

# H-Tipi Fistüllü Anorektal Malformasyon: Hangi Cerrahi Teknik?

## Anorectal Malformation with H-Type Fistula: Which Surgical Technique?

Halil İbrahim TANRIVERDİ,<sup>a</sup>  
Cüneyt GÜŖŞAR,<sup>a</sup>  
Aydın ŖENCAN<sup>a</sup>

<sup>a</sup>Çocuk Cerrahisi AD,  
Manisa Celal Bayar Üniversitesi  
Tıp Fakültesi,  
Manisa

Received: 27.11.2017  
Received in revised form: 09.03.2018  
Accepted: 19.03.2018  
Available online: 14.08.2018

Correspondence:  
Halil İbrahim TANRIVERDİ  
Manisa Celal Bayar Üniversitesi  
Tıp Fakültesi,  
Çocuk Cerrahisi AD, Manisa,  
TÜRKİYE/TURKEY  
halilibrahimtanriverdi@gmail.com

**ÖZET** H-tipi fistül, anorektal malformasyonların çok nadir görülen formlarından biridir. Bu anomalide, anüs normal lokalizasyonda ve açık olarak görülürken, anal kanal ile vestibulum vejen arasında bir fistül bulunmaktadır. Ailesi tarafından defekasyon sırasında vestibulum vajenden de gaita geldiği fark edilen bir yaşındaki kız olgu, anorektal malformasyon tanısı ile yatırıldı. Fizik bakımında anüsü açık ve normal lokalizasyonda iken, vestibulum vajenin sol lateralinde fistül ağzının olduğu görüldü. Vestibulumdaki fistül ağzından sokulan kateterin rektumun anterior duvarında, dentat hattın hemen üzerinden çıktığı görüldü. H-tipi fistüllü anorektal malformasyon olarak değerlendirildi. Anterosagittal yaklaşımla fistül eksize edilerek onarım yapıldı. Altı aylık izlemde nüks saptanmadı. H-tipi fistüllü anorektal malformasyon için literatürde çok çeşitli cerrahi teknikler tanımlanmıştır. Bu çalışmada; anterosagittal yaklaşımla düzeltilen, H-tipi anorektal fistüllü bir kız olgu sunularak, literatürdeki cerrahi tekniklerin tartışılması amaçlanmıştır.

**Anahtar Kelimeler:** H-tipi fistül; anorektal malformasyon; cerrahi teknik

**ABSTRACT** H-type fistula is a very rare form of anorectal malformations. There is a fistula between anal canal and vestibulum vagen although anus is located usual and it has a normal openness. One-years-old girl was hospitalized with the diagnosis of anorectal malformation, because of gaita discharge from vestibulum vagen during defecation. The fistule orifice was determined at the left lateral of vestibulum vagen although the anus is located usual and had normal openness at the physical examination. The catheter, inserted from fistula orifice at the vestibulum, took out just over the dentat line at the anterior wall of the rectum. The anomaly was considered as anorectal malformation with H-type fistula. The fistula was excised with the anterosagittal approach. Recurrence did not determined at the following period of six mounths. There are various surgical techniques for the anorectal malformation with H-type fistula in the literature. In this article, a girl, who had H-type anorectal fistula corrected with anterosagittal approach, was presented and the surgical techniques in the literature were discussed.

**Keywords:** H-type fistula; anorectal malformation; surgical technique

1960'lı yıllarda Bryndorf ve Madsen tarafından tanımlanmış H-tipi fistül, anorektal malformasyonlar (ARM)'ın nadir görülen bir formudur.<sup>1</sup> ARM'lerin %0,1-15,9'unu oluşturmaktadır. Asya ülkelerinde ve kız çocuklarında daha sık görülmektedir.<sup>2,3</sup> Genellikle anal kanaldan vestibulumu doğru uzanan fistül söz konusudur.<sup>4,5</sup> Bu anomalide anüsün normal yerinde ve açık olması nedeni ile zaman zaman tanıda gecikmeler olabilmektedir.<sup>5-8</sup> Hastaların çoğunda fistül levator ani düzeyinde ya da daha aşağıdadır.<sup>7</sup> Anal stenoz da eşlik edebilmektedir. Erkeklerde fistül üretrada ya da mesanededir ve tanı

koymak zordur.<sup>9</sup> Erkeklerde genellikle üretral stenoz ya da striktür de bulunmaktadır.<sup>10</sup> Bu anomali için perineal kanal anomali terimi de kullanılmaktadır.<sup>6,8,11,12</sup> Krickenbeck Sınıflaması'na göre, nadir/bölgesel varyantlar başlığı altında "H-tipi fistül" olarak tanımlanmıştır.<sup>10,13</sup> Cerrahi tedavi konusunda görüş birliği yoktur. Basit olarak, sadece primer fistülün kapatılmasını yeterli bulanlar mevcut iken, kolostomili ya da kolostomisiz çeşitli anorektoplasti ameliyatlarını tercih edenler de bulunmaktadır.

Bu çalışmada, anterosagittal teknikle düzeltilen H-tipi fistüllü ARM'li bir kız olgu sunularak, literatürdeki cerrahi tekniklerin, sonuçları açısından tartışılması amaçlanmıştır.

## OLGU SUNUMU

Son 3 aydır, defekasyon sırasında vajinal alandan da gaita geldiği fark edilen bir yaşındaki kız olgu, ARM tanısıyla yatırıldı. Kendisinde ve ailesinde önemli kalıtsal bir hastalık olmayan olgunun, fizik bakışında anüsün açık ve normal lokalizasyonunda olduğu, vestibulum vajenin sol lateralinde ise yaklaşık 8 mm çapında fistül ağzının olduğu saptandı. Fistül ağzından sokulan kateterin rektumun anterior duvarında dentat hattın hemen üzerindeki bir alandan çıktığı görüldü (Resim 1). Fistül düzeyi, levator ani düzeyinin altı olarak değerlendirildi. Fistülün vestibulum ve rektumdaki her iki ağzı da dışarıdan rahat olarak görülebildiği için fistülografi çekilmesine gerek duyulmadı. Anovestibüler alanda inflamasyon ya da enfeksiyon yoktu. Bu anomali, H-tipi fistüllü ARM olarak değerlendirildi.

Laboratuvar tetkiklerinde; hemoglobini: 8,6 g/dL, hematokriti: %27,6 olarak saptandı. Diğer rutin incelemeleri normal idi. Operasyon öncesi rektal lavmanlarla barsak temizliği yapıldı, total parenteral beslenmeye geçildi ve üçlü antibiyoterapi başlandı (Sulbaktam-ampisilin 3x50 mg/kg, amikasin 2x10 mg/kg ve ornidazol 3x10 mg/kg).

Operasyonda, önce perianal sfinkterler kas stimülatörü ile kontrol edildi, kas kontraksiyonları olağan olarak değerlendirildi. Ardından fistül ağzına çepeçevre askı sütürleri konarak, anterosagi-



**RESİM 1:** Vestibulum vajenin sol lateralinde yaklaşık 8 mm çapında fistül ağzının olduğu saptandı. Fistül ağzından sokulan kateterin rektumun anterior duvarında dentat ligamentin hemen üzerindeki bir alandan çıktığı görüldü.

tal yaklaşımla, fistül rektuma kadar serbestleştirildi. Fistülün rektuma girdiği yere yakın bölümden transfiksion sütürü konularak fistül rektumdan ayrılarak eksize edildi. Perine bölgesinde cilt, cilt altı dokular ve eksternal sfinkterin yüzeysel üst bölümü anatomisine uygun olarak kapatıldı (Resim 2). Postoperatif 4. gün, perineal sütürlerden birkaçının açılması üzerine anestezi altında primer sütür konularak onarım yapıldı. Olgu postoperatif 12. gün oral beslenmeye başladı, 16. gün şifa ile taburcu edildi. Postoperatif 6 aylık izlemde herhangi bir nüks ya da anal stenoz saptanmadı. Perineal alanın görünümü kozmetik açıdan iyi olarak değerlendirildi. Ancak, yaşı nedeni ile kontinensi değerlendirilemedi.

## TARTIŞMA

Literatürde, H-tipi fistüllü ARM için; basit eksizyon (perineal onarım) kolostomili veya kolostomisiz anterosagittal, posterosagittal, vestibuloanal, abdominoperineal, endorektal pull-through, fistül traktunun transanal eksizyonu, modifiye transanal onarım ve endorektal mukozal flep ilerletme gibi çok çeşitli cerrahi teknikler tanımlanmıştır.<sup>5-7,11,12,14-18</sup> Literatürde nüks oranları, değişik tekniklerde %5-64 arasında değişmektedir.<sup>16,18</sup> Buradaki temel sorular

şudur; bu hastalara kolostomi yapmak gerekir mi, malformasyonun daha komplike bir teknik olan anorektal pull-through gibi ameliyatlara mı düzeltilmesi gerekir, yoksa daha basit perineal onarım yeterli olur mu? Bu farklı yaklaşımlar arasında komplikasyon, nüks ve kontinans açısından bir fark var mıdır?

Bir kısım araştırmacı, özellikle fistül traktı, pelvik tabanın yukarısına doğru açılıyorsa öncelikle kolostomi yapılmasını önermektedir.<sup>10,19</sup> Bu araştırmacılar, genellikle ikinci aşamada cerrahi teknik olarak anorektal pull-through tekniklerinden birini uygulamaktadırlar. Bu malformasyona perianal fistül tedavisi gibi yaklaşımlar (basit eksizyonu önerenler), pull-through ameliyatlarının komplike ve gereksiz olduğunu düşünmekte ve tercih ettikleri teknikten dolayı da kolostomi yapmamaktadırlar.<sup>7,14</sup> Son ve Hung, 118 hastaya Tsuchida'nın uyguladığı anterior rektal pull-through ameliyatını modifiye ederek, bir gruba kolostomi yaptıktan sonra bir gruba da kolostomi yapmadan uygulamışlar ve nüks açısından kolostomi yapılanlarla yapılmayanlar arasında bir fark saptamamışlardır.<sup>6</sup> Olgumuzda, fistülün açılım yerinin le-

vator ani düzeyinin altında olması nedeni ile kolostomi yapılmamıştır. Fistülün açılım yeri, uygulanacak cerrahi teknik ve cerrahın deneyimine göre kolostomi yapılmasının da makul olduğu düşünülmektedir.

Chatterjee ve Talukder, küçük bir perineal insizyonla fistülü basit olarak eksize etmişler, ancak başarılı bir sonuç alamamışlardır.<sup>4</sup> Aynı araştırmacılar, daha sonra tekniklerini geliştirerek vestibulorektal pull-through onarımını tanımlamışlardır.<sup>5</sup> Bu modifikasyon sonuçlarını iyileştirmekle birlikte komplikasyon oranlarında kabul edilebilir düzeylere ulaşamamışlardır.

Tsuchida ve ark., anterior rektal duvarın pull-through ameliyatını tanımlamışlardır.<sup>7</sup> Bu yöntemde fistülün distalini de içine alacak şekilde distal barsağın anterior duvarı eksize edilerek, anal kanalın anterior yarısı çıkarılmakta ve rektumun anterior duvarına pull-through yapılarak işlem tamamlanmaktadır. Araştırmacılar yöntemi 12 hastaya uygulamışlardır ve başarının %100 olduğunu ifade etmişlerdir. Ancak bu teknikte çizgili kas kompleksi, internal sfinkter ve eksternal sfinkterin yüzeyel kısmının hasarlanma riskinin de önemli derecede olabileceğinden bahsetmişlerdir. Son ve Hung, 120 olguluk serilerinde, 2 (%1,6) hastada fistülün spontan kapandığını saptamışlar, geriye kalan 118 hastaya Tsuchida'nın uyguladığı anterior rektal pull-through ameliyatını modifiye ederek, bir gruba kolostomi yaptıktan sonra bir gruba da kolostomi yapmadan uygulamışlar ve nüks açısından kolostomi yapılanlarla yapılmayanlar arasında bir fark saptamamışlardır.<sup>6</sup> Primer onarımda nüks oranının %2,9 olduğu saptanır iken, redo onarımlarda bu oranın %6,25 olduğu bildirilmiştir. Araştırmacılar sonuç olarak, tek seanslı modifiye Tsuchida tekniğinin başarılı olduğunu rapor etmişlerdir.

Okada ve ark.nın, ilk kez ektopik anüs için tanımladıkları anterior sagittal yaklaşım, daha sonra H-tipi fistüllü ARM için de kullanılmıştır.<sup>15</sup> Bu teknikte; perine vertikal bir şekilde insize edilerek, süperfisiyal sfinkter lifleri ortadan ayrılmakta, perineal gövde orta hattan açılmakta, vestibüler fistül ağzı çepeçevre insize edilip vajenden ayrılarak total olarak çıkarılmakta ve perineal gövde orta



**RESİM 2:** Anteriosagittal yaklaşımla, fistül rektumun girişine kadar serbestleştirildi, rektuma girdiği yerden transfiksasyon sütürü konularak eksize edildi. Cilt, cilt altı dokular ve eksternal sfinkterin yüzeyel üst bölümü anatomisine uygun olarak kapatıldı.

hatta yaklaştırılmaktadır. Yöntemin avantajları; operasyon için yeterli görüş alanı sağlaması, eksternal sfinkter kaslarının orta hattan ayrıldığı için hasarlanmasının en az düzeyde olması ve perineal gövdenin yaklaştırılmasının kolay olması şeklinde özetlenebilmektedir.<sup>11</sup> Wakhlı ve ark., perineal kanal anomalili 58 hastaya anterosagital yaklaşım uygulamışlar, bir hastada nüks saptamışlar ve tüm hastaların kontinent olduğunu bildirmişlerdir.<sup>8</sup> Olgumuzda da cerrahi teknik olarak iyi görüş alanı sağlaması ve kas kompleksini etkilememesi açısından anterosagital yaklaşım tercih edilmiştir. Postoperatif erken dönemde perineal sütürlerden birkaçında açılma olmuş, sekonder iyileşmesi mümkün olsa da kozmetik açıdan daha iyi olacağı düşünülerek tekrar sütüre edilmiştir. Sütür hattı açıldığında herhangi bir gaita bulaşı ve enfeksiyon bulgusu yoktu. Altı aylık izlemde nüks saptanmamış ve perineal bölgenin kozmetik açıdan da iyi olduğu görülmüştür.

Yapılan bir olgu sunumunda, fistül traktına bir prob yerleştirildikten sonra anal kanaldan vestibulumla doğru trakt insize ederek çıkarılmış ve üzeri pansumanla kapatılmış, günlük pansumanlarla yaranın bir ayda sekonder olarak iyileştiği bildirilmiştir.<sup>14</sup> Bu teknikte nüksün önlenebileceği belirtilmiştir. Ancak, bu tekniğin tercih edilmesi durumunda hastaların iyileşme dönemi uzun sürmekte, hastanede kalım süresi uzamakta, daha fazla irrigasyon ve pansuman gerektirmektedir. Ayrıca, cerrahi alanın fibröz ile iyileşebilmesi de ayrı bir sorundur.<sup>10</sup>

Bu anomali için transanal yaklaşım da tanımlanmıştır.<sup>12</sup> Altı kız hasta opere edilmiş ve hastaların hiçbirinde de sorun yaşanmamıştır. Bu teknikte prone pozisyonundaki çocukta, anüsün içinden anal kanal ön duvardaki fistül ağzı serbestleştirilerek eksize edilmektedir. Basit olmasına karşın sadece alçak seviyedeki lezyonlara uygulanabilir olması bu tekniği sınırlamaktadır.

Wu ve ark., rektovestibüler pull-through endorektal mukozal flep ilerletme tekniğini uyguladıkları 14 hastanın 1,5 yıllık izleminde nüks görmediklerini ve inkontinans saptamadıklarını ifade etmişlerdir.<sup>17</sup> Bu teknikte, önce rektum tara-

findaki fistül ağzı serbestleştirilmekte, ardından fistül ağzına konulan traksiyon sütürleri yardımıyla fistül vestibulum tarafından içeriden dışarıya çıkarılarak eksize edilmekte, böylece fistül tamamen eksize edilebilmektedir.

Erkeklerde genellikle öncelikle kolostomi, ardından fistül onarımı yapılmaktadır.<sup>10</sup> Fistül onarımı için perineal onarım, posterior sagital anorektoplasti, anterior sagital anoplasti ya da anorektoplasti gibi teknikler önerilmektedir.<sup>10</sup> Daha sonra üretral dilatasyon ya da üretroplastisi ile üretral darlık düzeltilmektedir.

Sonuç olarak, ARM'nin nadir görülen bu formu için pek çok cerrahi teknik uygulanabilmektedir. Bu teknikler için "hangisinin en başarılı, en az nükse neden olan ve kontinansı etkilemeyen olduğu" sorusu önemlidir. Ancak bu soruların kesin yanıtını söylemek zordur ve tek bir yanıt da yoktur. Fistülün açılım yeri, cinsiyet, cerrahın tecrübesi ve uygulamaya alışkın olduğu cerrahi teknik sonuçları etkileyebilmektedir. Ancak, literatür göz önüne alındığında basit perineal onarımların komplikasyonları (geç iyileşme, skarla iyileşme, enfeksiyon ve nüks sıklığı gibi) fazla olduğundan önerilmez. Vestibulorektal pull-through tekniğinde de nüks ve komplikasyonların sıklığından bahsedilmektedir. Tuschida tekniği, modifiye Tsuchida tekniği ve anterosagital yaklaşımın başarı oranları yüksek ve komplikasyon oranları düşük olarak bildirilmiştir. Diğer tekniklerde hasta sayıları, yorum yapmak için sınırlı gibi gözükmektedir.

Olgumuzda, fistülün açılım yerinin levator ani düzeyinin altında olması nedeni ile kolostomi yapılmamıştır. Ancak; fistülün açılım yeri, uygulanacak cerrahi teknik ve cerrahın deneyimine göre kolostomi yapılmasının da makul olduğu düşünülmektedir. Anterosagital yaklaşımın basit ve perineal kas kompleksini ve sfinkterleri koruyan bir cerrahi olduğu düşünüldüğünden tercih edilmiştir. Bütün bunların yanında, cerrahi teknik kadar vestibuloperineal alanda enfeksiyon ya da inflamasyon yok iken, cerrahinin uygulanması ile fistül traktının tam olarak çıkarılmasının da önemli olduğu düşünülmektedir.



**Finansal Kaynak**

Bu çalışma sırasında, yapılan araştırma konusu ile ilgili doğrudan bağlantısı bulunan herhangi bir ilaç firmasından, tıbbi alet, gereç ve malzeme sağlayan ve/veya üreten bir firma veya herhangi bir ticari firmadan, çalışmanın değerlendirme sürecinde, çalışma ile ilgili verilecek kararı olumsuz etkileyebilecek maddi ve/veya manevi herhangi bir destek alınmamıştır.

**Çıkar Çatışması**

Bu çalışma ile ilgili olarak yazarların ve/veya aile bireylerinin çıkar çatışması potansiyeli olabilecek bilimsel ve tıbbi komite

üyeliği veya üyeleri ile ilişkisi, danışmanlık, bilirkişilik, herhangi bir firmada çalışma durumu, hissedarlık ve benzer durumları yoktur.

**Yazar Katkıları**

**Fikir/Kavram:** Aydın Şencan; **Tasarım:** Aydın Şencan; **Denetleme/Danışmanlık:** Aydın Şencan; **Veri Toplama ve/veya İşleme:** Aydın Şencan; **Analiz ve/veya Yorum:** Aydın Şencan, Cüneyt Günşar; **Kaynak Taraması:** Aydın Şencan, Halil İbrahim Tanrıverdi; **Makalenin Yazımı:** Aydın Şencan, Halil İbrahim Tanrıverdi; **Eleştirel İnceleme:** Aydın Şencan, Cüneyt Günşar.

**KAYNAKLAR**

- Bryndorf J, Madsen CM. Ectopic anus in the female. Acta Chir Scand 1960;118:446-78.
- Moore SW, Alexander A, Sidler D, Alves J, Hadley GP, Numanoglu A, et al. The spectrum of anorectal malformations in Africa. Pediatr Surg Int 2008;24(6):677-83.
- Akhparov NN, Aipov RR, Ormantayev KS. The surgical treatment of H-fistula with normal anus in girls. Pediatr Surg Int 2008;24(11):1207-10.
- Chatterjee SK, Talukder BC. Double termination of the alimentary tract in female infants. J Pediatr Surg 1969;4(2):273-43.
- Chatterjee SK. Double termination of the alimentary tract--a second look. J Pediatr Surg 1980;15(5):623-7.
- Son le T, Hung le T. Perineal canal: a special entity of anorectal malformations in Vietnam. Pediatr Surg Int 2011;27(10):1105-10.
- Tsuchida Y, Saito S, Honna T, Makino S, Kaneko M, Hazama H. Double termination of the alimentary tract in females: a report of 12 cases and a literature review. J Pediatr Surg 1984;19(3):292-6.
- Wakhlu A, Pendey A, Prasad A, Kureel SN, Tandon RK, Wakhlu AK. Perineal canal. Pediatr Surg Int 1997;12(4):283-5.
- Rintala RJ, Mildh L, Lindahl H. H-type anorectal malformations: incidence and clinical characteristics. J Pediatr Surg 1996;31(4):559-62.
- Sharma S, Gupta DK. Diversities of H-type anorectal malformation: a systematic review on a rare variant of the Krickenbeck classification. Pediatr Surg Int 2017;33(1):3-13.
- Mirza I, Zia-ul-Miraj M. Management of perineal canal anomaly. Pediatr Surg Int 1997;12(8):611-2.
- Mahmoud MI. New transanal approach for surgical correction of perineal canal. Br J Surg 1995;82(2):182-3.
- Holschneider A, Hutson J, Peña A, Beket E, Chatterjee S, Coran A, et al. Preliminary report on the International Conference for the Development of Standards for the Treatment of Anorectal Malformations. J Pediatr Surg 2005;40(10):1521-6.
- Ismail A. Perineal canal: a simple method of repair. Pediatr Surg Int 1994;9(8):603-4.
- Okada A, Kamata S, Imura K, Fukuzawa M, Kubota A, Yagi M, et al. Anterior sagittal anorectoplasty for recto and anovestibular fistula. J Pediatr Surg 1992;27(1):85-8.
- Lawal TA, Chatoorgoon K, Bischoff A, Peña A, Levitt MA. Management of H-type rectovestibular and rectovaginal fistulas. J Pediatr Surg 2011;46(6):1226-30.
- Wu YM, Wang CD, Lv F, Zhang C, Yan ZL. The surgical management of H-Type rectovestibular fistula: a novel modification. Eur J Pediatr Surg 2016;26(4):336-9.
- Park J. Use of an endorectal mucosal advancement flap to treat H-type rectovestibular fistula in patients with a normal anus. J Pediatr Surg 2013;48(1):247-50.
- Pena A. Imperforate anus and cloacal malformations. In: Ashcraft KW, Holder TM, eds. Pediatric Surgery. 2<sup>nd</sup> ed. Philadelphia: Saunders; 1993. p.357.