

УДК 616.341-053.31:617.55

О.К. Слепов, М.Ю. Мигур, І.Ю. Гордієнко, О.П. Пономаренко,

О.М. Тарапунова, І.С. Палкіна

Випадок обструкції тонкої кишки рідкісної етіології у новонародженої дитини з гастрошизисом

ДУ «Інститут педіатрії, акушерства і гінекології НАМН України», м. Київ

PAEDIATRIC SURGERY.2017.2(55):27-31; doi 10.15574/PS.2017.55.27

Наявність гастрошизису (ГШ) у плода було діагностовано на пренатальному УЗД в терміні 28 тижнів гестації. Проводилась диспансеризація плода з плановим пренатальним УЗД-моніторингом. Родорозрішення проведено шляхом планового дострокового кесаревого розтину в терміні 36–37 тижнів гестації. З приводу діагностованої вади оперативне лікування проведено через 15 хвилин після народження, згідно з розробленою в нашій клініці тактикою «Хірургія перших хвилин». Під час проведення первинного оперативного втручання виявлено та видалено необлітеровану омфаломезентеріальну судину, яка спричиняла обструкцію тонкої кишки (ОТК). На 14 добу після першої операції дитину було повторно оперовано через наявність часткової кишкової непрохідності. У ході оперативного втручання виявлено наявність функціональної ОТК на місці раніше видаленої омфаломезентеріальної судини. Проведено резекцію 10,0 см здухвинної кишки з ділянкою звуження та створено анастомоз «кінець до кінця». Після проведеного оперативного втручання рецидиву кишкової непрохідності не спостерігалось, досягнуто повного ентерального харчування. Ефект від проведених етапних операцій добрий.

Висновки. Запропонована тактика та стратегія хірургічного лікування ускладненого ГШ, асоційованого з частковою ОТК, була ефективною і може використовуватись у випадках непрохідності здухвинної кишки, спричиненої аберантною омфаломезентеріальною судиною.

Ключові слова: гастрошизис, омфаломезентеріальна судина, компресія тонкої кишки, хірургічне лікування, новонароджена дитина.

A case of small bowel obstruction of a rare etiology in a newborn with gastroschisis

O.K. Slepov, M.Yu. Migur, I.Yu. Gordienko, O.M. Ponomarenko, O.M. Tarapurova, I.S. Palkina

SI «Institute of Pediatrics, Obstetrics and Gynecology of NAMS of Ukraine», Kyiv

Gastroschisis (GS) in a fetus was diagnosed by prenatal ultrasonography (US) at a period of 28 weeks of gestation. Prenatal US follow-up monitoring and examinations were conducted. The delivery was performed by a planned preterm cesarean section at 36-37 weeks of gestation. Surgical treatment of GS was performed in 15 minutes after birth, according to the tactics «Surgery of the first minutes», developed in our clinic. During the primary operative intervention, unobliterated omphalomesenteric vessel caused a small bowel obstruction (SBO) was discovered and removed. On 14th day after the primary operation, the child was reoperated because of the partial intestinal obstruction symptoms. During the reoperation, the functional obstruction of the small intestine in the site of a previously removed omphalomesenteric vessel was revealed. A resection of 10.0 cm of the ileum with a narrowing segment was performed and an anastomosis end-to-end was created. Recurrence of the intestinal obstruction after the surgery was not observed, complete enteral nutrition was achieved. The effect of the performed step operations is good.

Conclusions. Proposed surgical tactics and strategy of complicated GS associated with partial SBO was effective and can be used in cases of ileum obstruction caused by an aberrant omphalomesenteric vessel.

Key words: gastroschisis, omphalomesenteric vessel, compression of small intestine, surgical treatment, infant

Случай обструкции тонкой кишки редкой этиологии у новорожденного ребенка с гастрошизисом

A.K. Slepov, M.Yu. Migur, I.Yu. Gordienko, A.P. Ponomarenko, E.N. Tarapurova, I.S. Palkina

ГУ «Институт педиатрии, акушерства и гинекологии НАМН Украины», г. Киев

Наличие гастрошизиса (ГШ) у плода было диагностировано на пренатальном УЗИ в сроке 28 недель гестации. Проводилась диспансеризация плода с плановым пренатальным УЗИ-мониторингом. Родоразрешение проведено путем планового досрочного кесарева сечения в сроке 36–37 недель гестации. По поводу диагностированного порока оперативное лечение проведено через 15 минут после рождения, согласно разработанной в нашей клинике тактики «Хирургия первых минут». При проведении первичного оперативного вмешательства обнаружен и удален необлитерированный омфаломезентериальный сосуд, который вызывал обструкцию тонкой кишки (ОТК). На 14 сутки после первой операции ре-

Дискусія

бенок был повторно оперирован из-за наличия частичной кишечной непроходимости. В ходе оперативного вмешательства выявлено наличие функциональной обструкции тонкой кишки в месте ранее удаленного омфаломезентериального сосуда. Проведено резекцию 10,0 см подвздошной кишки с участком сужения и создан анастомоз «конец в конец». После проведенного оперативного вмешательства рецидива кишечной непроходимости не наблюдалось, достигнуто полное энтеральное питание. Эффект от проведенных этапных операций хороший.

Выводы. Предложенная тактика и стратегия хирургического лечения осложненного ГШ, ассоциированного с частичной ОТК, была эффективной и может использоваться в случаях непроходимости подвздошной кишки, вызванной аберрантным омфаломезентериальным сосудом.

Ключевые слова: гастрошизис, омфаломезентериальный сосуд, компрессия тонкой кишки, хирургическое лечение, новорожденный ребенок.

Вступ

Гастрошизис (ГШ) – одна з найважчих вад розвитку у новонароджених, що являє собою внутрішньоутробну евентрацію органів черевної порожнини за межі передньої черевної стінки (ПЧС) в амніотичну рідину через наскрізний дефект ПЧС [6,10]. Розрізняють ГШ простий, за якого вада ізольована, і складний, або ускладнений, у випадках наявності асоційованої (их) вади (вад) розвитку або внутрішньоутробно набутої патології [6]. Супутні вади розвитку при ГШ зустрічаються у від 8,7% до 31% [6,10]. Випадки ускладненого ГШ, поєданого з природженими вадами жовткового мішка, є рідкісними, мало описані в літературі та, здебільшого, представлені асоціацією з дивертикулом Меккеля [5,12]. Проведений аналіз літератури не виявив публікацій про випадки поєднання ГШ з обструкцією тонкої кишки (ОТК), обумовленою аномальними необлітерованими судинами жовткового мішка.

Наводимо **клінічний випадок**. Наявність природженої вади розвитку передньої черевної стінки – ГШ було діагностовано на пренатальному УЗД у терміні 28 тижнів гестації у відділенні медицини плода ДУ «Інститут педіатрії, акушерства та гінекології НАМН України». Праворуч від місця виходу пуповини виявлено наскрізний дефект ПЧС розміром до 10 мм у діаметрі. Поряд з ПЧС, в амніотичній рідині, візуалізувався конгломерат евентрованих петель кишечника розмірами 52x31x70 мм. Їх діаметр варіював від 5 до 13 мм, з товщиною кишкової стінки 1,0–1,3 мм. Розміри черевної порожнини становили 53x42x47 мм. Шлунок розмірами 32x10 мм був розташований у черевній порожнині, а його пілорична частина була зміщена в напрямку дефекту. Діагностовано помірну вісцеро-абдомінальну диспропорцію (ВАД) (індекс – 0,93). Багатоводдя не спостерігалось (амніотичний індекс (АІ) – 140). Проводилась диспансеризація плода. На повторному пренатальному ультрасонографічному дослідженні, в терміні 35 тижнів гестації, виявлено збільшення розмірів конгломерату евентрованих органів черевної порожнини до 100x52x50 мм. У просвіті евентрованих петель кишечника був наявний рідкий вміст, їх діаметр варіював від 9,2 мм до 15 мм, а товщина стінок – від 2,5 мм до 3,7 мм. Шлунок розмірами

31x20 мм зміщений у напрямку дефекту. Надалі визначалась помірна вісцеро-абдомінальна диспропорція (індекс – 0,7), а кількість навколоплідних вод відповідала нижній межі норми (АІ – 105).

Хлопчик з ГШ народився в клініці інституту в присутності дитячого хірурга та реаніматолога шляхом планової дострокової операції кесаревого розтину у терміні 36 тижнів гестації з масою тіла 2400 г та оцінкою за шкалою Апгар 6/7 балів від практично здорової матері віком 20 років. Вагітність перебігала без ускладнень. У пологовій залі новонародженому проведено інтубацію трахеї, постановку назогастрального зонда та венозного периферичного катетера. Евентровані петлі тонкої та товстої кишки загорнуто в суху стерильну серветку. Останні були майже не змінені: еластичні, рожевого кольору (рис. 1). Після знеболення, в умовах транспортного кювезу, дитину транспортовано до операційної дитячих клінік Інституту.

Оперативне лікування проведено через 15 хвилин після народження, згідно з розробленою у нашій клініці тактикою «Хірургія перших хвилин» (хірург – проф. О.К. Слепов) [2]. Після проведення ревізії евентрованих органів, у 30,0 см від ілеоцекального кута було виявлено судину до 5 мм у діаметрі, яка виходила з брижі здухвинної кишки, проходила по стінці лівої половини здухвинної кишки та впадала в передню черевну стінку у ділянці правої половини дефекту ПЧС, створюючи обструкцію ШКТ, про що свідчило розширення проксимальної, по відношенню до обструкції, тонкої кишки до 2,0 см у діаметрі та звуження дистальної до 1 см (рис. 2). Поетапно судину мобілізовано від брижі та стінки кишки до ПЧС, перев'язано та відсічено (рис. 3). У місці компресії здухвинної кишки зберігалась нормальна прохідність, про що свідчила наявність перетоку кишкового вмісту в дистальні відділи кишки (рис. 3). Після пластики пупка за методикою клініки [1] проведено відновлення цілісності ПЧС власними тканинами з формуванням мінімальної вентральної киля, через наявність помірної вісцеро-абдомінальної диспропорції, з метою профілактики compartment syndrome.

На другу добу після операції проведено комплексне обстеження дитини: супутніх вад розвитку інших органів та систем не виявлено. У піс-



Рис. 1. Зовнішній вигляд евентрованих органів дитини через 5 хв. після народження



Рис. 2. Компресія здухвинної кишки аномальною омфаломезентеріальною судиною



Рис. 3. Мобілізована аномальна омфаломезентеріальна судина



Рис. 4. Зовнішній вигляд здухвинної кишки у ділянці компресії після резекції аномальної судини



Рис. 5. Оглядова рентгенографія органів черевної порожнини дитини на 12 добу після операції



Рис. 7. Стеноз здухвинної кишки в ділянці компресії

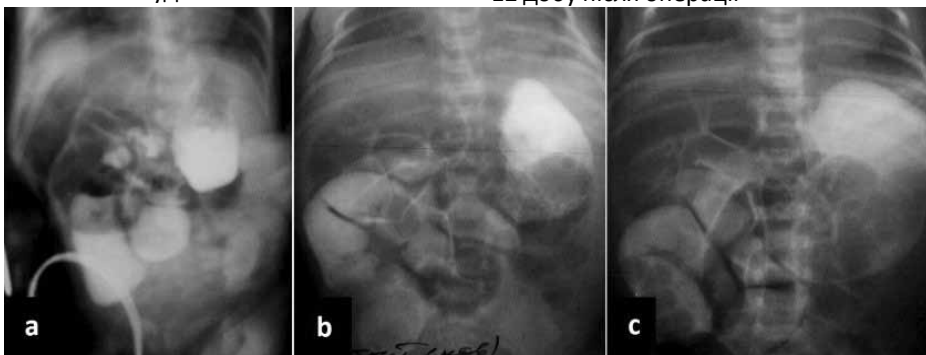


Рис. 6. Пасаж по ШКТ: через 10 хв. після введення контрасту (а), через 30 хв. (b) та 3 год. (с)

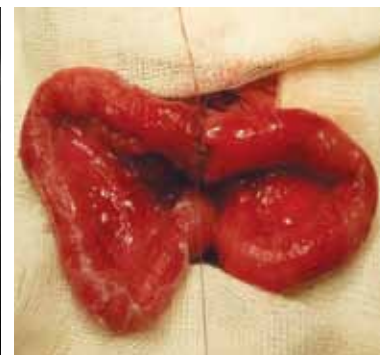


Рис. 8. Анастомоз здухвинної кишки

ляопераційному періоді спостерігались явища часткової кишкової непрохідності: стаз із шлунка темно-зеленого кольору до 30 мл/добу, помірне здуття живота, переважно в епігастральній та мезогастральній ділянках, послаблення перистальтичної активності кишечника, порушення відходження випорожнень (виділявся переважно після очисних клізм, у незначній кількості, темно-зеленого кольору). На оглядовій рентгенографії органів черевної порожнини виявлено зниження пневматизації кишечника в гіпогастральній ділянці та наявність розширених петель тонкої кишки з рівнем рідини в підпечінковій ділянці (рис. 5).

Наявність часткової кишкової непрохідності було підтверджено після проведення пасажу рентгенконтрастної речовини по ШКТ. Виявлено, що контраст вільно евакуюється із шлунка та проходить в тонку кишку (через 10 хв.), заповнює голодну кишку та початкові відділи розширеної здухвинної кишки (через 30 хв.), депонується в ній і не проходить у товсту кишку (через 3 год.).

На 14 добу після першої операції проведено повторне оперативне втручання з приводу кишкової непрохідності (проф. О.К. Слепов). При релапаротомії виявлено стеноз здухвинної кишки в місці пересіченої раніше (на першій операції) аномальної судини (рис. 7).

Дискусія

Проксимальна, по відношенню до стенозу, тонка кишка була розширена до 3,0 см, а дистальна – звужена до 1,0 см. Незважаючи на те, що в місці звуження тонка кишка була прохідною, у фізіологічному стані вона складалась по лінії колишньої судинної компресії, створюючи функціональну непрохідність кишечника. Проведено резекцію 5,0 см привідної та 5,0 см відвідної здухвинної кишки та накладено однорядний ілео-ілеоанастомоз «кінець до кінця» (рис. 8).

Після перенесеної операції дитину екстубовано на другу добу, а з третьої доби розпочато поїння. З четвертої доби відмічено появу активної перистальтики, проте стаз зі шлунка спостерігався ще протягом восьми діб. Самостійні випорожнення відмічено на 10 добу після операції. З восьмої доби розпочато часткове ентеральне годування. Повне ентеральне годування введено з 16 доби після операції. Загоєння післяопераційної рани первинне. На 39 добу від народження, у задовільному стані, дитину було виписано додому. Ефект від проведених операцій добрий.

Дискусія

Кишкова непрохідність при ускладненому ГШ у більшості випадків спричинюється атрезією чи стенозом кишечника [6,10,12]. Порівняно з простим, ускладнений ГШ має вищі ризики тривалої неможливості ентерального харчування, розвитку резистентного сепсису та смертності [11,13]. Аналіз літератури не виявив публікацій про випадки розвитку непрохідності тонкої кишки, спричиненої аберантною необлітерованою судиною жовткового мішка при ГШ.

Жовтковий мішок формується в періоді плацентарції на 15–16 добу ембріонального розвитку. Він містить запас необхідних для розвитку плоду поживних речовин, виконує функції печінки та селезінки до початку функціонування власних органів плоду, а також бере участь в обмінних процесах та формуванні імунітету. Наприкінці першого триместру вагітності спостерігається завершення формування плода та перехід на плацентарний тип кровообігу. У цьому періоді жовтковий мішок перестає брати участь у розвитку ембріона та редукується, перетворюючись на пупковий міхурець (*vesicula umbilicalis*), який зв'язується із середньою кишкою плода через вузький пупково-кишковий протік. У мезодермі жовткового мішка та пупково-кишкового (омфаломезентеріального) протоку закладаються пупково-брижові судини — *vasa omphalomesenterica* (*vitellina*). Вони є рудиментарними і повністю зникають після завершення редукції пупково-кишкового протоку [7].

У літературі описані різноманітні мальформації омфаломезентеріального протоку у дітей. Серед них:

повна нориця пупка, фунгус пупка, умбілікальні грижі, дивертикул Меккеля, залишкові кісти та фіброзні тяжі, які поєднують пупок з дистальною частиною здухвинної кишки [8]. Вади омфаломезентеріального протоку можуть перебігати безсимптомно або мати асоційовані клінічні прояви при розвитку фекальних фістул пупка, інвагінації або пролапсу здухвинної кишки через пупкове кільце, непрохідності кишечника різного генезу, мелени та анемії, абдомінального больового синдрому, запалення тощо [8].

На відміну від широко описаних мальформацій омфаломезентеріального протоку, в літературі майже відсутні дані щодо вад, спричинених аберантними жовтковими артеріями у дітей. Нами було знайдено один описаний випадок кишкової непрохідності у 11-річної дівчинки, яка була спричинена аномальними судинами жовткового мішка [9]. Часткова непрохідність здухвинної кишки, викликана аберантними мезентеріальними судинами, більш широко описана у дорослих і може зустрічатись в будь-якому віці життя [3,4,14]. Незважаючи на вік, клінічна картина захворювання в усіх випадках подібна. Як у дитячому віці, так і у дорослому, клінічні прояви починаються з виникнення синдрому хронічного абдомінального болю з/без епізодів здуття живота та порушення відходження газів. Біль супроводжується нудотою, інколи блювотою, зневодненням та швидкою втомлюваністю [3,4,9,14]. Комп'ютерна томографія та рентгенологічні методи обстеження часто є малоінформативними [3,4,9,14]. Діагноз переважно встановлюється під час проведення оперативного лікування з приводу рецидивних епізодів часткової чи гострої кишкової непрохідності, підозри на хворобу Крона або діагностичної лапароскопії при обстеженні з приводу синдрому хронічного абдомінального болю [3,4,9,14].

Під час проведення оперативного лікування виявляють тяж, який містить у собі судини, починається з брижі дистального відділу здухвинної кишки (типового місця розташування дивертикула Меккеля), переходить на кишкову стінку, прямуючи до її протибрижового краю, де закінчується або, в деяких випадках, кріпиться до передньої черевної стінки в ділянці пупка [3,4,9,14]. У місці перетину кишки формується звуження та виникає функціональна обструкція при завороті або перегині кишки навколо аберантної судини під час проходження перистальтичної хвилі. Після спонтанної деторсії кишки або застосування клізм відновлюється нормальна прохідність кишки, чим і пояснюється рецидивний перебіг захворювання. Обструкція посилюється описаними властивостями необлітерованої судини, яка є щільною та мало піддається тяжінню і не росте пропо-

рційно росту кишки, фіксуючи тим самим стінку здухвинної кишки та звужуючи її просвіт [9]. Після проведеного гістологічного дослідження нами не було знайдено характерних для стенозу змін здухвинної кишки в місці звуження. Незважаючи на це, ізольоване видалення аберантної судини на первинній операції не призвело до одужання, чого було досягнуто лише після проведення сегментарної резекції тонкої кишки та створення анастомозу здухвинної кишки, як і у знайденому нами клінічному випадку [9]. В усіх описаних випадках діагноз було точно встановлено шляхом проведення лапароскопічної ревізії органів черевної порожнини [3,4,9,14].

В описаному нами випадку діагноз було встановлено одразу при народженні дитини через наявність ГШ і можливості виявлення омфаломезентеріальної судини під час проведення первинного оперативного втручання. Проте знання щодо такої рідкісної етіології часткової непрохідності тонкої кишки може бути корисним за наявності синдрому хронічного абдомінального болю або ознак часткової кишкової непрохідності у дітей, котрі не мали абдомінальних оперативних втручань в анамнезі.

Наведений нами клінічний випадок, у зв'язку з надзвичайною рідкістю, має велику наукову та практичну цінність для клініцистів різних спеціальностей – дитячих хірургів, неонатологів, генетиків, акушерів-гінекологів та інших.

Висновки

Однією з рідкісних причин часткової кишкової непрохідності в будь-якому віці життя людини можуть бути необлітеровані судини жовткового мішка. Запропонована тактика та стратегія хірургічного лікування є ефективною і може бути застосована у випадках розвитку непрохідності тонкої кишки, спричиненої аберантною омфаломезентеріальною судиною при ГШ.

Відомості про авторів

Слепов Олексій Костянтинович – д.мед.н., проф., засл. лікар України, керівник відділення хірургічної корекції природжених вад розвитку у дітей ДУ «ІПАГ НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. (044) 483-62-28.

Мігур Михайло Юрійович – лікар-хірург дитячий, м.н.с. відділення хірургічної корекції природжених вад розвитку у дітей ДУ «ІПАГ НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. (044) 484-18-71.

Гордиєнко Ірина Юрійвна – д.мед.н., проф., керівник відділення медицини плода ДУ «ІПАГ НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8.

Понамаренко Олексій Петрович – к.мед.н., відділення хірургічної корекції природжених вад розвитку у дітей, завідувач відділення торако-абдомінальної хірургії ДУ «ІПАГ НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8; тел. (044) 483-62-28.

Тарапурова Олена Миколіївна – к.мед.н., пров.н.с. відділення медицини плода ДУ «ІПАГ НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8.

Палкіна Ірина Сергіївна – к.мед.н., лікар-ендоскопіст відділення хірургічної корекції природжених вад розвитку у дітей ДУ «ІПАГ НАМН України». Адреса: м. Київ, вул. П. Майбороди, 8.

Стаття надійшла до редакції 6.03.2017 р.

Література

1. Пат. 77788 Україна, МПК А61В 17/00. Спосіб пластики пупкового кільця при гастрошизисі у новонароджених / Слепов О.К.; заявник та власник патенту ДУ «ІПАГ НАМН України». – №201210316; заявл. 31.08.2012; опубл. 25.02.2013, Бюл.№ 4
2. Слепов О.К. Результати «хірургії перших хвилин» при лікуванні гастрошизису / О.К. Слепов, Н.І. Грасюкова, В.Л. Весельський // Перинатологія та педіатрія. – 2014. – №4. – С.18–23.
3. Congenital band of the vitelline artery remnant as a cause of chronic lower abdominal pain in an adult: Case report / Omer Jalil, Rami Radwan, Ashraf Rasheed [et al.] // Int. J. Surg. Case Rep. – 2012. – №3(6). – P.207–208.
4. Frank W. Prust, M.D. Vitelline artery causing small bowel obstruction in an adult / Frank W. Prust, M.D., Joseph Aboutatme, M.D. // Surgery. – 1969. – №65, Issue 4. – P.716–720.
5. Gastroschisis and associated defects: an international study / Mastroiacovo P, Lisi A., Castilla E.E. [et al.] // Am. J. Med. Genet A. – 2007. – Apr 1; 143A(7). – P.660–71.
6. Kronfli R. Intestinal atresia in association with gastroschisis: a 26-year review / R. Kronfli, T.J. Bradnock, A. Sabharwa // Pediatr. Surg. Int. – 2010. – №26. – P.891–894.
7. Kurt Benirschke. Pathology of the Human Placenta: Second edition / Kurt Benirschke, Peter Kaufmann. – New York: Springer Science & Business Media, 1990. – P.180–192.
8. Moore T.C. Omphalomesenteric duct malformations / T.C. Moore // Semin Pediatr Surg. 1996. – №5(2). – P.116–23.
9. Natasha Hansraj. Anomalous mesenteric vessel – a rare etiology of intermittent partial small bowel obstruction / Natasha Hansraj, Shannon M. Larabee, Kimberly M. Lumpkins // Journal of Surgical Case Reports. – 2016. – №12. – P.1–3.
10. Omphalocele and gastroschisis and associated malformations / Stoll C., Alembik Y., Dott B., Roth M.P. // Am. J. Med. Genet A. – 2008. – №15;146A(10). – P.1280–5.
11. Outcomes in neonates with gastroschisis in US children's hospitals / Lao O.B., Larison C., Garrison M.M. [et al.] // Am. J. Perinatol. – 2010. – №27. – P.97–101.
12. Robert S. The management of gastroschisis / Robert S. Hollabaugh, E. Thomas Boles Jr. // J. of Ped Surg. – 1973. – Vol.8, Issue 2. – P.263–270.
13. The contemporary outcome of gastroschisis / Driver C.P., Bruce J., Bianchi A. [et al.] // J. Pediatr Surg. – 2000. – №35. – P.1719–1723.
14. Vitelline artery remnant causing intestinal obstruction in an adult / Aikaterini T. Michopoulou MD, Stylianos S. Germanos MD, Anestis P. Ninos MD [et al.] // Surgery. – 2013. – №154, Issue 5. – P.1137–1138.