

不同体位超声检查在先天性肛门直肠畸形诊断中的临床应用价值

岳志成 李全琳 李天刚 徐晓燕 韩璐 王艺璇 杨磊 马斌

摘要 目的 探讨抱立位、仰卧位超声检查在先天性肛门直肠畸形(CARM)术前诊断中的临床价值。方法 收集我院临床诊断为 CARM 患儿 122 例,根据 Wingspread 分型标准分为低位组 71 例和中高位组 51 例,术前均行抱立位超声、仰卧位超声及倒立位 X 线检查,测量并比较两组患儿直肠盲端至肛门隐窝皮肤距离(P-Pe 间距)。以手术测量结果作为标准,绘制抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线检查诊断 CARM 的受试者工作特征(ROC)曲线并分析其诊断效能;采用 Kappa 检验分析超声、X 线测得的 P-Pe 间距与手术测值的一致性。结果 低位组患儿仰卧位超声、倒立位 X 线测得的 P-Pe 间距均高于手术测值(均 $P < 0.05$),抱立位超声与手术测得的 P-Pe 间距比较差异无统计学意义;中高位组患儿倒立位 X 线测得的 P-Pe 间距高于手术测值(均 $P < 0.05$),抱立位超声、仰卧位超声与手术测得的 P-Pe 间距比较差异均无统计学意义。抱立位超声诊断 CARM 的敏感性、诊断符合率分别为 97.18%、96.72%,均高于倒立位 X 线(77.64%、86.07%),差异均有统计学意义(均 $P < 0.05$),与仰卧位超声的敏感性、诊断符合率(91.54%、93.44%)比较,差异均无统计学意义。抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线的诊断特异性、ROC 曲线下面积比较,差异均无统计学意义。抱立位超声、仰卧位超声测得的 P-Pe 间距与手术测值的一致性均较好(Kappa=0.933、0.867)。结论 抱立位、仰卧位超声对 CARM 的敏感性、诊断符合率均较高,且抱立位超声具有更准确的测量及定位价值,值得临床应用。

关键词 超声检查;体位;X 线检查;先天性肛门直肠畸形

[中图分类号]R445.1;R657.1

[文献标识码]A

Clinical application value of ultrasonography in the diagnosis of congenital anorectal malformation in different positions

YUE Zhicheng, LI Quanlin, LI Tiangang, XU Xiaoyan, HAN Lu, WANG Yixuan, YANG Lei, MA Bin

Department of Ultrasound, Gansu Provincial Maternity and Child-care Hospital, Lanzhou 730050, China

ABSTRACT **Objective** To explore the clinical value of ultrasonography in the diagnosis of congenital anorectal malformation (CARM) in embracing and supine position. **Methods** A total of 122 children diagnosed with CARM in our hospital were collected. According to the Wingspread classification, they were divided into the low group ($n=71$) and middle-high group ($n=51$). All patients underwent ultrasonographic in embracing position and supine position, and X-ray in inverted position before operation. The skin distance (P-Pe distance) from the blind end of rectum to the crypt of anus in the two groups were measured and compared. The receiver operating characteristic (ROC) curves of CARM diagnosed by ultrasound in embracing position and supine position and X-ray in inverted position were drawn respectively according to the result of surgical measurements as the standard, and the diagnostic efficacy was analyzed. Kappa test was used to analyze the consistency between the P-Pe distance measured by ultrasound and X-ray and that measured in operation. **Results** In the low group, both the P-Pe distance measured by ultrasound in supine position and by X-ray in handstand position were higher than those measured during operation ($P < 0.05$), and there was no statistical significance between ultrasound in embracing position and surgical measurements. In the middle-high group, the P-Pe distance measured by X-ray in handstand position were higher than that

基金项目:甘肃省青年科技基金计划项目(20JR5RA132);兰州市科学技术局项目(2020-ZD-12)

作者单位:730050 兰州市,甘肃省妇幼保健院超声科

通讯作者:马斌, Email: 153873545@qq.com

measured during operation ($P < 0.05$), and there were no significant differences between the P-Pe distance measured by ultrasound in embracing position and supine position and measured during operation. The sensitivity (97.18%) and diagnostic coincidence rate (96.72%) of ultrasound in embracing position were significantly higher than those of X-ray in inverted position (77.64%, 86.07%), and there were no significant differences in sensitivity (91.54%) and diagnostic coincidence rate (93.44%) compared with supine ultrasound. There were no significant differences in the specificity (96.08%, 96.08%, 98.04%) and the area under the ROC curve (0.992, 0.987, 0.972) of ultrasound in embracing position and supine position and X-ray in inverted position. The results of consistency analysis showed that the consistency between the P-Pe distance measured by ultrasound in embracing position and supine position and that measured during operation was high ($Kappa = 0.933, 0.867$). **Conclusion** The sensitivity and diagnosis coincidence rate of embracing and supine position ultrasound in CARM are higher, and embracing position ultrasound has more accurate measurement and positioning value, which is worthy of clinical application.

KEY WORDS Ultrasonography; Position; X-ray; Congenital anorectal malformation

先天性肛门直肠畸形 (congenital anorectal malformation, CARM) 是小儿外科最常见的消化道畸形, 临床表现为患儿生后肛门异常或体表瘻口。本病病因尚未完全清楚, 可能与遗传、环境及妊娠期病毒感染等有关^[1-2]。目前手术修复是治疗 CARM 的唯一方法, 手术方式的正确选择对疗效及术后排便功能的恢复具有重要意义。而术前准确测量直肠盲端至肛门隐窝皮肤的距离 (P-Pe 间距) 及评估 CARM 的类型对于手术方式的确定非常重要。本研究在以往常规超声检查体位 (仰卧位) 的基础上增加一种新的体位 (抱立位), 应用超声测量两种体位下 CARM 患儿的 P-Pe 间距, 并与倒立位 X 线测得的 P-Pe 间距比较, 初步探讨不同体位超声及 X 线检查在 CARM 术前定位中的价值。

资料与方法

一、研究对象

选取 2018 年 1 月至 2021 年 7 月我院收治并行手术治疗 CARM 患儿 122 例, 其中男 93 例, 女 29 例, 年龄 6 h~1 岁 10 个月, 其中 6 h~<1 个月患儿 75 例, 1~22 个月患儿 47 例。根据 Wingspread 分型标准^[8]分为中高位组 (直肠盲端在肛提肌中间或以上) 51 例, 其中男 34 例, 女 17 例, 中位年龄 2 个月 27 d; 低位组 (直肠盲端在肛提肌以下) 71 例, 其中男 59 例, 女 12 例, 中位年龄 1 个月 28 d。纳入标准: ①均经手术证实为 CARM; ②术前均行抱立位超声、仰卧位超声及倒立位 X 线检查, 检查资料完整。排除标准: ①因合并其他结构畸形及恶性肿瘤放弃治疗者; ②术前超声及 X 线检查资料不完整者。本研究经我院医学伦理委员会批准, 患儿家属均知情同意。

二、仪器与方法

1. 超声检查: 使用 GE Voluson E 10、Philips EPIQ 7C

彩色多普勒超声诊断仪, 11L-D、L12-3 线阵探头, 频率 7~11 MHz。检查前对哭闹患儿采用 10% 水合氯醛 (0.5 ml/kg) 口服镇静, 充分暴露会阴部, 分别采用仰卧位和抱立位行超声检查, 其中抱立位检查时需将患儿抱立 2~3 min。将探头轻置于肛门隐窝皮肤处行多切面扫查, 观察扩张的直肠盲端, 以直肠盲端内容物低回声或液性无回声等为参照点, 观察直肠盲端充盈情况, 测量 P-Pe 间距, 同时观察有无瘻管形成, 闭锁位置较高时结合经腹部超声扫查, 均测量 3 次取平均值。以上操作均由经过专业培训的主治及以上超声医师完成。

2. X 线检查: 使用 Philips Digital Diagnost DR 摄片机, 在会阴肛门区皮肤上做好标记, 先将患儿倒立 2~3 min, 使直肠盲端的胎便与肠管气体互相交换, 采取髋关节成 90° 屈曲位进行检查, 以股骨大粗隆为中心, 拍摄正、侧位片, 测量 P-Pe 间距。以上操作均由经过专业培训的主治及以上放射医师完成。

3. 观察指标: ①观察直肠盲端与耻尾线 (PC 线) 的关系; ②术中测量直肠盲端距离和 P-Pe 间距。本研究以 PC 线为标志分为低位和中高位, 低位即直肠盲端位于 PC 线以下, P-Pe 间距 ≤ 15 mm; 中高位即直肠盲端位于 PC 线附近或以上, P-Pe 间距 > 15 mm。

三、统计学处理

应用 SPSS 26.0 统计软件, 符合正态分布的计量资料以 $\bar{x} \pm s$ 表示, 不同方法的 P-Pe 间距测值比较采用单因素方差分析, Levene 法检验方差齐性, 若方差不齐且经对数转换后仍方差不齐, 采用 Kruskal-Wallis 检验; 单因素方差分析后两两比较采用 Dunnett- t 检验, 非参数检验后两两比较采用 Kruskal-Wallis 多重比较。计数资料以例或率表示, 组间比较采用 χ^2 检验。以手术测值为标准, 设定诊断结果“低位”为阳性指标, “中高位”为阴性指标, 绘制抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线检查诊断 CARM 的受试者工作特征

(ROC)曲线,计算并比较其诊断效能。超声、X线测值与手术测值的一致性分析采用Kappa检验, $Kappa \geq 0.75$ 为一致性较好。 $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

结 果

一、临床资料

本研究 122 例 CARM 患儿中,伴有瘘管 78 例,其中中高位组 32 例,包括直肠尿道瘘 19 例,直肠皮肤瘘 10 例,直肠前庭瘘 3 例;低位组 46 例,包括直肠皮肤瘘 31 例,直肠尿道瘘 7 例,直肠前庭瘘 5 例,直肠舟状窝瘘 3 例。合并其他结构畸形 75 例,其中心血管系统 35 例,泌尿生殖系统 23 例,消化系统 7 例,骨骼系统 6 例,神经系统 2 例,其他 2 例。

二、两组不同方法 P-Pe 间距测值比较

低位组不同方法 P-Pe 间距测值比较,差异有统计学意义($F=46.356, P < 0.001$);仰卧位超声、倒立位 X 线测值均高于手术测值,差异均有统计学意义(均 $P < 0.05$),抱立位超声测值与手术测值比较差异无统计学意义。中高位组不同方法 P-Pe 间距测值比较,差异有统计学意义($H=8.905, P=0.031$);倒立位 X 线测值高于手术测值,差异有统计学意义($P < 0.05$),抱立位超声、仰卧位超声测值与手术测值比较差异均无统计学意义。见表 1 和图 1、2。

三、不同方法对 CARM 的诊断效能

表 1 两组不同方法 P-Pe 间距测值比较($\bar{x} \pm s$) mm

方法	中高位组	低位组
手术	21.78 $\pm$ 3.98	6.69 $\pm$ 2.87
抱立位超声	21.08 $\pm$ 3.92	6.47 $\pm$ 3.25
仰卧位超声	21.63 $\pm$ 4.15	8.49 $\pm$ 3.34*
倒立位 X 线	24.02 $\pm$ 5.48*	12.20 $\pm$ 3.63*
P 值	0.031	<0.001

与手术测值比较,* $P < 0.05$

122 例 CARM 患儿超声、X 线检查与手术结果对照见表 2,抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线诊断 CARM 的 ROC 曲线图见图 3。抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线诊断 CARM 的敏感性分别为 97.18%、91.54%、77.64%,特异性分别为 96.08%、96.08%、98.04%,诊断符合率分别为 96.72%、93.44%、86.07%,曲线下面积分别为 0.992、0.987、0.972。三种方法的敏感性、诊断符合率比较差异均有统计学意义($P=0.001$ 、0.007),三种方法的特异性、曲线下面积比较差异均无统计学意义。抱立位超声与倒立位 X 线的敏感性、诊断符合率比较,差异均有统计学意义(均 $P < 0.05$),与仰卧位超声的敏感性、诊断符合率比较差异均无统计学意义;抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线的特异性、曲线下面积两两比较,差异均无统计学意义。

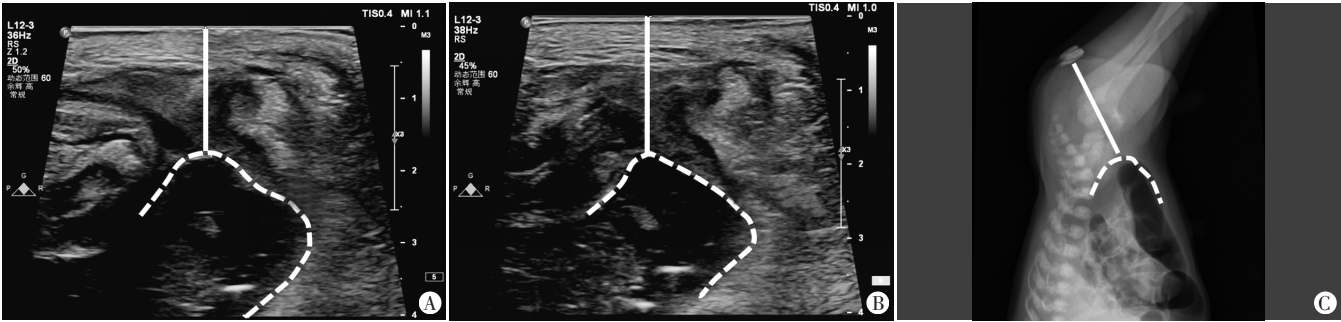
四、一致性分析

抱立位超声、仰卧位超声的 P-Pe 间距测值与手术



A:抱立位超声测得 P-Pe 间距 3.10 mm;B:仰卧位超声测得 P-Pe 间距 7.21 mm;C:倒立位 X 线测得 P-Pe 间距 11.90 mm

图 1 低位组同一患儿超声和 X 线检查图(实线示 P-Pe 间距,虚线示直肠盲端距离)



A:抱立位超声测得 P-Pe 间距 17.30 mm;B:仰卧位超声测得 P-Pe 间距 18.50 mm;C:倒立位 X 线测得 P-Pe 间距 23.10 mm

图 2 中高位组同一患儿超声和 X 线检查图(实线示 P-Pe 间距,虚线示直肠盲端距离)

测值的一致性均较好($Kappa=0.933, 0.867$, 均 $P<0.05$); 倒立位 X 线的 P-Pe 间距测值与手术测值的一致性一般($Kappa=0.725, P<0.05$)。

表 2 122 例 CARM 患儿超声、X 线检查结果与手术结果比较

方法	手术结果		例
	低位	中高位	
抱立位超声			
低位	69	2	
中高位	2	49	
仰卧位超声			
低位	65	2	
中高位	6	49	
倒立位 X 线			
低位	55	1	
中高位	16	50	

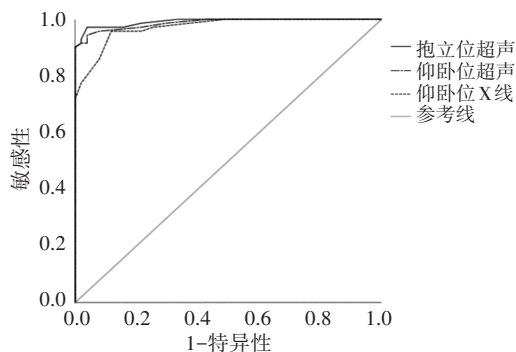


图 3 抱立位超声、仰卧位超声、倒立位 X 线诊断 CARM 的 ROC 曲线图

讨 论

CARM 是胚胎发育第 7~8 周时, 骨盆隔膜或肛门隔膜未被直肠穿通而形成的畸形, 其发病率约为 1/5000~1/1500^[1], 胎儿期肛门直肠畸形由 Bean 等^[3]在 1978 年首次诊断, 但产前超声对其的诊断特异性和敏感性均较低, 研究^[4]报道其检出率仅 12.1%。大部分患儿出生后必须进行手术治疗。初次手术前应用超声及 X 线准确测量 P-Pe 间距对手术方式的选择具有重要意义。若手术方式选择不当则会引起相关并发症, 研究^[5]报道了 CARM 患儿术后远期并发症发生情况, 结果发现大便失禁发生率为 16.7%~76.7%, 慢性便秘发生率为 22.2%~86.7%。本研究旨在探讨术前抱立位超声、仰卧位超声及倒立位 X 线检查对 CARM 的诊断价值。

本研究中 CARM 在男、女的发生率分别约 76.2%、23.8%, 中高位组和低位组男性患儿占比均高于女性患儿, 与以往研究^[6]结果一致。若 CARM 患儿的直肠

与尿生殖窦未分离, 则会形成各种瘘管, 本研究 122 例患儿中有 78 例伴有瘘管, 其中中高位组以直肠尿道瘘较多见, 低位组以直肠皮肤瘘较多见, 与以往研究^[7]结果一致, 分析主要与中高位 CARM 泄殖腔背侧发育不良的程度较低位 CARM 更严重有关。本研究发现伴发畸形中, 以心血管系统畸形最常见, 其次为泌尿生殖系统畸形和消化系统畸形, 与 Liu 等^[8]研究结果相符。研究^[9]报道心血管系统畸形发生率跨度较大, 约 9.0%~43.8%, 考虑是由于纳入疾病的种类不同, 如新生儿期将卵圆孔未闭及动脉导管未闭纳入研究结果有关。研究^[8]表明伴发其他结构畸形的 CARM 患儿围手术期感染率、住院时间、病死率均增加。因此, 对 CARM 患儿术前全面排查合并畸形至关重要。

CARM 的术前评估主要通过体格检查、MRI、倒立位 X 线及超声检查结果进行分析, 主要基于 P-Pe 间距、瘘管位置及耻骨直肠肌与直肠盲端的关系^[10-11], 其中 P-Pe 间距尤为重要。体格检查主要通过手指或探针探入异常通道来判断 P-Pe 间距, 对低位患儿检查时常因检查者主观因素影响导致测量误差较大; MRI 价格昂贵, 难以广泛应用; 而 X 线和超声是 CARM 术前影像学首选检查方式。本研究结果显示, 两组患儿倒立位 X 线测得的 P-Pe 间距均高于手术测值(均 $P<0.05$), 与 Hosokawa 等^[12]研究结果相似。分析原因为患儿倒立位时肠道内气体不能完全到达直肠盲端, 甚至部分患儿肠道内气体经瘘管排出, 导致肠道内气体影与肛穴处标志物的距离大于实际距离, 且 X 线不能区分直肠盲端囊内胎粪与其他器官或盆腔软组织。研究^[13]表明 P-Pe 间距的 X 线测值常超出实际测值 0.2~0.5 cm, 导致将低位 CARM 误诊为中高位 CARM。本研究结果也发现 P-Pe 间距的 X 线测值与手术测值相差约 0.4 cm。同时, 本研究还发现中高位组患儿抱立位超声、仰卧位超声 P-Pe 间距测值均略低于手术测值, 低位组患儿仰卧位超声、倒立位 X 线 P-Pe 间距测值均高于手术测值(均 $P<0.05$), 而抱立位超声测值更接近手术测值。分析原因可能是中高位组患儿中因为盲端位置较高, 高频超声并不能全部显示直肠盲端, 检查过程中探头压迫患儿肛穴处皮肤所致^[14]; 而低位组患儿中与抱立位超声检查时将患儿抱立静止 2~3 min 后再行经会阴超声检查有关^[15]。因此超声探头与中高位 CARM 患儿的会阴部接触时应尽量轻柔, 避免加压, 以减少测量误差。

本研究中抱立位超声诊断 CARM 的敏感性、诊断符合率(97.18%、96.72%)均明显高于倒立位 X 线

(77.64%、86.07%), 差异均有统计学意义(均 $P < 0.05$), 与仰卧位超声(91.54%、93.44%)比较差异均无统计学意义; 三种方法的特异性和曲线下面积比较, 差异均无统计学意义。分析其原因可能为: ①抱立位时患儿较倒立位耐受时间长, 因患儿哭闹导致盲端处肠内容物充盈不足; ②抱立位时由于直肠末端胎便及肠管积液受重力影响, 通过人体重心转移, 同时腹腔器官位置受重力作用进一步增加了对肛门括约肌等支持组织的负荷, 使得肠内容物更靠近于肛门隐窝; ③倒立位 X 线主要观察气体与肛门隐窝的距离, 仰卧位超声主要观察气液混合物与肛门隐窝的距离, 抱立位超声则主要观察液体肠内容物与肛门隐窝的距离, 三种测量方法的诊断价值均较高, 但抱立位在重力影响下超声图像质量更高, 测值更精确。

本研究的局限性: ①虽然不同方法检查时均由主治及以上医师完成, 但并未进行操作者间的一致性检验; ②有研究^[16]表明含有瘘管的新生儿 P-Pe 间距较无瘘管新生儿更大, 但本研究中并未探讨患儿有无瘘管、不同性别及不同体质量对抱立位超声 P-Pe 间距测值的影响, 有待后续进一步分类研究。

综上所述, 术前应用超声对 CARM 患儿进行检查具有可行性较高、方便经济、无创伤的优势, 尤其低位 CARM 患儿采用抱立位超声检查具有更精确的测量及定位价值, 可为外科手术方式的选择提供依据。

参考文献

- [1] Wood RJ, Levitt MA. Anorectal malformations[J]. Clin Colon Rectal Surg, 2018, 31(2): 61-70.
- [2] 张艳莉, 任红霞. 先天性肛门直肠畸形基因异常及其致病因素研究进展[J]. 中华胃肠外科杂志, 2016, 19(1): 113-117.
- [3] Bean WJ, Calonje MA, Aprill CN, et al. Anal atresia: a prenatal ultrasound diagnosis[J]. J Clin Ultrasound, 1978, 6(2): 111-112.
- [4] 广畅, 何文, 张红霞, 等. 三维超声断层成像技术评价胎儿肛门直肠发育的价值[J]. 中华医学超声杂志(电子版), 2019, 16(5): 380-385.
- [5] 白玉作. 关注肛门直肠畸形的远期随访和多中心研究[J]. 中华小兒外科杂志, 2018, 39(12): 881-882.
- [6] Cassina M, Fascetti Leon F, Ruol M, et al. Prevalence and survival of patients with anorectal malformations: a population-based study[J]. J Pediatr Surg, 2019, 54(10): 1998-2003.
- [7] 张敏, 孙静, 王至立, 等. 先天性复杂肛门直肠畸形合并畸形的临床分析[J]. 第三军医大学学报, 2018, 40(17): 1590-1594.
- [8] Liu Y, Li K, Wu J, et al. Morbidity of congenital heart disease in children with anorectal malformations and related treatment[J]. Zhejiang Da Xue Xue Bao Yi Xue Ban, 2020, 49(5): 597-602.
- [9] vander Steeg HJ, Schmiedeke E, Bagolan P, et al. European consensus meeting of ARM-Net members concerning diagnosis and early management of newborns with anorectal malformations[J]. Tech Coloproctol, 2015, 19(3): 181-185.
- [10] Hosokawa T, Yamada Y, Hosokawa M, et al. Ultrasound imaging of the anorectal malformation during the neonatal period: a comprehensive review[J]. Jpn J Radiol, 2018, 36(10): 581-591.
- [11] Ralls M, Thompson BP, Adler B, et al. Radiology of anorectal malformations: what does the surgeon need to know? [J]. Semin Pediatr Surg, 2020, 29(6): 150997.
- [12] Hosokawa T, Hosokawa M, Tanami Y, et al. Comparison of diagnostic accuracy for the low-type imperforate anus between prone cross-table radiography and sonography[J]. J Ultrasound Med, 2017, 36(8): 1679-1686.
- [13] 胡慧勇, 许云峰, 丁亮, 等. 超声与倒立位 X 线诊断先天性肛门直肠畸形的一致性研究[J]. 医学影像学杂志, 2019, 29(1): 112-115.
- [13] Hosokawa T, Yamada Y, Tanami Y, et al. Sonography for an imperforate anus: approach, timing of the examination, and evaluation of the type of imperforate anus and associated anomalies [J]. J Ultrasound Med, 2017, 36(9): 1747-1758.
- [14] Sarkar A, AL Shanafey S, Mourad M, et al. No-fistula vs. fistula type anorectal malformation: outcome comparative study[J]. J Pediatr Surg, 2018, 53(9): 1734-1736.
- [15] 刘翔. 低位肛门直肠畸形成形手术的再认识[J]. 临床外科杂志, 2019, 27(6): 460-461.
- [16] Hosokawa T, Takahashi H, Tanami Y, et al. Comparison between the pouch-perineum distance in neonates with a low-type anorectal malformation with and without an opened fistula: pitfall of measuring the pouch-perineum distance on sonography[J]. J Ultrasound Med, 2018, 37(12): 2797-2802.

(收稿日期: 2022-01-20)