



## ПАТОЛОГИЧЕСКАЯ ФИЗИОЛОГИЯ АНОРЕКТАЛЬНЫХ ПОРОКОВ БЕЗ ВИДИМЫХ СВИЩЕЙ. ОБЗОР ЛИТЕРАТУРЫ

ГУ «Республиканский научно-практический центр детской хирургии»<sup>1</sup>,

г. Минск, Республика Беларусь,

Дорот. Государственный Гериатрический Центр<sup>2</sup>, Нетания, Израиль,

УО «Белорусский государственный медицинский университет»<sup>3</sup>, г. Минск, Республика Беларусь

**Резюме.** До 1982 года детские хирурги пришли к единому мнению, что у пациентов с аноректальными мальформациями (АРМ) кишечника, расположенный каудальнее лобково-копчиковой линии, является анальным каналом и для достижения наилучшего функционального результата его необходимо сохранять. Одновременно с публикацией задней сагиттальной аноректопластики было заявлено, что, за исключением больных с атрезией прямой кишки и анальным стенозом, больные с АРМ рождаются без анального канала. Тот участок кишки, который расположен каудальнее лобково-копчиковой линии, стали называть ректальным мешком или свищем, который рекомендовали удалять, так как считали, что он плохо функционирует.

**Цель.** Проанализировать литературные источники для определения анатомии и физиологии АРМ без видимых свищей.

**Материал и метод.** Мы проанализировали 32 статьи, в том числе 4 наших собственных исследования, которые отражают всю палитру представлений о патологической анатомии и физиологии АРМ без видимого свища (мальчики и девочки без свища и мальчики с уретральным свищем).

**Результаты.** При гистологическом исследовании так называемого свища определяются внутренний анальный сфинктер и слизистая, характерная для анального канала. При манометрическом исследовании определяются нормальное базальное давление и ректоанальный тормозной рефлекс. При радиологических исследованиях у большинства пациентов в покое дистальная кишка постоянно находится в сокращенном состоянии и широко раскрывается при высоком давлении в прямой кишке, что характерно для нормально функционирующего анального канала.

**Заключение.** Этот обзор литературы доказывает, что у большинства пациентов с АРМ без видимого свища имеется функционирующий анальный канал, сохранение которого может обеспечить нормальную аноректальную функцию.

*Ключевые слова:* аноректальные пороки развития; аноректальная физиология; патофизиология аноректум; уретральный свищ; без свища

**Objective.** Until 1982, pediatric surgeons came to the consensus that in patients with anorectal malformations (ARM), the intestine located caudal to the pubococcygeal line is the anal canal and must be preserved to achieve the best functional result. Simultaneously with the publication of the posterior sagittal anorectoplasty, it was stated that most patients with ARM do not have anal canal. The part of the intestine that is located caudal to the pubococcygeal line began to be called the rectal sac or fistula, which was recommended to be removed, since it was believed that it was not functioning well. Analysis of the literature to determine the anatomy and physiology of ARM without visible fistulas.

**Methods.** The authors analyzed 32 articles, including 4 of own studies, which reflect the entire palette of ideas about the pathological anatomy and physiology of ARM without visible fistula (boys and girls without fistula, and boys with urethral fistula).

**Results.** During histological examination of the so-called fistula, the internal anal sphincter and the mucous membrane characteristic of the anal canal are determined. In a manometric study, the normal basal pressure and the rectoanal inhibitory reflex are determined. In radiological studies, in most patients at rest, the distal colon is constantly in a contracted state and opens wide at high pressure in the rectum, which is characteristic of a normally functioning anal canal.

**Conclusion** This literature review suggests that most ARM patients without visible fistula have a functioning anal canal that must be preserved to support normal anorectal function.

*Keywords:* anorectal malformations; anorectal physiology; pathophysiology anorectum; urethral fistula; without fistula

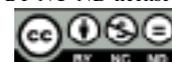
Novosti Khirurgii. 2022 May-Jun; Vol 30 (3): 298-305

The articles published under CC BY NC-ND license

Pathological Physiology of Anorectal Malformations (ARM) Without Visible Fistulas.

Literature Review

M.D. Levin, V.I. Averin, Yu.G. Degtyarev



Научная новизна статьи

В настоящее время во время коррекции аноректальных пороков дистальная часть кишечника длиной от 2 до

4 см полностью удаляется, так как она считается свищем. Анализ литературы и собственные исследования показывают, что это функционирующий анальный канал, разрушение которого приводит к безвозвратной потере функций удержания кала и дефекации. Показано, что сохранение всех элементов анального канала приводит к резкому улучшению послеоперационных результатов.

#### **What this paper adds**

Currently, during the correction of anorectal defects, the distal part of the intestine with a length of 2 to 4 cm is completely removed since it is considered a fistula. Analysis of the literature and our own research show that this is a functioning anal canal, the destruction of which leads to an irreversible loss of the functions of retaining feces and defecation. It has been shown that the preservation of all elements of the anal canal leads to a sharp improvement in postoperative results.

#### **Введение**

В 1953 году Стивенс (Stevens) предложил концепцию лобково-копчиковой (Л-К) линии, которая проходит от нижней границы лобковой кости до последнего копчикового позвонка. Он показал, что эта линия соответствует расположению пуборектальной мышцы (ПРМ), которая играет большую роль в удержании стула. Если слепой конец кишечника расположен выше этой линии, эти случаи считаются высоким типом АРМ, а если каудальнее этой линии – низким типом [1]. Такое понимание патологической физиологии АРМ было отражено в классификации Wingspread (1984). С тех пор считалось, что, если кишечник расположен ниже линии Л-К, это означает, что у пациента есть анальный канал, который необходимо сохранить во время операции [2].

На протяжении многих лет для диагностики уровня АРМ использовали инвертограмму. В последнее время этот метод не используется, так как общая чувствительность инвертограмм при обнаружении низких пороков составляет 33,3%, а специфичность – 66,7% [3,4,5]. Низкая надежность этого метода связана с ошибочными представлениями о физиологии аноректальной зоны. Предполагалось, что газ в прямой кишке поднимается и задерживается в слепо заканчивающейся кишке. Однако, во-первых, содержимое кишечника перемещается только перистальтической волной. Во-вторых, газ не может пройти в закрытый анальный канал, если ректальное давление ниже порогового уровня. На рентгенограммах новорожденных часто бывает сложно определить костные ориентиры для проведения лобно-копчиковой линии. Cremen с соавт. показали, что эта линия проходит между каудальной и средней третьей грушевидной формы седалищной кости [6].

В 2005 году была принята классификация Krickenbeck, которая представляет собой перечень основных типов АРМ без разделения на высокие и низкие типы [2]. Основная идея, предложенная Пенья и принятая сообществом детских хирургов, заключается в том, что при АРМ анальный канал отсутствует, а ректальный мешок или свищ настолько отличается от

прямой кишки, что не может быть использован для коррекции дефекта [5]. Ни статьи Пенья, ни другие научные источники не предоставляют убедительных доказательств этого утверждения. Более того, это противоречит всем исследованиям предыдущих поколений. Поскольку все пациенты без видимого свища априори не имеют анального канала, исследования по определению уровня аномалии потеряли всякий смысл.

**Целью** обзора является изучение научных исследований патологической анатомии и физиологии АРМ без видимых свищей.

#### **Материал и методы**

Мы проанализировали 32 статьи, в том числе 4 наших собственных исследования, которые отражают всю палитру представлений о патологической анатомии и физиологии АРМ без видимого свища (девочки и мальчики без свища и мальчики с уретральным свищем). Из анализа исключены статьи, результаты которых противоречат известным законам физиологии пищеварительной системы.

#### **Гистологические исследования АРМ**

В исследовании Holschneider с соавторами было показано, что у пациентов с АРМ «классический аганглиоз был обнаружен в 31% образцов из ректального кармана, гипоганглиоз – в 38%, нейрональная кишечная дисплазия типа В – в 14%, и дисганглиоз – в 10%». По мнению авторов, «... рекомендация использовать дистальный ректальный мешок и части свища при реконструкции аноректальных пороков развития должна быть пересмотрена» [7]. Эти гистологические результаты были подтверждены другими исследователями, которые считали, что гистологическая структура анального канала должна соответствовать структуре прямой кишки [8, 9].

Аламович с соавторами (цитата по Дюамелю) исследовал иннервацию нормального внутреннего анального сфинктера (ВАС). Это исследование показывает, что сам по себе ВАС не имеет автономной иннервации в отличие от

остальной части пищеварительной трубки [10]. Lambrecht и Lierse у новорожденных свиней с АРМ обнаружили, что проксимальная область свищей при АРМ имеет характеристики нормального анального канала. Они считают, что свищ следует обозначать как эктопический анальный канал. Наиболее важным результатом была демонстрация нормального внутреннего сфинктера даже при высоких и средних типах АРМ [11]. Это противоречие можно объяснить только тем, что типы АРМ, которые считались высокими, на самом деле были низкими, т. е. имели анальный канал. Таким образом, гистологическое исследование дистального сегмента кишечника, который называется свищем, или ректальным мешком, имеет характеристики анального канала.

### Манометрическое исследование

У 5 детей с аноректальными пороками развития (высокий тип 2, средний тип 3) предоперационное манометрическое исследование ректального конца было выполнено с датчиком, введенным из дистальной колостомы. Это исследование показало наличие ритмической активности у всех и снижение положительного рефлексивного давления при растяжении прямой кишки у 4, т. е. тормозного ректоанального рефлекса [12], наличие которого является характеристикой функционирующего анального канала. У всех детей с промежностными и вестибулярными свищами, когда проводилось манометрическое исследование, были обнаружено нормальное базальное давление и поло-

жительный тормозной ректоанальный рефлекс [13, 14, 15, 16, 17].

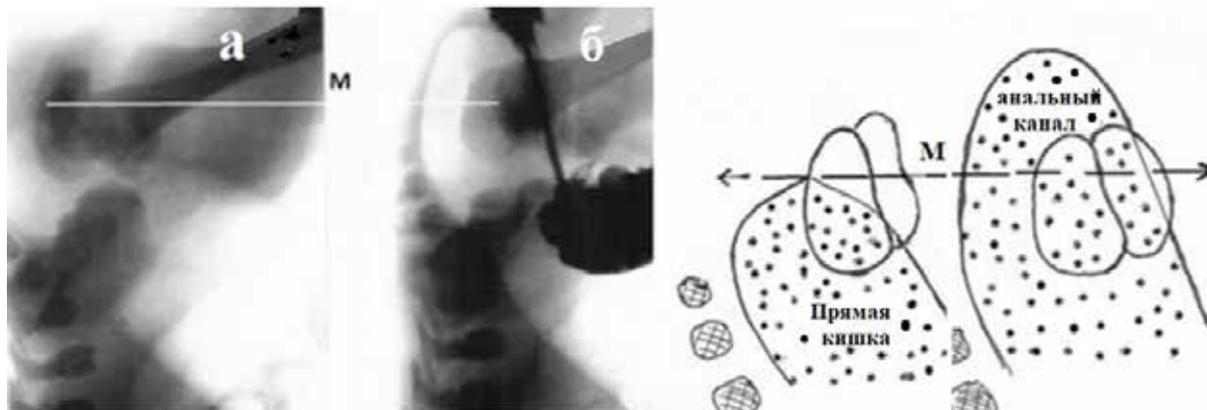
Таким образом, манометрические исследования доказывают наличие функционирующего анального канала каудальнее лобково-копчиковой линии.

### Рентгенологическое исследование

В первые часы жизни новорожденного ректальное давление ниже порогового уровня. Поэтому анальный канал находится в сомкнутом состоянии, а меконий с газом находится в прямой кишке. Только через 30 часов после рождения в прямой кишке собирается достаточный объем газа и мекония, чтобы создать давление, открывающее анальный канал. Например, Hosokawa с соавторами при ультразвуковом исследовании обнаружили, что расстояние «мешочек-промежность» на следующий день было значительно короче, чем в день рождения ( $P = 0,001$ ) [18]. Это объясняется тем, что на следующий день после рождения в прямую кишку прибывает дополнительное количество газа, в результате чего у некоторых новорожденных во время исследования анальный канал открывается и газ приближается к анальной ямке. Поэтому среднестатистическое расстояние от кишки до анальной ямки достоверно уменьшается. На рисунке 1 можно увидеть важность исследования.

Рефлекторное открытие анального канала занимает несколько секунд. Затем прямая кишка, адаптируясь к увеличенному объему содержимого, расслабляется, что приводит к

Рис. 1. Рентгенограммы новорожденного с АРМ без видимого свища. (а) Инвертограмма была сделана через 12 часов после рождения. Дистальный контур прямой кишки расположен на горизонтальной линии (М) между средней и дистальной третью седалищной кости, имеющей типичную грушевидную форму. По данным Sgemin и соавторов, эта линия соответствует лобково-копчиковой линии [6] (см. схему). (б) Через 30 часов после рождения произошло ошибочное введение контрастного вещества в ткань промежности (вместо прямой кишки). Анальный канал открылся, и газ виден близко к коже промежности. Ширина прямой кишки заметно больше, чем на рисунке 1а. Линия «М» нанесена, потому что других костных ориентиров на рентгенограммах нет. Таким образом, через 12 часов после рождения рентгенограмма соответствовала промежуточному типу АРМ (это нормальное положение прямой кишки над сокращенным анальным каналом), а через 30 часов при напряжении живота, как реакция на боль, анальный канал открылся, что говорит о низком типе АРМ.

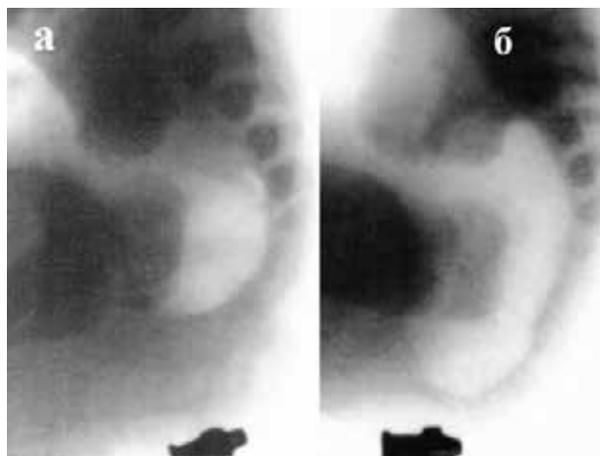


падению ректального давления. Это вызывает рефлекторное сокращение анального канала и вытеснение газа из анального канала в прямую кишку. В процессе увеличения объема ректального содержимого эта ситуация повторяется несколько раз [19]. Поэтому рентгенография даже через 30 часов после рождения не гарантирует, что на рентгенограмме будет зафиксировано открытие анального канала. Компрессия живота увеличивает ректальное давление и вызывает открытие анального канала во время рентгеноскопии [14] (рис. 2).

Приближение газа к промежности у беспоконного новорожденного — известное явление. В литературе это ошибочно объясняется опусканием промежности при повышении внутрибрюшного давления. Считается ошибкой оценивать уровень АРМ по нисходящей промежности, так как в спокойном состоянии промежность возвращается на место [5, 19]. Как известно из физиологии, при повышении внутрибрюшного давления мышцы тазового дна не опускаются, а поднимаются [20]. Некоторые авторы называют это явление «хорошо опущенной прямой кишкой» [21], игнорируя тот факт, что прямая кишка закреплена в тканях таза и не может двигаться. В статье Nagdeve с соавторами у 11 из 12 пациентов с уретральными свищами (7 бульбарных, 4 простатических) нижняя граница ректального газового пузыря была на уровне или ниже окостеневшего пятого крестцового позвонка [21].

Считается, что точный уровень АРМ определяется во время операции. Однако во время операции под наркозом ректальное давление

**Рис. 2.** Рентгенограммы новорожденного с АРМ без свища, выполненные в горизонтальном положении больного. К анальной ямочке приклеен рентгено-контрастный маркер. (а). В покое расстояние между прямой кишкой и маркером равно 1.5 см. (б) При компрессии живота, в результате раскрытия анального канала, газ приблизился к контрастной метке. Расстояние между маркером и кишкой равно 2 мм. Это толщина кожи и подкожной клетчатки.



снижается, поэтому анальный канал всегда находится в сомкнутом состоянии. Сомкнутый внутренний анальный сфинктер как в норме, так и при низкой АРМ представляет собой канал, который выглядит как свищ. Когда с соавторами предложили метод измерения уретрального свища во время операции для удаления его без остатка [22]. Фактически они под видом свища удаляли внутренний анальный сфинктер. Однако «внутренний анальный сфинктер в настоящее время считается важным фактором, влияющим на функцию удержания» [23]. Таким образом, то, что в литературе обычно называют хорошо опущенной прямой кишкой, является раскрытием анального канала. Эта картина не отличается от открытия анального канала во время дефекации у здоровых младенцев [19]. Отсюда следует, что у пациентов с бульбарными и простатическими свищами уретры, а также у пациентов без свищей имеется анальный канал. Невозможность открыть анальный канал через 30 часов после рождения во время компрессии живота указывает на возможность высокой АРМ.

#### Дистальная колостограмма с повышенным давлением

Kraus с соавторами в статье, посвященной дистальной колостограмме с повышенным давлением у мальчиков с АРМ, заявляют: « в этом отношении чрезвычайно важно понимать, что нижняя часть прямой кишки (АРМ без видимых свищей) обычно спавшаяся из-за мышечного тонуса воронкообразных поперечнополосатых мышц, окружающих прямую кишку, в 90% случаев » [24]. Между тем из анатомии известно, что вокруг прямой кишки нет мышц. Мышцы тазового дна окружают анальный канал. В результате их координированного сокращения осуществляется и задержка кала, и дефекация. Фактически утверждение этих авторов доказывает, что по крайней мере 90% мальчиков без видимого свища имеют функционирующий анальный канал.

Дистальная колостограмма с повышенным давлением характеризуется высоким неконтролируемым гидродинамическим давлением, которое значительно превышает пороговое давление открытия анального канала во время дефекации. В отличие от рефлекторного открытия, которое обычно длится менее минуты, это давление приводит к механическому постоянному открытию анального канала. Серьезным недостатком этого метода является опасность перфорации сигмовидной кишки. Поэтому большинство авторов используют дистальную колостограмму

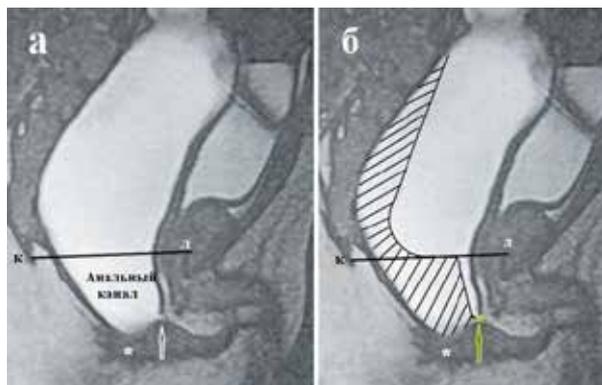
без высокого давления [25,26,27,28]. Однако только дистальная колостограмма с повышенным давлением при рентгенографии или с использованием КТ или МРТ показывает наличие анального канала (рис. 3). Флюороскопия с компрессией живота, в отличие от дистальной колостограммы с повышенным давлением, совершенно безопасна и высоко информативна, но может применяться только у новорожденных до создания колостомы.

### Заключение

Гистологические, манометрические и радиологические исследования показывают, что у большинства пациентов с АРМ без видимых свищей имеется анальный канал. Это означает, что у них есть ВАС, чувствительный к ректальному давлению и расположенный каудально по отношению к ПРМ. В ответ на давление в прямой кишке происходит временное расслабление ВАС (ректоанальный тормозной рефлекс) и сокращение ПРМ, а также глубокой и поверхностной частей наружного анального сфинктера. Более высокое ректальное давление стимулирует рефлекс дефекации с широким открытием анального канала, что позволяет диагностировать низкий тип АРМ.

Большинство рентгенограмм, срезов КТ и МРТ в опубликованных статьях были выполнены при низком ректальном давлении. Поэтому анальный канал находился в сокращенном состоянии, то есть выполнял функцию задержки кала. При высоком давлении в прямой кишке анальный канал открывается, позволяя ректальному содержимому выйти (рефлекс дефекации), что отражает нормальную функцию поднимаю-

**Рис. 3. (а).** МРТ во время дистальной колостограммы с повышенным давлением у мальчика с ректо-бульбарным свищем (стрелка). Дистальнее лобково-копчиковой линии (л-к) виден широко открытый анальный канал. Его слепой конец находится на расстоянии  $\approx 2-4$  мм от предполагаемого места анальной ямки (звездочка). **(б).** Схема реконструкции МРТ при низком ректальном давлении. Анальный канал сократился. **Заключение:** эктопия анального канала в бульбарную часть уретры.



щих пластин (levator ani) [14]. Дистальная колостограмма с повышенным давлением позволяет точно определить уровень дефекта, но из-за опасности перфорации врачи предпочитают не повышать ректальное давление, что резко снижает достоверность исследования. Во время операции под наркозом давление в прямой кишке снижается, что приводит к закрытию (сокращению) анального канала, который выглядит как узкий и длинный канал, принимаемый за свищ. Поэтому утверждение о том, что оперативные данные позволяют правильно определить тип АРМ, является ошибочным.

Gans с соавторами показали, что почти во всех случаях ВАС куда-то проникает, но не всегда функционирует, так как свищевое отверстие либо слишком узкое, либо представлено фиброзным канатиком [29]. Анализ литературы и наши собственные наблюдения показывают, что, если сегмент кишечника виден ниже лобково-копчиковой линии, то есть ВАС проник каудально к ПРМ, это означает, что он всегда достигает подкожно-жирового слоя напротив анальной ямки. Это подтверждается исследованиями дистальной колостограммы с повышенным давлением [23, 30, 31].

Чем шире полость, в которую впадает эктопический анальный канал, тем шире эктопическое отверстие. Поэтому вестибулярный свищ функционирует всегда и проявляется отхождением кала из преддверия влагалища. Диаметр уретры у новорожденных составляет около 1 мм [32]. Окружность уретры 3 мм. Свищ занимает только заднюю стенку. Причем он представлен узким и жестким кольцом. Поэтому у многих мальчиков свищи уретры не функционируют. Если к 30 часам жизни у новорожденного нет следов мекония в моче, а при сжатии живота газ попадает в анальный канал и не исчезает, а кишечник не уменьшается в объеме, этот случай следует рассматривать как АРМ без свища.

Этот обзор литературы доказывает, что у большинства пациентов с АРМ без видимого свища имеется функционирующий анальный канал, сохранение которого может обеспечить нормальную аноректальную функцию.

### Авторы не получали финансовой поддержки

Работа выполнялась в соответствии с планом научных исследований Белорусского государственного медицинского университета, г. Минск, Республика Беларусь.

### Конфликт интересов

Конфликт интересов отсутствует.

## ЛИТЕРАТУРА

1. Stephens FD. Imperforate rectum; a new surgical technique. *Med J Aust.* 1953 Feb 7;1(6):202-3.
2. Holschneider A, Hutson J, Peña A, Beket E, Chatterjee S, Coran A, Davies M, Georgeson K, Grosfeld J, Gupta D, Iwai N, Kluth D, Martucciello G, Moore S, Rintala R, Smith ED, Sripathi DV, Stephens D, Sen S, Ure B, Grasshoff S, Boemers T, Murphy F, Söylet Y, Dübbers M, Kunst M. Preliminary report on the International Conference for the Development of Standards for the Treatment of Anorectal Malformations. *J Pediatr Surg.* 2005 Oct;40(10):1521-26. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2005.08.002
3. Carroll AG, Kavanagh RG, Ni Leidhin C, Cullinan NM, Lavelle LP, Malone DE. Comparative Effectiveness of Imaging Modalities for the Diagnosis of Intestinal Obstruction in Neonates and Infants: A Critically Appraised Topic. *Acad Radiol.* 2016 May;23(5):559-68. doi: 10.1016/j.acra.2015.12.014
4. Horsirimanont S, Sangkhathat S, Utamakul P, Chetphaopan J, Patrapinyokul S. An appraisal of invertograms and distal colostograms in the management of anorectal malformations. *J Med Assoc Thai.* 2004 May;87(5):497-502.
5. Levitt MA, Peña A. Anorectal malformations. *Orphanet J Rare Dis.* 2007 Jul 26;2:33. doi: 10.1186/1750-1172-2-33
6. Cremin RJ, Cywes S, Louw JH. A rational radiological approach to the surgical correction of anorectal anomalies. *Surgery.* 1972 Jun;71(6):801-6.
7. Holschneider AM, Ure BM, Pfrommer W, Meier-Ruge W. Innervation patterns of the rectal pouch and fistula in anorectal malformations: a preliminary report. *J Pediatr Surg.* 1996 Mar;31(3):357-62. doi: 10.1016/s0022-3468(96)90738-1
8. Gangopadhyay AN, Upadhyaya VD, Gupta DK, Agarwal DK, Sharma SP, Arya NC. Histology of the terminal end of the distal rectal pouch and fistula region in anorectal malformations. *Asian J Surg.* 2008 Oct;31(4):211-15. doi: 10.1016/S1015-9584(08)60089-5
9. Xiao H, Huang R, Cui DX, Xiao P, Diao M, Li L. Histopathologic and immunohistochemical findings in congenital anorectal malformations. *Medicine (Baltimore).* 2018 Aug;97(31):e11675. doi: 10.1097/MD.00000000000011675
10. Duhamel B. Physio-pathology of the internal anal sphincter. *Arch Dis Child.* 1969 Jun;44(235):377-81. doi: 10.1136/adc.44.235.377
11. Lambrecht W, Lierse W. The internal sphincter in anorectal malformations: morphologic investigations in neonatal pigs. *J Pediatr Surg.* 1987 Dec;22(12):1160-68. doi: 10.1016/s0022-3468(87)80728-5
12. Ohama K, Asano S, Nanbu K, Kajimoto T. The internal anal sphincter in anorectal malformation. *Z Kinderchir.* 1990 Jun;45(3):167-77. doi: 10.1055/s-2008-1042575
13. Мишарев ОС, Левин МД, Никифоров АН, и др. Теоретическое обоснование хирургической тактики при атрезии прямой кишки со свищами на промежность или преддверие влагалища у детей. *Вестн. Хирургии.* 1983;130(4):92-97.
14. Левин МД. Патологическая физиология аноректальных пороков, от новой концепции к новому лечению. *Эксперим и Клин Гастроэнтерология.* 2013;(11):38-48.
15. Левин МД, Дегтярев ЮГ, Аверин ВИ, Абу-Варда ИФ, Болбас ТМ. Стандартизация рентгенологического исследования толстой кишки и аноректальной зоны. *Новости Хирургии.* 2013;21(4):90-98. <http://dx.doi.org/10.18484/2305-0047.2013.4.90>
16. Левин МД, Аверин ВИ, Никифоров АН, Абу-Варда ИФ, Дегтярев ЮГ. Обоснование хирургической тактики у новорожденных с врожденными аноректальными аномалиями без видимого свища. *Хирургия. Восточная Европа.* 2013;(3):19-35.
17. Rutenstock EM, Zani A, Huber-Zeyringer A, Höllwarth ME. Pre- and postoperative rectal manometric assessment of patients with anorectal malformations: should we preserve the fistula? *Dis Colon Rectum.* 2013 Apr;56(4):499-504. doi: 10.1097/DCR.0b013e31826e4a38
18. Hosokawa T, Yamada Y, Sato Y, Tanami Y, Tanaka Y, Kawashima H, Oguma E. Changes in the Distance Between the Distal Rectal Pouch and Perineum From the Birth Day to the Next Day in Neonates With an Imperforate Anus. *J Ultrasound Med.* 2017 Mar;36(3):601-606. doi: 10.7863/ultra
19. Levin MD. Anatomy and physiology of anorectum: the hypothesis of fecal retention, and defecation. *Pelvi-perineology.* 2021;40(1):50-57. doi: 10.34057/PPj.2021.40.01.008
20. Nagdeve NG, Bhingare PD, Naik HR. Neonatal posterior sagittal anorectoplasty for a subset of males with high anorectal malformations. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2011 Oct;16(4):126-28. doi: 10.4103/0971-9261.86863
21. Bharucha AE. Pelvic floor: anatomy and function. *Neurogastroenterol Motil.* 2006 Jul;18(7):507-19. doi: 10.1111/j.1365-2982.2006.00803.x
22. Koga H, Kato Y, Shimotakahara A, Miyano G, Lane GJ, Okazaki T, Yamataka A. Intraoperative measurement of rectourethral fistula: prevention of incomplete excision in male patients with high-/intermediate-type imperforate anus. *J Pediatr Surg.* 2010 Feb;45(2):397-400. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2009.10.085
23. Zbar AP, Khaikin M. Should we care about the internal anal sphincter? *Dis Colon Rectum.* 2012 Jan;55(1):105-8. doi: 10.1097/DCR.0b013e318235b645
24. Kraus SJ, Levitt MA, Peña A. Augmented-pressure distal colostogram: the most important diagnostic tool for planning definitive surgical repair of anorectal malformations in boys. *Pediatr Radiol.* 2018 Feb;48(2):258-69. doi: 10.1007/s00247-017-3962-2
25. Madhusmita, Ghasi RG, Mittal MK, Bagga D. Anorectal malformations: Role of MRI in preoperative evaluation. *Indian J Radiol Imaging.* 2018 Apr-Jun;28(2):187-94. doi: 10.4103/ijri.IJRI\_113\_1
26. Zhan Y, Wang J, Guo WL. Comparative effectiveness of imaging modalities for preoperative assessment of anorectal malformation in the pediatric population. *J Pediatr Surg.* 2019 Dec;54(12):2550-53. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2019.08.037
27. Midrio P, van Rooij IALM, Brisighelli G, Garcia A, Fanjul M, Broens P, Iacobelli BD, Giné C, Lisi G, Sloots CEJ, Fascetti Leon F, Morandi A, van der Steeg H, Giuliani S, Grasshoff-Derr S, Lacher M, de Blaauw I, Jenetzky E. Inter- and Intraobserver Variation in the Assessment of Preoperative Colostograms in Male Anorectal Malformations: An ARM-Net Consortium Survey. *Front Pediatr.* 2020 Sep 18;8:571. doi: 10.3389/fped.2020.00571. eCollection 2020.
28. Tang ST, Cao GQ, Mao YZ, Wang Y, Li SW, Yang Y, Tong QS. Clinical value of pelvic 3-dimensional

- magnetic resonance image reconstruction in anorectal malformations. *J Pediatr Surg.* 2009 Dec;44(12):2369-74. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2009.07.074
29. Gans SL, Friedman NB, David JS. Congenital anorectal anomalies: changing concepts in management. *Clin Pediatr (Phila).* 1963 Nov;2:605-13. doi: 10.1177/000992286300201105
30. Fatahi Bandpey ML, Moreno Flores A, Palacios Moya P. Augmented-pressure colostogram in the radiological assessment of anorectal malformations. *Cir Pediatr.* 2014 Apr 15;27(2):62-67.
31. Wang C, Lin J, Lim K. The use of augmented-pressure colostography in imperforate anus. *Pediatr Surg Int.* 1997 Jul;12(5-6):383-85. doi: 10.1007/BF01076945
32. Kakizaki H, Moriya K, Ameda K, Shibata T, Tanaka H, Koyanagi T. Diameter of the external urethral sphincter as a predictor of detrusor-sphincter incoordination in children: comparative study of voiding cystourethrography. *J Urol.* 2003 Feb;169(2):655-58. doi: 10.1097/01.ju.0000040664.33499.ba

### REFERENCES

- Stephens FD. Imperforate rectum; a new surgical technique. *Med J Aust.* 1953 Feb 7;1(6):202-3.
- Holschneider A, Hutson J, Peña A, Beket E, Chatterjee S, Coran A, Davies M, Georgeson K, Grosfeld J, Gupta D, Iwai N, Kluth D, Martucciello G, Moore S, Rintala R, Smith ED, Sripathi DV, Stephens D, Sen S, Ure B, Grasshoff S, Boemers T, Murphy F, Söylet Y, Dübbers M, Kunst M. Preliminary report on the International Conference for the Development of Standards for the Treatment of Anorectal Malformations. *J Pediatr Surg.* 2005 Oct;40(10):1521-26. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2005.08.002
- Carroll AG, Kavanagh RG, Ni Leidhin C, Cullinan NM, Lavelle LP, Malone DE. Comparative Effectiveness of Imaging Modalities for the Diagnosis of Intestinal Obstruction in Neonates and Infants: A Critically Appraised Topic. *Acad Radiol.* 2016 May;23(5):559-68. doi: 10.1016/j.acra.2015.12.014
- Horsirimanont S, Sangkhathat S, Utamakul P, Chetphaopan J, Patrapinyokul S. An appraisal of invertograms and distal colostograms in the management of anorectal malformations. *J Med Assoc Thai.* 2004 May;87(5):497-502.
- Levitt MA, Peña A. Anorectal malformations. *Orphanet J Rare Dis.* 2007 Jul 26;2:33. doi: 10.1186/1750-1172-2-33
- Cremin RJ, Cywes S, Louw JH. A rational radiological approach to the surgical correction of anorectal anomalies. *Surgery.* 1972 Jun;71(6):801-6.
- Holschneider AM, Ure BM, Pfrommer W, Meier-Ruge W. Innervation patterns of the rectal pouch and fistula in anorectal malformations: a preliminary report. *J Pediatr Surg.* 1996 Mar;31(3):357-62. doi: 10.1016/s0022-3468(96)90738-1
- Gangopadhyay AN, Upadhyaya VD, Gupta DK, Agarwal DK, Sharma SP, Arya NC. Histology of the terminal end of the distal rectal pouch and fistula region in anorectal malformations. *Asian J Surg.* 2008 Oct;31(4):211-15. doi: 10.1016/S1015-9584(08)60089-5
- Xiao H, Huang R, Cui DX, Xiao P, Diao M, Li L. Histopathologic and immunohistochemical findings in congenital anorectal malformations. *Medicine (Baltimore).* 2018 Aug;97(31):e11675. doi: 10.1097/MD.00000000000011675
- Duhamel B. Physio-pathology of the internal anal sphincter. *Arch Dis Child.* 1969 Jun;44(235):377-81. doi: 10.1136/adc.44.235.377
- Lambrecht W, Lierse W. The internal sphincter in anorectal malformations: morphologic investigations in neonatal pigs. *J Pediatr Surg.* 1987 Dec;22(12):1160-68. doi: 10.1016/s0022-3468(87)80728-5
- Ohama K, Asano S, Nanbu K, Kajimoto T. The internal anal sphincter in anorectal malformation. *Z Kinderchir.* 1990 Jun;45(3):167-77. doi: 10.1055/s-2008-1042575
- Misharev OS, Levin MD, Nikiforov AN. Teoreticheskoe obosnovanie khirurgicheskoi taktiki pri atrezii priamoi kishki so svishchami na promezhnost' ili preddverie vlagalishcha u detei. *Vestn. Khirurgii.* 1983;130(4):92-97.
- Levin MD. Pathological physiology of the anorectal defects, from the new concept to the new treatment. *Eksp Klin Gastroenterol.* 2013; (11): 38-48.
- Levin MD, Degtyarov IG, Averin VI, Abu-Varda QF, Degtyarov IG. The standardization of X-rays study of the colon and anorectal area. *Novosti Khirurgii.* 2013;21(4): 90-8.
- Levin MD, Averin VI, Nikiforov AN, Abu-Varda QF, Degtyarov IG. Substantiation of surgical tactics in newborns with anorectal malformations without visible fistula. *Khirurgia. Vostochnaya Evropa.* 2013;3(07): 12-35.
- Ruttenstock EM, Zani A, Huber-Zeyringer A, Höllwarth ME. Pre- and postoperative rectal manometric assessment of patients with anorectal malformations: should we preserve the fistula? *Dis Colon Rectum.* 2013 Apr;56(4):499-504. doi: 10.1097/DCR.0b013e31826e4a38
- Hosokawa T, Yamada Y, Sato Y, Tanami Y, Tanaka Y, Kawashima H, Oguma E. Changes in the Distance Between the Distal Rectal Pouch and Perineum From the Birth Day to the Next Day in Neonates With an Imperforate Anus. *J Ultrasound Med.* 2017 Mar;36(3):601-606. doi: 10.7863/ultra
- Levin MD. Anatomy and physiology of anorectum: the hypothesis of fecal retention, and defecation. *Pelvi-perineology.* 2021;40(1):50-57. doi: 10.34057/PPj.2021.40.01.008
- Nagdeve NG, Bhingare PD, Naik HR. Neonatal posterior sagittal anorectoplasty for a subset of males with high anorectal malformations. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2011 Oct;16(4):126-28. doi: 10.4103/0971-9261.86863
- Bharucha AE. Pelvic floor: anatomy and function. *Neurogastroenterol Motil.* 2006 Jul;18(7):507-19. doi: 10.1111/j.1365-2982.2006.00803.x
- Koga H, Kato Y, Shimotakahara A, Miyano G, Lane GJ, Okazaki T, Yamataka A. Intraoperative measurement of rectourethral fistula: prevention of incomplete excision in male patients with high-/intermediate-type imperforate anus. *J Pediatr Surg.* 2010 Feb;45(2):397-400. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2009.10.085
- Zbar AP, Khaikin M. Should we care about the internal anal sphincter? *Dis Colon Rectum.* 2012 Jan;55(1):105-8. doi: 10.1097/DCR.0b013e318235b645
- Kraus SJ, Levitt MA, Peña A. Augmented-pressure distal colostogram: the most important diagnostic tool for planning definitive surgical repair of anorectal malformations in boys. *Pediatr Radiol.* 2018 Feb;48(2):258-69. doi: 10.1007/s00247-017-3962-2
- Madhusmita, Ghasi RG, Mittal MK, Bagga D. Anorectal malformations: Role of MRI in preoperative

evaluation. *Indian J Radiol Imaging*. 2018 Apr-Jun;28(2):187-94. doi: 10.4103/ijri.IJRI\_113\_1

26. Zhan Y, Wang J, Guo WL. Comparative effectiveness of imaging modalities for preoperative assessment of anorectal malformation in the pediatric population. *J Pediatr Surg*. 2019 Dec;54(12):2550-53. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2019.08.037

27. Midrio P, van Rooij IALM, Brisighelli G, Garcia A, Fanjul M, Broens P, Iacobelli BD, Giné C, Lisi G, Sloots CEJ, Fascetti Leon F, Morandi A, van der Steeg H, Giuliani S, Grasshoff-Derr S, Lacher M, de Blaauw I, Jenetzky E. Inter- and Intraobserver Variation in the Assessment of Preoperative Colostograms in Male Anorectal Malformations: An ARM-Net Consortium Survey. *Front Pediatr*. 2020 Sep 18;8:571. doi: 10.3389/fped.2020.00571. eCollection 2020.

28. Tang ST, Cao GQ, Mao YZ, Wang Y, Li SW, Yang Y, Tong QS. Clinical value of pelvic 3-dimensional magnetic resonance image reconstruction in anorectal

malformations. *J Pediatr Surg*. 2009 Dec;44(12):2369-74. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2009.07.074

29. Gans SL, Friedman NB, David JS. Congenital anorectal anomalies: changing concepts in management. *Clin Pediatr (Phila)*. 1963 Nov;2:605-13. doi: 10.1177/00092286300201105

30. Fatahi Bandpey ML, Moreno Flores A, Palacios Moya P. Augmented-pressure colostogram in the radiological assessment of anorectal malformations. *Cir Pediatr*. 2014 Apr 15;27(2):62-67.

31. Wang C, Lin J, Lim K. The use of augmented-pressure colostography in imperforate anus. *Pediatr Surg Int*. 1997 Jul;12(5-6):383-85. doi: 10.1007/BF01076945

32. Kakizaki H, Moriya K, Ameda K, Shibata T, Tanaka H, Koyanagi T. Diameter of the external urethral sphincter as a predictor of detrusor-sphincter incoordination in children: comparative study of voiding cystourethrography. *J Urol*. 2003 Feb;169(2):655-58. doi: 10.1097/01.ju.0000040664.33499.ba

#### Адрес для корреспонденции

4220200, Дорот,  
Государственный гериатрический центр,  
Нетания, Аммон ве-Тамар 1, Израиль,  
тел.: 972-53-8281393,  
nivel70@hotmail.com,  
Левин Майкл

#### Address for correspondence

4220200, Dorot.  
State Geriatric Center, Netanya,  
Amnon ve-Tamar 1, Israel.  
Тел. 972-53-8281393,  
nivel70@hotmail.com.  
Levin Michael

#### Сведения об авторах

Левин Михаил Давыдович, д.м.н., рентгенолог Государственного гериатрического центра (Дорот), Нетания, Израиль.  
<https://orcid.org/0000-0001-7830-1944>

Аверин Василий Иванович, д.м.н., профессор, заведующий кафедрой детской хирургии, Белорусский государственный медицинский университет, г. Минск, Республика Беларусь.  
<https://orcid.org/0000-0003-3343-8810>

Дегтярев Юрий Григорьевич, д.м.н., профессор кафедры детской хирургии, Белорусский государственный медицинский университет, г. Минск, Республика Беларусь.  
<https://orcid.org/0000-0002-2696-4989>

#### Information about the authors

Levin Mikhail D., MD, Radiologist, State Geriatric Center (Dorot), Netanya, Israel.  
<https://orcid.org/0000-0001-7830-1944>

Averin Vasily I., MD, Professor, Head of the Department of Pediatric Surgery, Belarusian State Medical University, Minsk, Republic of Belarus,  
<https://orcid.org/0000-0003-3343-8810>

Degtyarev Yury G., MD, Professor of the Department of Pediatric Surgery Belarusian State Medical University, Minsk, Republic of Belarus  
<https://orcid.org/0000-0002-2696-4989>

#### Информация о статье

Поступила 23 января 2021 г.  
Принята в печать 10 февраля 2022 г.  
Доступна на сайте 28 июня 2022 г.

#### Article history

Arrived: 23 January 2021  
Accepted for publication: 10 February 2022  
Available online: 28 June 2022