



УСПЕШНОЕ ПРИМЕНЕНИЕ ТОРАКОСКОПИЧЕСКОЙ ВНУТРИГРУДНОЙ ТРАКЦИОННОЙ ЭЛОНГАЦИИ ПИЩЕВОДА С ПОСЛЕДУЮЩИМ ОТСРОЧЕННЫМ АНАСТОМОЗОМ И ЛАПАРОСКОПИЧЕСКОЙ ОПЕРАЦИИ ЛЕДДА У НОВОРОЖДЕННОГО С МНОЖЕСТВЕННЫМИ ПОРОКАМИ РАЗВИТИЯ

Тюменский государственный медицинский университет ¹,
Областная клиническая больница № 2 ², г. Тюмень,
Российская Федерация

Атрезия пищевода – порок развития, встречающийся с частотой 1:2500-1:3000 новорожденных. Нарушение дуоденальной проходимости обнаруживается у 1:7000-10000 новорожденных. Сочетание атрезии пищевода и дуоденальной непроходимости встречается не чаще чем в 1-6% от всех случаев атрезии пищевода. Публикация посвящена вопросам выбора тактики лечения новорожденного с редким сочетанием пороков развития желудочно-кишечного тракта: атрезии пищевода с бесвишневой формой типа А (классификация R. Gross) и непроходимостью двенадцатиперстной кишки, вызванной нарушением ротации и фиксации кишечника. Показана вариабельность хирургических подходов и продемонстрирована методика торакоскопической внутригрудной тракционной элонгации пищевода, позволившая через 10 дней торакоскопически сформировать эзофаго-эзофагоанастомоз и сохранить ребенку собственный пищевод. Уникальность случая заключается в том, что одновременно с первичной операцией на пищеводе была проведена лапароскопия, направленная на ликвидацию заворота средней кишки, который вызывал высокую кишечную непроходимость. Пассажи по желудочно-кишечному тракту полностью восстановился через 14 дней после второго этапа пластики пищевода. В дальнейшем в месте пищевоанастомоза отмечался стеноз, разрешенный бужированием пищевода, проводимым по струне-проводнику под контролем эзофагоскопии. Выбранный эндоскопический подход коррекции сочетанных пороков развития желудочно-кишечного тракта позволил сохранить ребенку свой пищевод и в удовлетворительном состоянии выписать на амбулаторное наблюдение.

Ключевые слова: атрезия пищевода, непроходимость двенадцатиперстной кишки, синдром Ледда, незавершенный поворот кишечника, торакоскопия, лапароскопия, пороки развития, анастомоз, внутренняя тракция, непреодолимый диастаз

Esophageal atresia is a malformation with an incidence of 1: 2500-1: 3000 newborns. Duodenal obstruction occurs in 1: 7000-10000 neonates. The combination of congenital esophageal atresia and duodenal obstruction is less frequent than 1-6% of all cases of esophageal atresia. The article is devoted to the choice of treatment tactics of a neonate with a rare combination of gastrointestinal malformations: esophageal without associated tracheoesophageal fistula atresia of type A (R. Gross classification) and duodenal obstruction caused by a violation of intestinal rotation and fixation. The variability of surgical approaches is shown and the technique of intrathoracic thoracoscopic tractional elongation of the esophagus is demonstrated, which allowed performing esophago-esophagoanastomosis in 10 days thoracoscopically and preserve the child's esophagus. The uniqueness of the case is that laparoscopy was performed simultaneously with the primary esophageal surgery, aimed at eliminating the midgut volvulus which caused high intestinal obstruction. Gastrointestinal passage was fully restored 14 days after the second stage of esophageal plastic surgery. Subsequently, stenosis was recorded in the place of esophageal anastomosis, resolved by esophageal bougienage conducted by string-guide under esophagoscopy control. The chosen endoscopic treatment of the correction of combined malformations of the gastrointestinal tract allowed saving the child's esophagus and discharging him to out-patient observation in a satisfactory condition.

Keywords: esophageal atresia, duodenal obstruction, Ledd's syndrome, intestinal malrotation, thoracoscopy, laparoscopy, malformations, anastomosis, internal traction, long-gap

Novosti Khirurgii. 2022 Mar-Apr; Vol 30 (2): 264-269

The articles published under CC BY NC-ND license

Successful use of Intrathoracic Thoracoscopic Traction Elongation of the Esophagus
Followed by Delayed Anastomosis and Laparoscopic Ledd's Operation
in a Neonate with Multiple Malformations



M.A. Akselrov, S.N. Suprunets, T.V. Sergienko, D.I. Sudareva, A.V. Tanzybaev, V.A. Emelyanova

Введение

Атрезия пищевода встречается с частотой 1:2500-1:3000 новорожденных [1]. Часто атрезия пищевода сочетается с другими пороками развития, а в 6-10% случаев наблюдается в сочетании с хромосомными болезнями [2]. Неонатальная хирургия достигла хороших результатов в оперативном лечении данного порока развития, а современные методы лечения и выхаживания обуславливают высокую выживаемость детей [3]. Реконструкция пищевода с большим диастазом (более 3 см по данным некоторых авторов) представляет сложность для оперирующего хирурга, отличается большой частотой осложнений и ранней несостоятельностью анастомоза [4]. На данный момент есть несколько методик пластики пищевода с большим диастазом, что показывает желание хирургов найти оптимальный метод коррекции данного порока. Одна из них – торакоскопическая тракционная элонгация пищевода без гастростомии, предпочтение которой отдают все больше неонатальных хирургов [5]. Нарушение дуоденальной проходимости обнаруживается у 1:7000-10000 новорожденных и чаще всего представлено кольцевидной поджелудочной железой и аномалиями ротации и фиксации средней кишки. Сочетание атрезии пищевода и дуоденальной непроходимости встречается не чаще чем в 1-6% от всех случаев атрезии пищевода [6].

Приводимое нами клиническое наблюдение атрезии пищевода с непреодолимым диастазом, в сочетании с синдромом Ледда, корригированных эндоскопически может представлять для хирургов практический интерес.

Цель. Показать возможность применения торако- и лапароскопии у новорожденного с множественными пороками развития, один из которых – атрезия пищевода с непреодолимым при первичном вмешательстве диастазом, другой – высокая кишечная непроходимость, обусловленная нарушением ротации и фиксации кишечника.

Клинический случай

Мальчик родился путем кесарева сечения от 7 беременности, 5 родов. Настоящая беременность протекала на фоне дисциркуляторной энцефалопатии, никотинозависимости. Диагноз «атрезия пищевода» был заподозрен на внутриутробном скрининге (21 неделя беременности); так, во время исследования выявили многоводие, не визуализировался желудок, отмечалось периодическое расши-

рение и опустошение проксимального отдела пищевода.

Состояние с рождения было тяжелым, обусловлено угнетением ЦНС. Отмечено беспокойство ребенка, срыгивание, обильное пенисто-слизистое отделяемое изо рта. Постановка гастрального зонда была безуспешной, проба Элефанта – положительной. С целью профилактики аспирационного синдрома ребенок был переведен на ИВЛ. По данным рентгенографии с контрастом, контраст определялся в культе пищевода, газонаполнение в кишечнике отсутствовало (рис. 1).

После предоперационной подготовки, с диагнозом «атрезия пищевода типа А» (классификация R. Gross) ребенок был взят в операционную. Выполнена торакоскопия справа. На расстоянии не более 0,5 см над диафрагмой был обнаружен слепо заканчивающийся нижний сегмент пищевода, который максимально выделен из окружающих тканей. Верхний сегмент пищевода отделен от трахеи и также выделен, насколько это было возможно. После всех манипуляций, при сближении сегментов пищевода диастаз составлял не менее 3 см, что не позволяло сформировать первичный анастомоз. Было выполнено сближение орального и аборального концов путем наложения элонгирующего шва при максимальной тракции с целью внутригрудного вытяжения тканей пищевода (рис. 2).

Рис. 1. Рентгенография органов грудной клетки до операции.



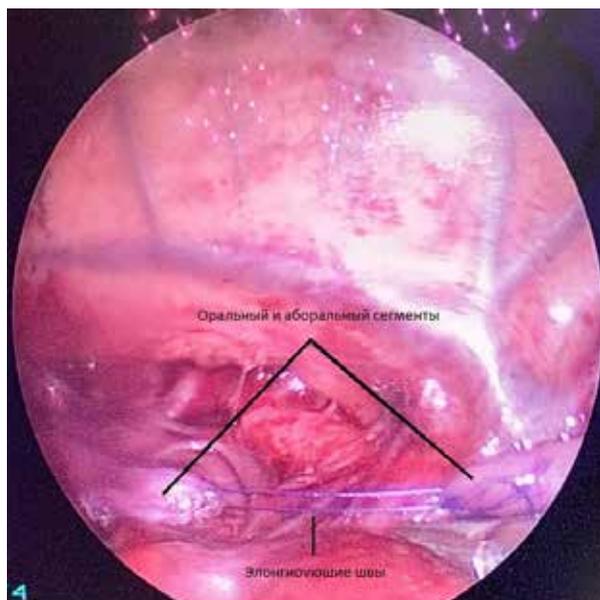


Рис. 2. Наложение элонгирующих швов.

С целью раннего начала энтерального кормления было решено наложить энтеростому для питания. Выполнена лапароскопия. При ревизии выявлено: в области печеночно-двенадцатиперстной связки – стекловидный отек. Двенадцатиперстная кишка (ДПК) завернута под печенью и деформирована эмбриональными тяжами. Средняя кишка в завороте на 320 градусов вокруг эмбриональной спайки – спайка рассечена, кишка деротирована – жизнеспособна. Купол слепой кишки фиксирован к печени и ДПК. Выполнено пересечение спаек, после чего купол слепой кишки переместился в левое подреберье. В результате вся тонкая кишка стала располагаться в правых, а толстая – в левых отделах брюшной полости. На расстоянии около 20 см от ДПК тонкая кишка вскрыта, и в ее просвет введен катетер 6 Fg для проведения кормления. Кишка фиксирована к брюшной стенке.

Послеоперационный период протекал на фоне медикаментозной седации для предотвращения отрыва тракционных швов и разрыва сегментов пищевода. Через 10 дней выполнена реторакоскопия, на которой после разделения спаек обнаружено, что сегменты пищевода с натяжением соединяются. На проведенном в желудок зонде 6 Fg сформирован эзофаго-эзофагоанастомоз «конец в конец». Послеоперационный период протекал без осложнений. На 8-е сутки после анастомозирования проведено контрастирование пищевода и после подтверждения состоятельности швов удалена энтеростома. Пассаж по желудочно-кишечному тракту полностью восстановился через 14 дней после второго этапа пластики пищевода.

В дальнейшем в месте пищевоного анастомоза отмечался стеноз, разрешенный бужированием пищевода, которое проводили по струне под контролем эзофагоскопии. Ребенок был выписан на амбулаторное лечение в удовлетворительном состоянии (полное энтеральное питание без явлений дисфагии, удовлетворительная прибавка массы тела).

Обсуждение

Выбор метода хирургического лечения атрезии пищевода с непреодолимым диастазом – сложный вопрос, возникающий перед оперирующим хирургом. Наиболее приемлемое решение – сохранение собственных тканей пищевода. В литературе описано несколько методов, при помощи которых решается данная задача. Первый – формирование отсроченного анастомоза в ожидании самостоятельного роста пищевода в течение 4-8 недель [4]. Второй – наложение тракционных нитей на оральный и аборальный сегменты пищевода, что усиливает рост тканей [7]. Оба метода подразумевают наложение гастростомы для осуществления энтерального питания. В нашем стационаре при коррекции непреодолимого диастаза между сегментами пищевода с 2008 г. применяется техника удлинения сегментов с отсроченным анастомозом, разработанная J.E. Foker [8]. Поскольку у данного метода лечения риски возникновения инфекционных осложнений из-за контакта тракционных нитей с окружающей средой увеличиваются, в данном наблюдении применена торакоскопическая внутригрудная тракционная элонгация, при использовании которой на концы пищевода накладываются внутривисцеральные швы, сближающие сегменты с максимальным натяжением. Отсутствие фиксации натяжных нитей к грудной стенке исключает возможность инфицирования и прорезывания швов при их подтягивании. С ростом пищевода сила натяжения нитей уменьшается, но несмотря на данный минус, при методе внутренней тракции предотвращается разрыв пищеводных сегментов [9].

Комбинация атрезии пищевода с мальротацией кишечника – редкая патология [10]. Если нижний сегмент пищевода соединяется с трахеобронхиальным деревом, непроходимость двенадцатиперстной кишки можно диагностировать при ультразвуковом сканировании или рентгенографически [11]. В нашем наблюдении синдром Ледда был операционной находкой во время лапароскопии, выполненной для наложения питательной энтеростомы.

Данный подход в лечении пациента с сочетанием беззвещевой формы атрезии пищевода типа А (классификация R. Gross) и синдрома Ледда позволил выполнить коррекцию пороков эндоскопически. Ребенок спустя 24 дня от момента рождения получал питание через свой, сохраненный пищевод и полностью усваивал физиологическую потребность.

Авторы отдают себе отчет, что для окончательного суждения о выборе хирургической тактики операции при такой комбинации пороков развития, для оценки эффективности требуется накопление опыта и проведение мультицентровых исследований с большим количеством пациентов.

Заключение

Приведенный клинический пример показывает возможность одновременной торакоскопической внутригрудной тракционной элонгации пищевода и лапароскопической коррекции незавершенного поворота кишечника с отсроченной торакоскопической пластикой пищевода и может рассматриваться как альтернативная стратегия при сочетании беззвещевой формы атрезии пищевода и непроходимости двенадцатиперстной кишки.

Финансирование

Работа выполнялась в соответствии с планом научных исследований Тюменского государственного медицинского университета. Финансовой поддержки со стороны компаний-производителей лекарственных препаратов и изделий медицинского назначения авторы не получали.

Источник финансирования: не указан.

Конфликт интересов

Авторы заявляют, что конфликт интересов отсутствует.

Одобрение комитета по этике

Исследование одобрено этическим комитетом Тюменского государственного медицинского университета.

Согласие

Родители пациента дали согласие на публикацию сообщения и размещение в интернете информации о характере заболевания, проведенного лечения и его результатах с научными и образовательными целями.

ЛИТЕРАТУРА

1. Harris J, Kallen B, Robert E. Descriptive epidemiology of alimentary tract atresia. *Teratology*. 1995;52:15–29. <https://doi.org/10.1002/tera.1420520104>
2. van Bokhoven H, Celli J, van Reeuwijk J, Rinne T, Glaudemans B, van Beusekom E, Rieu P, Newbury-Ecob RA, Chiang C, Brunner HG. MYCN haploinsufficiency is associated with reduced brain size and intestinal atresias in Feingold syndrome. *Nat Genet*. 2005;37(5):465–67. <https://doi.org/10.1038/ng1546>
3. Мухаметшин РФ, Торопов НВ, Кабдрахманова ОТ. Атрезия пищевода: прогнозирование исходов и возможные пути снижения летальности. *Рос Вестн Дет Хирургии, Анестезиологии и Реаниматологии*. 2020;10(3):315–26. <https://doi.org/10.17816/psaic572>
4. Ханвердиев РА, Разумовский АЮ. Сравнительный обзор методов пластики пищевода у детей с атрезией пищевода. *Дет Хирургия*. 2012;(2):47–50. <https://cyberleninka.ru/article/n/sravnitelnyy-obzor-metodov-plastiki-pischevoda-u-detey-s-atreziey-pischevoda>
5. Козлов ЮА, Распутин АА, Барадиева ПА, Очиров ЧБ, Черемнов ВС. Этапное торакоскопическое лечение атрезии пищевода с большим диастазом без использования гастростомии. *Рос Вестн Дет Хирургии, Анестезиологии и Реаниматологии*. 2019;9(4):43–49 doi: 10.30946/2219-4061-2019-9-4-43-49
6. Cao ZP, Li QF, Liu SQ, Niu JH, Zhao JR, Chen YJ, Wang DY, Li XS. Surgical management of newborns with combined tracheoesophageal fistula, esophageal atresia, and duodenal obstruction. *Chin Med J (Engl)*. 2019 Mar 20;132(6):726–30. doi: 10.1097/CM9.000000000000102
7. Rothenberg SS, Flake AW. Experience with thoracoscopic repair of long gap esophageal atresia in neonates. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2015 Nov;25(11):932–35. doi: 10.1089/lap.2015.0124
8. Аксельров МА, Емельянова ВА, Минаев СВ, Супрунец СН, Сергиенко ТВ, Карлова МН, Киселева НВ, Столяр АВ. Успешное применение торакоскопии (этонгация по Фокеру и формирование отсроченного анастомоза) у ребенка с множественными пороками развития, один из которых атрезия пищевода с непреодолимым диастазом. *Мед Вестн Север Кавказа*. 2017;12(2):138–41. <https://doi.org/10.14300/mnnc.2017.12039>
9. Tainaka T, Uchida H, Tanano A, Shiota C, Hinoki A, Murase N, Yokota K, Oshima K, Shiotsuki R, Chiba K, Amano H, Kawashima H, Tanaka Y. Two-Stage Thoracoscopic repair of long-gap esophageal atresia using internal traction is safe and feasible. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2017 Jan;27(1):71–75. doi: 10.1089/lap.2016.0207
10. Hayden CK Jr, Schwartz MZ, Davis M, Swischuk LE. Combined esophageal and duodenal atresia: sonographic findings. *AJR Am J Roentgenol*. 1983 Feb;140(2):225–26. doi: 10.2214/ajr.140.2.225

REFERENCES

1. Harris J, Kallen B, Robert E. Descriptive epidemiology of alimentary tract atresia. *Teratology*. 1995;52:15–29. <https://doi.org/10.1002/tera.1420520104>

2. van Bokhoven H, Celli J, van Reeuwijk J, Rinne T, Glaudemans B, van Beusekom E, Rieu P, Newbury-Ecob RA, Chiang C, Brunner HG. MYCN haploinsufficiency is associated with reduced brain size and intestinal atresias in Feingold syndrome. *Nat Genet.* 2005;37(5):465-467. <https://doi.org/10.1038/ng1546>
3. Mukhametshin RF, Toropov NV, Kabdrakhmanova O.T. Esophageal atresia: predicting outcomes and decreasing mortality. *Ros Vestn Det Khirurgii Anesteziologii i Reanimatologii.* 2020;10(3):315-26. <http://doi.org/10.17816/psaic572> (In Russ.)
4. Hanverdiev RA, Razumovskii Aiu. Sravnitel'nyi obzor metodov plastiki pishchevoda u detei s atreziei pishchevoda. *Det Khirurgiia.* 2012;2(2):47-50 <http://cyberlinka.ru> (In Russ.)
5. Kozlov YA, Rasputin AA, Baradieva PJh, Ochirov CB, Cheremnov VS. Staged thoracoscopic treatment of long-gap esophageal atresia without the need for a gastrostomy. *Ros Vestn Det Khirurgii Anesteziologii i Reanimatologii.* 2019;9(4):43-49. doi: 10.30946/2219-4061-2019-9-4-43-49 (In Russ.)
6. Cao ZP, Li QF, Liu SQ, Niu JH, Zhao JR, Chen YJ, Wang DY, Li XS. Surgical management of newborns with combined tracheoesophageal fistula, esophageal atresia, and duodenal obstruction. *Chin*

Адрес для корреспонденции

625039, Российская Федерация,
г. Тюмень, ул. Мельникайте, д. 75, корп. 2,
Областная клиническая больница № 2,
отделение анестезиологии, реанимации
и интенсивной терапии,
тел.: +7 912 997 01 82,
e-mail: novostruevadaniela@gmail.com,
Сударева Даниэла Игоревна

Сведения об авторах

Аксельров Михаил Александрович, д.м.н., заведующий кафедрой детской хирургии, Тюменский государственный медицинский университет, заведующий хирургическим отделением № 1, Областная клиническая больница № 2, г. Тюмень, Российская Федерация.
<https://orcid.org/0000-0001-6814-8894>
Супрунец Светлана Николаевна, к.м.н., доцент кафедры детских болезней Тюменский государственный медицинский университет, заведующая отделением анестезиологии, реанимации и интенсивной терапии новорожденных, Областная клиническая больница № 2, г. Тюмень, Российская Федерация.
<https://orcid.org/0000-0001-8579-1857>
Сергиенко Татьяна Владимировна, врач-детский хирург, Областная клиническая больница № 2, г. Тюмень, Российская Федерация.
<https://orcid.org/0000-0003-3338-1260>
Сударева Даниэла Игоревна, врач-неонатолог отделения анестезиологии, реанимации и интенсивной терапии новорожденных, Областная клиническая больница № 2, г. Тюмень, Российская Федерация.
<https://orcid.org/0000-0001-5956-0385>
Танзыбаев Антон Владимирович, врач-анестезиолог, отделение анестезиологии, реанимации и интенсивной терапии новорожденных, Областная клиническая больница № 2, г. Тюмень, Российская Федерация.

- Med J (Engl).* 2019 Mar 20;132(6):726-30. doi: 10.1097/CM9.000000000000102
7. Rothenberg SS, Flake AW. Experience with thoracoscopic repair of long gap esophageal atresia in neonates. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2015 Nov;25(11):932-35. doi: 10.1089/lap.2015.0124
8. Aksel'rov M, Emel'janova V, Minaev S, Suprunec S, Sergienko T, Kiseleva N, Karlova M, Stolyar A. Successful application toracoscopy (elongation by Focker and formation deferred anastomosis) in a child with multiple malformations, including esophageal atresia with irresistible diastase. *Med Vestn Sever Kavkaza.* 2017;12(2):138-41 <http://doi.org/10.14300/mnnc.2017.12039> (In Russ.)
9. Tainaka T, Uchida H, Tanano A, Shiota C, Hinoki A, Murase N, Yokota K, Oshima K, Shiotsuki R, Chiba K, Amano H, Kawashima H, Tanaka Y. Two-Stage Thoracoscopic repair of long-gap esophageal atresia using internal traction is safe and feasible. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2017 Jan;27(1):71-75. doi: 10.1089/lap.2016.0207
10. Hayden CK Jr, Schwartz MZ, Davis M, Swischuk LE. Combined esophageal and duodenal atresia: sonographic findings. *AJR Am J Roentgenol.* 1983 Feb;140(2):225-26. doi: 10.2214/ajr.140.2.225

Address for correspondence

625039, Russian Federation,
Tyumen, st. Melnikayte, 75 bldg. 2,
Regional Clinical Hospital No. 2,
Department of Anesthesiology,
Resuscitation and Intensive Care,
Tel. +7 912 997 01 82,
e-mail: novostruevadaniela@gmail.com,
Sudareva Daniela I.

Information about the authors

Akselrov Mikhail A., MD, Head of the Department of Pediatric Surgery, Tyumen State Medical University, Head of the Surgical Department No. 1, Regional Clinical Hospital No. 2, Tyumen, Russian Federation.
<https://orcid.org/0000-0001-6814-8894>
Suprunets Svetlana N., PhD, Associate Professor of the Department of Children's Diseases, Tyumen State Medical University, Head of the Department of Anesthesiology, Resuscitation and Intensive Care of Newborns, Regional Clinical Hospital No. 2, Tyumen, Russian Federation.
<https://orcid.org/0000-0001-8579-1857>
Sergienko Tatyana V., Pediatric Surgeon, Regional Clinical Hospital No. 2, Tyumen, Russian Federation.
<https://orcid.org/0000-0003-3338-1260>
Sudareva Daniela I., Neonatologist, Department of Anesthesiology, Resuscitation and Intensive Care of Newborns, Regional Clinical Hospital No. 2, Tyumen, Russian Federation.
<https://orcid.org/0000-0001-5956-0385>
Tanzybaev Anton V., Anesthesiologist, Department of Anesthesiology, Resuscitation and Intensive Care of Newborns, Regional Clinical Hospital No. 2, Tyumen, Russian Federation.
<https://orcid.org/0000-0003-1320-2798>
Emelyanova Victoria Alexandrovna, Head of the Medical Care Service for Children Regional Clinical Hospital No. 2, Assistant of the Department of Pediatric

<https://orcid.org/0000-0003-1320-2798>

Емельянова Виктория Александровна, руководитель службы оказания медицинской помощи детям, Областная клиническая больница № 2, ассистент кафедры детской хирургии, Тюменский государственный медицинский университет, г. Тюмень, Российская Федерация.

<https://orcid.org/0000-0002-9857-9174>

Surgery, Tyumen State Medical University, Tyumen, Russian Federation.

<https://orcid.org/0000-0002-9857-9174>

Информация о статье

Поступила 3 августа 2021 г.

Принята в печать 14 января 2022 г.

Доступна на сайте 28 июня 2022 г.

Article history

Arrived: 3 August 2021

Accepted for publication: 14 January 2022

Available online: 28 June 2022