

Research Paper

Value of Frozen Biopsy in the Treatment of Hirschsprung Disease

Vuong Minh Chieu*, Vu Truong Nhan, Hua Thi Hoai Thuong, Pham Ngoc Thach

Children's Hospital No 2, 14 Ly Tu Trong, Ward Ben Nghe, District 1, Ho Chi Minh City, Vietnam

Received 21 April 2022

Revised 7 May 2022; Accepted 15 May 2022

Abstract

Objectives: Evaluation the value of frozen biopsy and results of combination frozen biopsy with operation in treatment of Hirschsprung's disease.

Methods: Serial retrospective description

Results: There were 34 cases included in this research. Mean operation time was $168,5 \pm 71,9$ minutes, mean refeeding time was $2,6 \pm 1,4$ days, and mean hospitalization was 10,2 days. Mean follow-up time was $11,1 \pm 8,3$ months, including 2 (5,9%) cases was reported fecal incontinence and 6 (17,6%) cases was enterocolitis, no cases was reported constipation. No patient was required re-operation. The results of frozen biopsy were correspondence with total biopsy in all cases.

Conclusions: The accuracy of frozen biopsy in Hirschsprung's disease is very high. Combination frozen biosy with operation in treatment Hirschsprung's disease shows good results with low complication rates.

Keyword: frozen biopsy, Hirschsprung's disease, fecal incontinence

* Corresponding author.

E-mail address: dr.vuongminhchieu@gmail.com

<https://doi.org/10.47973/jprp.v6i3.437>

Giá trị của sinh thiết lạnh trong phẫu thuật bệnh phình đại tràng vô hạch bẩm sinh

Vương Minh Chieu*, Vũ Trường Nhân, Hứa Thị Hoài Thương, Phạm Ngọc Thạch
Bệnh viện Nhi đồng 2, 14 Lý Tự Trọng, Phường Bến Nghé, Quận 1, TP. Hồ Chí Minh, Việt Nam

Nhận ngày 21 tháng 4 năm 2022

Chỉnh sửa ngày 7 tháng 5 năm 2022; Chấp nhận đăng ngày 15 tháng 5 năm 2022

Tóm tắt

Mục tiêu: Đánh giá vai trò của sinh thiết lạnh và kết quả của kết hợp sinh thiết lạnh trong phẫu thuật điều trị phình đại tràng do vô hạch bẩm sinh.

Phương pháp: Hồi cứu mô tả hàng loạt ca.

Kết quả: 34 trường hợp thoả mãn tiêu chuẩn của nghiên cứu. Thời gian phẫu thuật trung bình là $168,5 \pm 71,9$ phút, thời gian cho ăn lại trung bình là $2,6 \pm 1,4$ ngày, thời gian nằm viện sau mổ trung bình là 10,2 ngày. Thời gian theo dõi trung bình là $11,1 \pm 8,3$ tháng, có 2 trường hợp (5,9%) được ghi nhận là són phân và 6 trường hợp (17,6%) viêm ruột sau mổ, không có trường hợp táo bón sau mổ. Không có trường hợp nào cần phẫu thuật lại. Kết quả sinh thiết lạnh phù hợp với sinh thiết thường quy ở 100% các trường hợp.

Kết luận: Sinh thiết lạnh trong phẫu thuật bệnh Hirschsprung có độ chính xác cao. Kết hợp sinh thiết lạnh trong phẫu thuật điều trị bệnh Hirschsprung cho kết quả tương đối tốt với tỉ lệ biến chứng thấp.

Từ khoá: sinh thiết lạnh, phình đại tràng do vô hạch bẩm sinh, són phân

I. Đặt vấn đề

Phình đại tràng bẩm sinh (bệnh Hirschsprung) là một bệnh khá phổ biến ở trẻ em, liên quan đến tình trạng vắng tế bào hạch trong đám rối thần kinh cơ và dưới niêm của đoạn ruột xa [1].

Bệnh Hirschsprung đã được mô tả từ lâu và trải qua nhiều bước phát triển trong điều trị. Mặc dù có nhiều cải tiến trong kỹ thuật phẫu thuật cũng như chăm sóc, nhiều bệnh nhi vẫn gặp phải nhiều vấn đề sau mổ như tiêu bón, són phân, viêm ruột liên quan bệnh Hirschsprung [1,2].

Các biến chứng được phân thành hai nhóm nguyên nhân, cơ học và mô học [13]. Các nguyên nhân cơ học thường liên quan đến kỹ thuật phẫu thuật. Phương pháp hiện nay được hầu hết các phẫu thuật viên lựa chọn là phẫu thuật hạ đại tràng xuyên hậu môn trong trực tràng (TEPT) do có nhiều ưu điểm. Về mặt mô học, nguyên nhân gồm sót đoạn vô hạch, vô hạch tiến triển, loạn sản thần kinh ruột [6,13]. Để hạn chế những sai sót về mặt mô học, kỹ thuật sinh thiết lạnh trong lúc phẫu thuật đã được giới thiệu [6,15,13].

Tại Việt Nam, hầu hết các phẫu thuật viên đánh giá đoạn đại tràng cần cắt bỏ dựa trên phim X-quang và kinh nghiệm quan sát trong lúc phẫu thuật. Hiện tại, rất ít trung tâm phẫu

* Tác giả liên hệ

E-mail address: dr.vuongminhchieu@gmail.com

<https://doi.org/10.47973/jprp.v6i3.437>

thuật nhi thực hiện kỹ thuật sinh thiết lạnh trong phẫu thuật bệnh Hirschsprung. Từ hiện thực này, chúng tôi thực hiện nghiên cứu nhằm đánh giá mức độ chính xác của sinh thiết lạnh trong điều trị bệnh Hirschsprung và đánh giá kết quả phẫu thuật bệnh Hirschsprung có kết hợp sinh thiết lạnh.

II. Đối tượng và phương pháp nghiên cứu

Với thiết kế nghiên cứu hồi cứu mô tả hàng loạt ca, chúng tôi chọn tất cả các trường hợp bệnh nhi được phẫu thuật điều trị bệnh Hirschsprung có kết hợp sinh thiết lạnh trong thời gian từ ngày 1/1/2018 đến 15/3/2021, tại Bệnh viện Nhi đồng 2, TP. Hồ Chí Minh. Các thông tin được ghi nhận gồm đặc điểm dịch tễ và lâm sàng, tường trình phẫu thuật, kết quả điều trị và theo dõi, kết quả sinh thiết lạnh và sinh thiết thường quy.

Dữ liệu được nhập liệu, lưu trữ và phân tích bằng phần mềm thống kê Stata® 13.0. Các biến được thống kê mô tả. Nghiên cứu được chấp thuận bởi Hội đồng Y đức Bệnh viện Nhi đồng 2.

III. Kết quả

Chúng tôi ghi nhận 34 trường hợp thỏa mãn tiêu chuẩn của nghiên cứu, với 27 (79,4%) là

nam và 7 (20,6%) là nữ. Tuổi trung bình lúc phẫu thuật là 10,7 tháng (1 - 84 tháng).

Triệu chứng lâm sàng thường gặp nhất là chậm tiêu phân su với 20 trường hợp (58,8%) và tiêu bón kéo dài với 15 trường hợp (44,1%). Các biểu hiện ít gặp hơn là tắc ruột (41,2%) và trướng bụng (20,6%). Có 14 trường hợp (41,2%) đã được làm hậu môn tạm trước và 2 trường hợp (5,9%) đã được phẫu thuật TEPT trước. Có 7 trường hợp (20,6%) không xác định được đoạn chuyển tiếp trên hình ảnh X-quang đại tràng. Tất cả các trường hợp đều có chẩn đoán trước mổ là bệnh Hirschsprung dựa trên sinh thiết hút hoặc sinh thiết Swenson.

Phương pháp phẫu thuật được lựa chọn là TEPT, trong đó có 5 trường hợp (14,7%) TEPT kết hợp nội soi và 12 trường hợp (35,3%) TEPT kết hợp mổ mở. Có 4 trường hợp (11,8) cắt bỏ toàn bộ đại tràng, 1 trường hợp (2,9%) cắt bỏ đến đại tràng góc lách, 3 trường hợp (8,8%) cắt bỏ đến đại tràng ngang, 26 trường hợp cắt bỏ đến đại tràng sigma. Thời gian phẫu thuật trung bình là $168,5 \pm 71,9$ phút. Thời gian cho ăn lại trung bình là $2,6 \pm 1,4$ ngày, thời gian nằm viện sau mổ trung bình là 10,2 ngày (4 - 30 ngày).

	Thời gian mổ (phút)	Thời gian cho ăn lại (ngày)	Thời gian nằm viện (ngày)
TEPT	$110,3 \pm 4,7$	$2 \pm 0,2$	$8,3 \pm 1,0$
TEPT/nội soi	$205,0 \pm 39,1$	2	$7,3 \pm 0,3$
TEPT/mổ mở	$183,3 \pm 31,8$	$3,7 \pm 0,9$	$21,0 \pm 5,9$

Biến chứng gần được ghi nhận là viêm ruột, với 2 trường hợp (5,9%), không có trường hợp nào tắc ruột, chảy máu miệng nổi hay xì miệng nổi. Thời gian theo dõi trung bình là $11,1 \pm 8,3$ tháng. Có 2 trường hợp (5,9%) được ghi nhận là són phân, đang được điều trị nội ở thời điểm kết thúc nghiên cứu.

Viêm ruột sau mổ được ghi nhận ở 6 trường hợp, chiếm 17,6%. Có 2 trường hợp són phân chiếm 5,9%, được điều trị nội khoa. Không có trường hợp táo bón sau mổ. Không có trường hợp nào cần phẫu thuật lại.

Kết quả sinh thiết lạnh phù hợp với sinh thiết thường quy ở 100% các trường hợp.

IV. Bàn luận

Bệnh Hirschsprung có thể có biểu hiện lâm sàng rất sớm ở trẻ sơ sinh bằng bệnh cảnh tắc ruột cấp tính dễ đưa đến tử vong nếu không can thiệp kịp thời, hoặc có biểu hiện bán cấp và mạn tính ở trẻ nhũ nhi và trẻ lớn với bệnh cảnh táo bón và tiêu chảy kéo dài đưa đến tình trạng suy dinh dưỡng, chướng bụng, chậm phát triển về thể chất cũng như tinh thần [1,2]. Trong nghiên cứu của chúng tôi, biểu hiện thường gặp là tắc ruột sơ sinh vào táo bón kéo dài.

Ngày nay, chẩn đoán bệnh Hirschsprung dựa trên triệu chứng lâm sàng, chụp phim X-quang đại tràng cản quang và chẩn đoán xác định dựa trên kết quả sinh thiết hút trực tràng. X-quang đại tràng còn có vai trò gợi ý chiều dài đoạn vô hạch để lựa chọn hướng tiếp cận trong phẫu thuật. Tuy nhiên, chúng tôi nhận thấy có 20,6% trường hợp trong nghiên cứu này không xác định được đoạn chuyển tiếp trên X-quang. Ptoctor [3] cũng báo cáo sự tương hợp giữa X-quang và đoạn chuyển tiếp thực tế khoảng 88%, trong khi Jamieson [7] báo cáo tỉ lệ 62,5%.

Vai trò của sinh thiết lạnh

Nhiều kỹ thuật đã được giới thiệu nhằm hạn chế xâm lấn cũng như tránh các biến chứng về sau như táo bón tiếp diễn, són phân hay viêm ruột. Các biến chứng này thường liên quan đến hai nhóm nguyên nhân lớn là kỹ thuật phẫu thuật và sót đoạn vô hạch, hay hạ đoạn chuyển tiếp xuống thay vì đoạn ruột có hạch [4-5,13]. Nhiều báo cáo cho thấy việc cấu trúc mô học của đoạn chuyển tiếp không bình thường, khiến chức năng đoạn ruột này không tốt và gây ra các biến chứng sau mổ [14,15].

Về kỹ thuật phẫu thuật, lựa chọn phổ biến ngày nay là phẫu thuật hạ đại tràng xuyên hậu

môn trong trực tràng (TEPT) do có nhiều ưu điểm. Có thể kết hợp TEPT cùng nội soi hay mổ bụng trong trường hợp vô hạch đoạn dài [1]. Trong khi đó, việc hạ đoạn chuyển tiếp xuống có thể tránh được nhờ kỹ thuật sinh thiết lạnh trong lúc mổ [6,13]. Đánh giá vị trí đoạn chuyển tiếp bằng sinh thiết lạnh có độ chính xác cao hơn so với dựa trên X-quang [8].

Trong báo cáo tổng hợp của Shayan [9], độ chính xác của sinh thiết lạnh là 97%, những yếu tố ảnh hưởng đến kết quả gồm vị trí lấy mẫu, kỹ thuật làm lạnh, và kinh nghiệm nhà giải phẫu bệnh. Dhakal [10] báo cáo độ chính xác là 91,4%.

Tại trung tâm, chúng tôi lấy mẫu sinh thiết lạnh đầy đủ các lớp, lưu trữ trong dung dịch NaCl 0,9% và vận chuyển ngay lập tức để đọc kết quả. Trong nghiên cứu của chúng tôi, kết quả sinh thiết lạnh phù hợp 100% với kết quả sinh thiết thường quy sau mổ, điều này đảm bảo việc đoạn ruột được hạ xuống có tế bào hạch thần kinh trưởng thành. Độ chính xác cao có thể do cỡ mẫu của chúng tôi thấp, và kỹ thuật sinh thiết lạnh được lựa chọn là lấy đủ lớp và được đọc bởi bác sĩ giải phẫu bệnh đủ kinh nghiệm.

Kết quả phẫu thuật có kết hợp sinh thiết lạnh

Thời gian phẫu thuật trung bình là 110,3 phút, trong đó thời gian mổ nội soi dài hơn so với phẫu thuật hạ đại tràng đơn thuần hoặc có kết hợp mổ bụng. Thời gian tương ứng với các báo cáo khác [11-12]. Chúng tôi không ghi nhận biến chứng gần nào đáng kể trong nghiên cứu, 2 trường hợp viêm ruột đáp ứng tốt với điều trị nội khoa.

Thời gian theo dõi trong nghiên cứu của chúng tôi còn tương đối ngắn (khoảng 11 tháng). Biến chứng thường gặp nhất là viêm ruột với 6 trường hợp chiếm 17,6%. Không

có trường hợp nào táo bón nặng hay cần phẫu thuật lại. Việc theo dõi lâu dài là rất cần thiết để đánh giá những di chứng sau mổ như triệu chứng tắc ruột, viêm ruột, són phân và suy dinh dưỡng [15].

Kết quả cho thấy kết hợp kỹ thuật TEPT cùng sinh thiết lạnh trong phẫu thuật điều trị bệnh Hirschsprung cho kết quả tốt, bệnh nhi ăn lại sớm và tỉ lệ biến chứng tương đối thấp. Tuy nhiên, cần theo dõi lâu dài hơn để đánh giá kết quả dài hạn.

V. Kết luận

Sinh thiết lạnh trong phẫu thuật bệnh Hirschsprung có độ chính xác cao. Kết hợp sinh thiết lạnh trong phẫu thuật điều trị bệnh Hirschsprung cho kết quả tương đối tốt với tỉ lệ biến chứng thấp.

Tài liệu tham khảo

- [1] Peña A, Bischoff A. Hirschsprung's Disease. In *Surgical Treatment of Colorectal Problems in Children*. Springer 2015:397-434
- [2] Linh TNU, Ban HT. Hirschsprung Disease. *Clinical pediatric surgery*. Medical Publishing House, TP. Ho Chi Minh. 2018:406-423.(in Vietnamese)
- [3] Proctor ML, Traubici J, Langer JC et al. Correlation between radiographic transition zone and level of aganglionosis in Hirschsprung's disease: implications for surgical approach. *J Pediatr Surg* 2003;38(5):775-778. <https://doi.org/10.1016/j.pedsurg.2003.50165>
- [4] Kapur RP, Smith C, Ambartsumyan L. Postoperative Pullthrough Obstruction in Hirschsprung Disease: Etiologies and Diagnosis. *Pediatr Dev Pathol* 2019;23(1):40-59. <https://doi.org/10.1177/1093526619890735>
- [5] Kapur RP. Histology of the Transition Zone in Hirschsprung Disease. *Am J Surg Pathol* 40(12):1637-1646. <https://doi.org/10.1097/pas.0000000000000711>
- [6] Coe A, Collins MH, Lawal T et al. Reoperation for Hirschsprung Disease: Pathology of the Resected Problematic Distal Pull-Through. *Pediatr Dev Pathol* 2012;15(1):30-38.
- [7] Jamieson DH, Dundas SE, Belushi SA et al. Does the Transition Zone Reliably Delineate Aganglionic Bowel in Hirschsprung's Disease?. *Pediatr Radiol* 2004;34(10):811-815. <https://doi.org/10.1007/s00247-004-1292-7>
- [8] Rizky M, Isa MM, Kamarlis RK. Comparison of Barium Enema and Frozen Section Results in the Diagnosis of Hirschsprung's Disease in a Tertiary Care Hospital at Aceh, Indonesia. *Med J Malaysia* 2020;75(1):37-40.
- [9] Shayan K, Smith C, Langer JC. Reliability of Intraoperative Frozen Sections in the Management of Hirschsprung's Disease. *J Pediatr Surg* 2004;39(9):1345-1348. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2004.05.009>
- [10] Dhakal B, Makaju R. The Diagnostic Accuracy of Frozen Section Compared to Permanent Section: Single Center Study. *Kathmandu Univ Med J (KUMJ)* 2019;17(67):229-233.
- [11] Das K, Mohanty S. Hirschsprung Disease - Current Diagnosis and Management. *Indian J Pediatr* 2017;84(8):618-623. <https://doi.org/10.1007/s12098-017-2371-8>

-
- [12] Liem NT, Hau BD. Comparison of initial results between single-stage laparoscopic and transanal surgery for treatment of congenital megacolon. *Journal of Medicine in Ho Chi Minh City*. 2011;15(3):33 - 36. (in Vietnamese)
- [13] Langer JC, Rollins MD, Levitt M et al. Guidelines for the Management of Postoperative Obstructive Symptoms in Children with Hirschsprung Disease. *Pediatr Surg Int* 2017;33(5):523-526. <https://doi.org/10.1007/s00383-017-4066-7>
- [14] Heuckeroth RO. Hirschsprung Disease - Integrating Basic Science and Clinical Medicine to Improve Outcomes. *Nat Rev Gastroenterol Hepatol* 2018;15(3):152-167. <https://doi.org/10.1038/nrgastro.2017.149>
- [15] Smith C, Ambartsumyan L, Kapur RP. Surgery, Surgical Pathology, and Postoperative Management of Patients with Hirschsprung Disease. *Pediatr Dev Pathol* 2020;23(1):23-39. <https://doi.org/10.1177/1093526619889436>