

Appendikostomi i behandling af svære afføringsforstyrrelser hos børn

Stud.med. Susanne Morsing Krogsgaard,
læge Mette Dia Milling & professor Niels Qvist

Odense Universitetshospital, Kirurgisk Afdeling A

Resume

Introduktion: På Odense Universitetshospital har antegrad colonskylning gennem appendikostomi siden 1996 været et tilbud til børn med svære afføringsforstyrrelser som følge af kongenitte anorektale misdannelser eller funktionelle lidelser. Formålet med undersøgelsen var at præsentere de hidtidige erfaringer med metoden og en patienttilfredshedsundersøgelse.

Materiale og metoder: Der blev foretaget en retrospektiv journalgennemgang og en spørgeskemaundersøgelse blandt 32 patienter, der har fået anlagt appendikostomi. Patientgruppen inkluderede børn med analatresi, myelomeningocele, mb. Hirschsprung og idiopatisk obstipation. Gennemsnitsalderen på operationstidspunktet var 8,7 år (4-16 år) og den mediane opfølgningstid var 2,5 år (1-8 år).

Resultater: Af de 32 patienter besvarede 31 spørgeskemaet. Tre patienter var ophørt med at anvende appendikostomien, fordi tarmfunktionen var normaliseret, og to havde fået anlagt kolo-stomi pga. utilfredsstillende resultat. Af de resterende 26 patienter opnåede alle en forbedring i renlighed, og 46% var helt renlige. Appendikostomirelaterede komplikationer inkluderede stenose (41%) og lækage (62%), og 54% oplevede lette til svære abdominale smerter under skylning. På en visuel analog skala fra 1 til 10 (1 = ingen tilfredshed/forbedring i velbefindende og 10 = fantastisk) blev tilfredsheden med appendikostomien og dens indflydelse på afføringsmønstret angivet til median 9 (variationsbredde 5-10). Samme værdier blev opnået for velbefindende.

Konklusion: Hos børn med svære afføringsforstyrrelser af forskellige årsager har antegrad colonskylning gennem appendikostomi en stor og positiv effekt på afføringsmønstret, patienttilfredshed og alment velbefindende. Metoden er dog ikke uden problemer.

Afføringsinkontinens, svær obstipation eller en kombination af begge dele er almindelig efter rekonstruktive indgreb for kongenitte anorektale malformationer. Den primære behandling er medicinsk regulering af afføringen eventuelt kombineret med anal irrigation. I de sværeste tilfælde kan kolostomi være løsningen. Anal irrigation er forbundet med en række tekniske vanskeligheder, såsom problemer med at holde på skyllevandet på grund af dårlig sfinkterfunktion og ufuldstændig tømning af tarmen.

Antegrad colonskylning gennem appendikostomi kan hos disse patienter være et godt alternativ til den konventionelle behandling. Metoden blev i 1990 introduceret af *Malone et al* i

behandlingen af afføringsproblemer hos børn, der var blevet opereret for kongenitte anorektale malformationer [1]. Senere har metoden også fundet anvendelse i behandlingen af svære afføringsforstyrrelser af anden årsag, inklusive svær idiopatisk obstipation. Princippet ved appendikostomien er, at man kan føre et skyllekateret direkte ind i caecum og foretage en antegrad colonskylning en gang daglig og derved opnå en effektiv tømning af colon. Hos patienter med inkontinens kan ufrivillig afgang af fæces udgås i op til et døgn efter skylningen.

Litteraturen indeholder kun få oplysninger om patienttilfredshed og subjektiv bedømmelse af metoden. På Børnekirurgisk Sektion ved Kirurgisk Afdeling A på Odense Universitetshospital har metoden været anvendt siden 1996, og nedenstående præsenteres de hidtidige erfaringer med metoden inklusive en patienttilfredshedsundersøgelse.

Materiale og metoder

Der blev foretaget en retrospektiv journalgennemgang og en spørgeskemaundersøgelse blandt i alt 32 patienter (18 drenge og 14 piger), der havde fået foretaget appendikostomi i perioden 1. januar 1996-31. december 2002. Gennemsnitsalderen på operationstidspunktet var 8,7 år (4-16 år). Seksten patienter havde analatresi, seks myelomeningocele, seks idiopatisk obstipation og tre mb. Hirschsprung. En patient havde både myelomeningocele og analatresi. En patient, der var født med anal stenose, blev inkluderet i gruppen af analatresi.

Obstipation var det primære problem hos syv patienter, mens inkontinens var det primære problem hos 25. De fleste af patienterne havde et blandingsproblem, men blev i denne undersøgelse delt op efter det mest generende problem.

Hos syv af patienterne blev appendikostomien anlagt i umbilicus, og hos 25 blev den anlagt i højre fossa iliaca. Hos to patienter, der tidligere var blevet appendektomeret, blev der konstrueret en neoappendiks ud fra den terminale ileum. Appendikostomien blev tildannet a.m. Turnbull med en tilstræbt stomihøjde på 2 mm. Alle operationer blev foretaget åbent, og der blev ikke foretaget noget indgreb for at forebygge reflux i stomien. Ingen af patienterne havde gennemgået tarmforberedelse. Som profylakse mod infektion blev der ved anæstesiindledningen givet ampicillin (100 mg/kg) og metronidazol (20 mg/kg). Skylning gennem appendikostomien blev påbegyndt 7-10 dage efter operationen med anvendelse af et kort Lofric-kateret Ch. 8-10. Skylningerne blev foretaget med almindelig håndvarmt vand, indtil der var afgang af klar skyllevæske perianalt. Både forældre og børn blev oplært i skylleproceduren.

Af de 32 patienter besvarede 31 spørgeskemaet, der blev

VIDENSKAB OG PRAKSIS | ORIGINAL MEDDELELSE

fremsendt i barnets navn med et ledsagebrev, der henvendte sig til såvel børn som forældre. Det blev pointeret, at svarene skulle tage udgangspunkt i situationen før anlæggelse af blindtarmsstomien. Spørgeskemaet indeholdt i alt 29 spørgsmål om praktiske forhold ved skylleproceduren, stomikomplikationer, effekten på tarmfunktionen og den opnåede renlighed subjektivt bedømt i fire grader (helt, nogenlunde, ikke helt og slet ikke renlig). Herudover blev der spurgt, om blindtarmsstomien havde haft nogen betydning for barnets skolegang og fritidsaktiviteter. Endelig blev der spurgt, om de gik eller havde gået til skolepsykolog. Spørgsmålene var enten ja/nej eller intervallspørgsmål med kun en svarmulighed. Endelig blev de bedt om at angive den generelle tilfredshed med blindtarmsstomien og dens indflydelse på deres velbefindende i det daglige i forhold til før operationen på en visuel analog skala (VAS) fra 1-10, hvor 1 var ingen tilfredshed/forbedring og 10 fantastisk tilfredshed/forbedring.

Resultater

Opfølgningstiden varierede fra 1 år til 8 år (median 2,5 år). Fem patienter benyttede ikke appendikostomien på opgørelsestidspunktet, tre fordi tarmen fungerede tilfredsstillende, og to fordi de havde fået anlagt kolostomi. På opgørelsestidspunktet varetog ca. halvdelen af børnene skylningen selv. Der var flest blandt de ældste børn, der selv varetog skylningen.

Der observeredes ingen umiddelbare per- eller postoperative komplikationer. I efterforløbet fik 13 patienter (41%) behandlingskrævende stenose af stomien. Stenosen blev hos to patienter behandlet med dilatation, hos fem med revision og hos seks med både dilatation og revision. Af de syv patienter, der fik anlagt appendikostomien i umbilicus, fik fem patienter (71%) behandlingskrævende stenose, hvilket kun var tilfældet for syv ud af de 25 patienter (28%), der havde fået anlagt appendikostomien i højre fossa iliaca.

På opgørelsestidspunktet (november 2003) var der 26 patienter, der benyttede appendikostomien, og 16 af disse (62%) angav at have problemer med lækage fra stomien.

Fjorten patienter havde under skylningen forskellige grader af abdominale smerter (54%).

Overordnet angav alle patienter med en fungerende appendikostomi, at de havde opnået en forbedring i renlighed, og 12 patienter (46%) var helt renlige. Patienter med idiopatisk obstipation blev alle helt renlige og fik løst obstipationsproblemet. Patienter med myelomeningocele eller mb. Hirschsprung blev alle enten helt eller nogenlunde renlige, mens dette var tilfældet for 13 ud af de 16 patienter med analatresi. Tre patienter med analatresi var ikke helt renlige, hvilket patienten med både analatresi og myelomeningocele heller ikke var. Ved opdeling af patienterne efter deres primære problem var ni af de 21 patienter, hvis primære problem var inkontinens, helt renlige, mens ni var nogenlunde renlige, og tre ikke var helt renlige. Tre af de patienter, hvis primære problem var obstipation, blev helt renlige, mens en blev nogenlunde ren-

Table 1. Den opnåede renlighed hos patienter, hvis hovedproblem var enten obstipation eller inkontinens, og som benyttede appendikostomien.

Problem	Helt renlig	Nogenlunde renlig	Ikke helt renlig	Slet ikke renlig
Obstipation	3	1	1	0
Inkontinens	9	9	3	0

lig, og en ikke blev helt renlig (Table 1). De to patienter, der fik så dårligt udbytte af operationen, at de slet ikke opnåede renlighed, fik senere anlagt kolostomi. Den ene patient havde mb. Hirschsprung, og den anden havde analatresi. Patienterne var henholdsvis fire år og fem år på operationstidspunktet.

Tilfredsheden med appendikostomien og dens indflydelse på afføringsmønsteret blev angivet til median 9 (variationsbredde 5-10) på VAS. I alt 25 ud af 26 med en fungerende appendikostomi ville anbefale den til andre i samme situation. Med hensyn til forbedring i velbefindende var medianværdien ligeledes 9 (variationsbredde 5-10). Syv patienter var udeblevet fra skolearrangementer, mens fire havde måttet ophøre med eller ændre sportsgren pga. appendikostomien. Af de 26 patienter, der stadig benyttede stomien, gik 24 i skole, og af disse fik ni specialundervisning. Seks af patienterne gik eller havde gået til skolepsykolog.

Diskussion

Vi har fundet, at den antegrade colonskylning har vist sig at være effektiv i behandlingen af svære afføringsforstyrrelser hos børn med forskellig ætiologi. Over 90% opnåede en væsentlig forbedring, og halvdelen havde ingen problemer med afføringen. I to ud af de 32 tilfælde var resultatet så dårligt, at de valgte at få anlagt en blivende stomi. Tre patienter ophørte med at anvende appendikostomien, fordi deres afføring var blevet normal. I andre studier er der fundet lignende gode resultater med en rapporteret forbedring i afføringsmønsteret på 43-100% og opnået renlighed på 21-90% [1-11].

Inden for alle patientgrupper blev der opnået gode resultater, men i gruppen af patienter med analatresi var der nogle, som ikke opnåede at blive helt renlige. I nogle studier har man rapporteret om lidt dårligere resultater hos børn med mb. Hirschsprung eller anden colondysmotilitet [7, 10], mens andre undersøgelser har påvist, at patienter med mb. Hirschsprung klarer sig bedst [9]. I denne undersøgelse opnåede patienter, hvis primære problem var obstipation, en lidt større grad af renlighed, end patienter hvis primære problem var inkontinens. Både dette og lignende studier bygger på forholdsvis små patientmaterialer, hvorfor man ikke på baggrund af dette kan konkludere, at nogle patientgrupper med sikkerhed har større gavn af appendikostomi end andre.

På trods af de gode funktionelle resultater er der dog en række problemer hos mange af patienterne. Således fik 41% behandlingskrævende stenose af stomien. I litteraturen varie-

VIDENSKAB OG PRAKSIS | ORIGINAL MEDDELELSE

rer det fra 0% til 58% [1-7, 9, 11]. Variationen kan delvis forklares ud fra forskelle i definition af stenose, operationsmetode og i varighed af opfølgning. Af kosmetiske grunde vælger mange at placere appendikostomien i umbilicus, men det har i vore hænder resulteret i en uacceptabel høj frekvens af stenose i forhold til placeringen i højre fossa iliaca. Forskellige plastiske procedurer i forbindelse med konstruktionen af stomiet har været foreslået med varierende resultat [1-6, 8-12], men der foreligger ingen randomiserede undersøgelser heraf. I de tilfælde, hvor det ikke er nødvendigt at skylle daglig, kan daglig indføring af kateteret forebygge stenose [1-3, 8, 9, 11].

62% af patienterne oplevede lækage fra stomien i form af enten luft, afføring, slim eller skyllevæske. I litteraturen varierer det fra 0% til 69% [1, 3, 4, 7, 9, 10] afhængigt af, om opgørelsen er baseret på retrospektiv journalgennemgang eller spørgeskemaundersøgelse. Forskellige antirefluksprocedurer har været anvendt, uden at det har haft nogen markant indflydelse på refluksstendensen [7, 9], dog er frekvensen af refluks højest ved neoappendikosomi. Endelig oplevede 54% af patienterne fra lette til svære smerter under skylningen. I andre studier varierer andelen af patienter, der har smerter under skylningen fra 17% til 80% [3, 4]. Problemerne med smerter ved skylningen kan afhjælpes ved at forlænge skylletiden, mindske mængden af skyllevæske eller ved at anvende anti-spasmolytikum [4, 8, 10], men der foreligger dog ingen randomiserede undersøgelser heraf.

Barnets alder på operationstidspunktet har formentlig betydning for resultatet. *Curry et al* fandt, at kun 30% af de børn, som var under fem år, opnåede succes mod 76% af de børn, som var over fem år, da de blev opereret [8]. En af forklaringerne kan være, at de mindre børn har sværere ved at acceptere selve skylleproceduren og den tid, der skal bruges på den. I vores undersøgelse fandtes ligeledes en sammenhæng mellem patientens alder ved operationen og den opnåede renlighed, således at de ældste patienter opnåede de bedste resultater. De to patienter, der fik så dårligt udbytte af operationen, at de senere fik anlagt en kolostomi, var samtidig de to yngste patienter på henholdsvis fire år og fem år.

Hos de 26 patienter, der stadig benyttede appendikostomien, var der klar forbedring i afføringsmønsteret med høj score i patienttilfredshed og velbefindende. Nogle patienter var udeblevet fra skolearrangementer eller sport, men gav alligevel en høj score på skalaen for forbedring i afføring og på skalaen for velbefindende. I andre undersøgelser er der fundet lignende resultater [1-4, 9, 11]. Det er bemærkelsesværdigt, at der gives en så høj score i tilfredshed og velbefindende samtidig med, at en del har komplikationer, f.eks. med smerter under skylleproceduren. Psykiske problemer relateret til appendikostomien er tidligere beskrevet [3]. Vi har i spørgeskemaet ikke direkte spurgt, om patienterne har haft psykiske eftervirkninger, som kunne relateres til appendikostomien, men seks patienter oplyste, at de havde konsulteret en skolepsykolog, og en patient var blevet henvist. Der var ligeledes

en stor andel af patienterne, der fik specialundervisning. Selv om vi ikke kender de konkrete årsager til, at så mange af vores patienter havde behov for enten psykolog eller specialundervisning, kan det være et udtryk for, at hele sygdomsforløbet og ikke kun appendikostomien har haft en indflydelse på børnenes hverdag.

Konklusion

Hos børn med svære afføringsforstyrrelser af forskellige årsager har antegrad colonskylning gennem appendikostomi en stor og positiv effekt på afføringsmønsteret, patienttilfredshed og alment velbefindende. Metoden er dog ikke uden problemer, hvoraf stenose, abdominalt ubehag ved skylningen og lækage er de hyppigste. Udviklingen af fysiologiske undersøgelser til bedre forståelse af de forskellige aspekter ved skyllemetoden er nødvendig for at kunne optimere behandlingen.

Korrespondance: *Niels Qvist*, Kirurgisk Afdeling A, Odense Universitetshospital, DK-5000 Odense C. E-mail: famqvist@dadlnet.dk

Antaget: 27. maj 2005

Interessekonflikter: Ingen angivet

Litteratur

1. Malone PS, Ransley PG, Kiely EM. Preliminary report. The antegrad continence enema. *Lancet* 1990;336:1217-8.
2. Hensle TW, Reily EA, Chang DT. The Malone antegrad continence enema procedure in the management of patients with spina bifida. *J Am Coll Surg* 1998;186:669-74.
3. Bau MO, Younes S, Aupy A et al. The Malone antegrad colonic enema isolated or associated with urological incontinence procedures: evaluation from patient point of view. *J Urol* 2001;165:2399-403.
4. Perez M, Lemelle JL, Barthelemy H et al. Bowel management with antegrad colonic enema using a Malone or a Monti conduit. Clinical results. *Eur J Pediatr Surg* 2001;11:315-8.
5. Kokoska ER, Keller MS, Weber TR. Outcome of the antegrad colonic enema procedure in children with chronic constipation. *Am J Surg* 2001;182:625-9.
6. Tackett LD, Minevich E, Benedict JF et al. Appendical versus ileal segment for antegrad continence enema. *J Urol* 2001;167:683-6.
7. Lynch AC, Beasle SW, Robertson RW et al. Comparison of results of laparoscopic and open antegrad continence enema procedures. *Pediatr Surg Int* 1999;15:343-6.
8. Curry JI, Osborne A, Malone PSJ. How to achieve a successful Malone antegrad continence enema. *J Pediatr Surg* 1998;33:138-41.
9. Curry JI, Osborne A, Malone PSJ. The MACE procedure. Experience in the United Kingdom. *J Pediatr Surg* 1999;34:338-40.
10. Marshall J, Hutson JM, Anticich N et al. Antegrade continence enemas in the treatment of slow-transit constipation. *J Pediatr Surg* 2001;36:1227-30.
11. Shankar KR, Losty PD, Kenny SE et al. Functional results following the antegrad continence enema procedure. *Br J Surg* 1998;85:1451-2.
12. Liloku RB, Mure PY, Braga L et al. The left Monti-Malone procedure: preliminary results in seven cases. *J Pediatr Surg* 2002;37:228-31.