badanie manometryczne wykonywane było aparatem ManoScan™ AR z zastosowaniem cewników wysokiej rozdzielczości o unikalnej technologii umożliwiającej rzeczywisty jednoczasowy, wielopunktowy pomiar obwodowych ciśnień w obszarach zwieraczy odbytu i odbytnicy. Uzyskany komputerowy trójwymiarowy obraz ciśnień generowanych przez kompleks mięśniowy zwieraczy odbytu stanowił wizualizację funkcjonalną anatomii kompleksu mięśniowego tych zwieraczy. W badaniu zbadano i poddano analizie następujące parametry:

- ✓ średnie ciśnienie spoczynkowe w kanale odbytu
- ✓ maksymalne ciśnienie skurczowe w kanale odbytu
- ✓ ocena czucia wypełnienia

Wyniki tych badań poddano również analizie porównawczej względem wybranych danych uzyskanych z dokumentacji medycznej tj.; wiek pacjenta, typ wady odbytniczo-odbytowej, obecność wad w obrębie kości krzyżowej, czy obecność odległych powikłań takich jak nietrzymanie stolca czy zaparcia.

W dalszej części badania uzyskany u pacjentów w grupie badanej jak i referencyjnej trójwymiarowy obraz kompleksu zwieraczy odbytu poddany został analizie pod kątem jego symetrii. Obliczony został odsetek różnicy zarejestrowanych ciśnień w obrazie z lewej i prawej strony zwieraczy odbytu, zarówno w skurczu jak i w spoczynku. Większy odsetek różnicy - asymetria obrazu świadczy o dysfunkcji motorycznej jednej ze stron kompleksu mięśniowego. Uzyskane wyniki również poddano analizie porównawczej względem wybranych danych klinicznych pacjentów z grupy badanej.

Analizę statystyczną wykonano za pomocą pakietu Statistica 12. Uzyskane dane, w zależności od zmiennych poddano analizie za pomocą:

- ✓ testu Shapiro-Wilka
- ✓ testu t Studenta
- ✓ testu Cochran-Coxa
- ✓ testu U Manna-Whitney'a
- ✓ testu F (analiza wariancji ANOVA)
- ✓ testu nieparametrycznego Kruskala-Wallisa

- ✓ testu Fishera
- ✓ współczynnika korelacji rang Spearmana
- ✓ testu niezależności chi-kwadrat Pearson'a

Wyniki

W grupie badanej najliczniejsza była I grup wiekowa (dzieci najmłodsze – 3-7 lat, n=23, 48%), zaś w grupie referencyjnej grupa I i II (3-7 lat i 8-13 lat), po 10 pacjentów (36%).

W grupie badanej większość stanowili pacjenci z typem wady odbytniczo-odbytowej związanej z niskim ryzykiem wystąpienia powikłań takich jak zaparcia lub nietrzymanie stolca (n=38, 80%). Najczęstszym typem wady w grupie niskiego ryzyka wystąpienia powikłań była niedrożność odbytu z przetoką krocową (n=14; 29%). W grupie wysokiego ryzyka wystąpienia powikłań najczęstszą wadą była niedrożność odbytu z przetoką pochwową (n=5; 10%).

W grupie badanej u 11 dzieci (23%) zdiagnozowano wadę w budowie kości krzyżowej.

U 32 (67%) dzieci z grupy badanej wystąpiły powikłania, takie jak zaparcia lub nietrzymanie stolca. Nietrzymanie stolca było powikłaniem częściej stwierdzanym (48% pacjentów) niż zaparcia – 19% pacjentów.

W przeprowadzonym badaniu manometrycznym średni poziom ciśnienia spoczynkowego oraz maksymalnego ciśnienia skurczowego był niższy w grupie badanej w porównaniu do tych wartości w grupie referencyjnej. We wszystkich grupach wiekowych u dzieci z grupy badanej zarejestrowane ciśnienia były poniżej wartości uznawanych za normę.

Średnia objętość powietrza gromadzonego w odbytnicy, przy której rejestrowano pojawienia się czucia wypełnienia była wyższa u pacjentów z grupy badanej w porównaniu do tych wartości w grupie referencyjnej.

Nie wykazano istotnej statystycznie korelacji pomiędzy wiekiem przeprowadzenia manometrii odbytniczo-odbytowej 3D w grupie badanej a poziomem zmiennych zależnych takich jak ciśnienie spoczynkowe, skurczowe w kanale odbytu lub obecność czucia wypełnienia.

Wykazano istotną statystycznie korelację pomiędzy typem wady odbytniczo-odbytowej oraz średnim ciśnieniem spoczynkowym jak i maksymalnym ciśnieniem skurczowym ($p < 0,001$ w obu korelacjach). U dzieci zakwalifikowanych do grupy wad odbytniczo-odbytowych o niskim ryzyku wystąpienia powikłań stwierdzono wyższe wartości średniego ciśnienia spoczynkowego i skurczowego w porównaniu do dzieci z grupy o wysokim ryzyku powikłań.

Wykazano istotną statystycznie korelację pomiędzy typem wady odbytniczo-odbytowej a poziomem czucia wypełnienia. U dzieci zakwalifikowanych do grupy wad odbytniczo-odbytowych o niskim ryzyku wystąpienia powikłań stwierdzono obecność czucia wypełnienia przy niższych wartościach wypełnienia odbytnicy w porównaniu do dzieci z grupy o wysokim ryzyku powikłań.

Wykazano korelację pomiędzy obecnością nieprawidłowości w budowie kości krzyżowej a średnim ciśnieniem spoczynkowym jak i maksymalnym ciśnieniem skurczowym ($p < 0,001$ w obu korelacjach). U dzieci z prawidłową budową kości krzyżowej stwierdzono wyższe średnie ciśnienie spoczynkowe i skurczowe w porównaniu do dzieci z nieprawidłowo ukształtowaną kością krzyżową.

Wykazano korelację pomiędzy obecnością nieprawidłowości w budowie kości krzyżowej a czuciem wypełnienia odbytnicy. U dzieci z prawidłową budową kości krzyżowej czucie wypełnienia rejestrowano przy niższych wartościach wypełnienia odbytnicy w porównaniu do dzieci z anomaliami w budowie tej kości.

U dzieci z nietrzymaniem stolca odnotowano niższe wartości ciśnienia spoczynkowego i skurczowego oraz wyższe wartości przy których pojawiało się czucie wypełnienia odbytnicy w porównaniu do grupy dzieci z zaparciami i dzieci bez tych powikłań.

W grupie referencyjnej odsetek stwierdzonej asymetrii obrazie 3D rekonstrukcji kompleksy zwieraczy odbytu był niższy w porównaniu do wartości stwierdzanych w grupie badanej zarówno w spoczynku jak i w skurczu zwieraczy. W grupie badanej tylko u 45% pacjentów zarejestrowano w obrazie 3D rozkład ciśnień odpowiadający czynności mięśnia łonowo-odbytniczego.

Nie stwierdzono związku pomiędzy wiekiem pacjentów, u których przeprowadzono manometrię odbytniczo-odbytową a;

- odsetkiem asymetrii w zarejestrowanym obrazie 3D kompleksu zwieraczy odbytu zarówno podczas spoczynku jak i podczas skurczu.
- zarejestrowanym obrazem odpowiadającym czynności mięśnia łonowo-odbytniczego PRM

Wykazano korelację pomiędzy typem wady odbytniczo-odbytowej uwzględniającą grupę wad o niskim lub wysokim ryzyku wystąpienia powikłań a zarejestrowaną asymetrią w komputerowym obrazie kompleksu zwieraczy odbytu. Dzieci z niskim ryzykiem wystąpienia tych powikłań miały niższy odsetek asymetrii w porównaniu do dzieci z wysokim ryzykiem wystąpienia powikłań, zarówno w spoczynku jak i w skurczu.

Dzieci z prawidłową budową kości krzyżowej stwierdzono mniejszy odsetek asymetrii w obrazie 3D kompleksu zwieraczy odbytu podczas spoczynku i podczas skurczu w porównaniu do dzieci z nieprawidłowo ukształtowaną kością krzyżową. Ponadto u większości dzieci z nieprawidłowo wykształconą kością krzyżową nie zarejestrowano ciśnień odpowiadających czynności mięśnia łonowo-odbytniczego.

Wykazano istotną statystycznie korelację pomiędzy obecnością powikłań takich jak zaparcie lub nietrzymanie stolca a odsetkiem asymetrii w obrazie ciśnień 3D kompleksu zwieraczy odbytu w badaniu manometrycznym u dzieci w grupie badanej podczas spoczynku i podczas skurczu. Ponadto stwierdzono, że u dzieci z nietrzymaniem stolca odsetek asymetrii obrazu był znacznie wyższy w porównaniu do asymetrii obrazu u dzieci z zaparciami i dzieci bez odległych powikłań.

Wnioski

- Manometria odbytniczo-odbytowa wysokiej rozdzielczości 3D jest cennym, nieinwazyjnym, narzędziem pozwalającym na szczegółową ocenę funkcji kompleksu mięśniowego odbytu u dzieci po operacjach wrodzonych wad odbytniczo - odbytowych.
- Nowe techniki zastosowane w manometrii odbytniczo-odbytowej wysokiej rozdzielczości 3D dają możliwość rekonstrukcji komputerowej obrazu poszczególnych mięśni kompleksu zwieraczy odbytu i oceny ich udziału w procesie trzymania stolca.

Jest to szczególnie istotne w przypadku dzieci po operacji wad odbytniczo-odbytowych.

- Niezbędne jest dokładniejsze określenie wartości granicznych dla ciśnienia spoczynkowego i ciśnienia skurczowego w manometrii odbytniczo-odbytowej wysokiej rozdzielczości 3D u dzieci bez zaburzeń dystalnego odcinka przewodu pokarmowego z uwzględnieniem wieku i płci.
- Stwierdzone obniżone ciśnienie spoczynkowe i skurczowe, oraz podwyższony próg pierwszego czucia wypełnienia odbytnicy zarejestrowany w badaniu manometrycznym odbytniczo-odbytowym u dzieci po operacji wady odbytniczo-odbytowej wskazują na znaczną dysfunkcję czynnościową oraz nieprawidłowości w budowie kompleksu zwieraczy odbytu.
- Typ wady odbytniczo-odbytowej, obecność zaburzeń w budowie kości krzyżowej w różnym stopniu wpływa na dysfunkcję neoodbytu u dzieci po operacji wady odbytniczo-odbytowej. Zmiany te mogą być jednym z czynników współdecydujących o niekorzystnym rokowaniu po operacji korygującej wadę.
- Nietrzymanie stolca wydaje się być dominującym odległym powikłaniem u dzieci po operacjach malformacji odbytniczo-odbytowych zarówno w grupie wad o niski, jak i wysokim ryzyku wystąpienia powikłań odległych. Powikłanie to częściej występuje u dzieci z wysokim typem wady obarczonych dużym ryzykiem wystąpienia powikłań odległych.
- Nowe techniki zastosowane w manometrii odbytniczo-odbytowej wysokiej rozdzielczości 3D dają możliwość oceny czynności mięśnia łonowo-odbytniczego - mięśnia odgrywającego istotną rolę w procesach defekacji.
- Wczesna pooperacyjna diagnostyka z wykorzystaniem manometrii wysokiej rozdzielczości 3D ma istotne znaczenie rokownicze, bowiem dając możliwość oceny funkcji wytworzonego neoodbytu umożliwia wdrożenie odpowiedniego leczenia. Prawidłowa defekacja i trzymanie stolca są istotnym czynnikiem wpływającym na jakość codziennego życia naszych pacjentów.