

# Anoplastia de avance rectal posterior con conservación de la fístula en pacientes con malformación anorrectal. Estudio multicéntrico

C. Ramírez Amorós<sup>1</sup>, C. Gine Prades<sup>2</sup>, M. San Basilio<sup>1</sup>, M. Fanjul<sup>3</sup>, A. Sánchez Galán<sup>1</sup>, M.J. Martínez Urrutia<sup>1</sup>, A. Vilanova-Sánchez<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Hospital Universitario La Paz. Madrid. <sup>2</sup>Hospital Vall d'Hebron. Barcelona. <sup>3</sup>Hospital Universitario Gregorio Marañón. Madrid.

## RESUMEN

**Introducción.** Las malformaciones anorrectales (MAR) con fístula rectoperineal suelen repararse mediante anorrectoplastia sagital posterior (ARPSP), que dada la proximidad de la fístula a la vagina y la uretra, puede resultar dificultosa. La anoplastia de avance rectal posterior (AARP) conserva la pared anterior de la fístula sin dejar una incisión sagital anterior o posterior. Está indicada en casos concretos de MAR con fístula rectoperineal en los que el aspecto anterior de la fístula se encuentra parcialmente rodeado de complejo esfinteriano.

**Material y métodos.** Estudio retrospectivo multicéntrico realizado en pacientes con fístula rectoperineal tratada con AARP. Se analizaron el género, las malformaciones asociadas, la edad, el tiempo operatorio, los resultados a corto y largo plazo, y las complicaciones.

**Resultados.** Se realizó AARP en 18 pacientes con una edad de 93,5 (1,75-312) días. El tiempo operatorio fue de 35 (25-45) minutos, iniciándose la alimentación una vez transcurridas 24 (5-48) horas desde la intervención. No se registraron lesiones vaginales ni uretrales, infecciones de la herida o dehiscencias. En los 38 (12,75-45,50) meses de seguimiento, no se han observado estenosis anales. Todos los pacientes defecan con normalidad, 11 (61%) de ellos con necesidad de una pequeña dosis de ablandador de heces.

**Conclusión.** Algunos pacientes con fístula rectoperineal son aptos para AARP, intervención que conlleva un menor tiempo operatorio y una estancia hospitalaria más reducida, con buenos resultados y un menor riesgo de lesión en las estructuras adyacentes.

**PALABRAS CLAVE:** Malformaciones anorrectales; Anorrectoplastia sagital posterior; Anoplastia de avance.

## POSTERIOR RECTAL ADVANCEMENT WITH FISTULA PRESERVATION IN PATIENTS WITH ANORECTAL MALFORMATION. A MULTICENTER STUDY

### ABSTRACT

**Background.** Anorectal malformations (ARM) with rectoperineal fistula are mainly repaired with a posterior sagittal anorectoplasty (PSARP), which can be challenging given the proximity of the fistula to the vagina and urethra. The posterior rectal advancement anoplasty (PRAA), preserves the anterior wall of the fistula without leaving an anterior or a posterior sagittal incision. It is indicated for selected cases of ARM with rectoperineal fistula in which the anterior aspect of the fistula is partially surrounded by sphincter complex.

**Methods.** Multicentre and retrospective study of patients with rectoperineal fistula treated with PRAA. We analysed gender, associated malformations, age, operative time, short and long-term results, and complications.

**Results.** 18 patients aged 93.5 (1.75-312) days underwent PRAA. Surgical time was 35 (25-45) minutes and feeding was started at 24 (5-48) hours postoperatively. There were no vaginal or urethral injuries, no wound infections or dehiscences. Throughout the 38 (12.75-45.50) months of follow-up there were no anal strictures. All patients are passing stool, 11 (61%) of them with the need of a low dose stool softener.

**Conclusion.** Selected patients with rectoperineal fistula can be treated with PRAA with a shorter surgical time and hospital stay. This technique provides good results and lower risk of injury to neighbouring structures.

**KEY WORDS:** Anorectal malformations; Posterior sagittal anorectoplasty; Posterior rectal advancement anoplasty.

## INTRODUCCIÓN

Las malformaciones anorrectales (MAR) son un grupo de anomalías congénitas de los tractos gastrointestinal y urogenital distales que pueden afectar tanto a varones como a mujeres, con una incidencia de 1:5.000 nacidos vivos<sup>(1)</sup>. De todas ellas, la fístula rectoperineal es el subtipo más habitual, representando hasta un 40% de los casos<sup>(2)</sup>. Se trata de un subtipo que puede tratarse quirúrgicamente en las primeras

DOI: 10.54847/cp.2024.04.05

**Correspondencia:** Dra. Carla Ramírez Amorós. Servicio de Cirugía Pediátrica, 1ª planta. Hospital Universitario La Paz. P.º de la Castellana, 261. 28046 Madrid.

E-mail: carlaramirezamoros@gmail.com

Trabajo presentado en el LXI Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica, Tenerife (España), mayo de 2024.

Recibido: Mayo 2024

Aceptado: Septiembre 2024

24 horas de vida, con buenos resultados en términos de continencia fecal.

Hasta 1985, la anoplastia perineal de tipo *cut-back* y la anoplastia con translocación eran los tratamientos de elección para las anomalías inferiores<sup>(3)</sup>. El *cut-back* se empleó como procedimiento primario y definitivo para las fístulas perineales en varones y mujeres, y en estas últimas, también en fístulas vestibulares o vulvares<sup>(4)</sup>. La técnica ofrecía una salida precoz y adecuada para las heces, evitando la obstrucción del colon y la hipertrofia, con la ventaja de no implicar disección anterior ni herida posterior. Sin embargo, el *cut-back* perdió popularidad por culpa de su sobreindicación, tras haber llegado a utilizarse en fístulas rectovestibulares con el aspecto anterior de la fístula fuera del complejo esfinteriano. En los años 80, este abordaje fue sustituido por la anorrectoplastia sagital posterior (ARPSP), que implica una disección anterior y posterior, y una movilización de la fístula y el recto distal. Esta técnica se adoptó como procedimiento de elección para la corrección de todo el espectro de malformaciones anorrectales, si bien es cierto que puede resultar dificultosa dada la proximidad a la vagina y la uretra en mujeres y varones respectivamente<sup>(5,6)</sup>. La ARPSP conlleva la extirpación de la última parte del recto por culpa de la completa movilización de la fístula, que para algunos autores desempeña un papel fundamental en el mecanismo de continencia, y que en esos pacientes puede estar relacionada con la incontinencia fecal residual<sup>(7)</sup>.

La anoplastia de avance rectal posterior (AARP), descrita por primera vez por Halleran et al. en 2021<sup>(8)</sup>, permite preservar la pared anterior de la fístula, sin necesidad de incisión sagital anterior o posterior. Solo está indicada en pacientes con fístula rectoperineal en los que la parte anterior de la fístula se encuentra rodeada (al menos parcialmente) de mecanismo esfinteriano. Nosotros optamos por este abordaje en nuestra población de pacientes debido a la ventaja técnica que supone evitar cualquier disección en las proximidades de la uretra o la vagina, la ausencia de dehiscencias gracias al carácter limitado de la incisión y la conservación del cuerpo perineal, y la importancia que puede tener el recto distal para la continencia.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Se llevó a cabo un estudio retrospectivo multicéntrico en 18 pacientes diagnosticados de fístula rectoperineal y tratados quirúrgicamente con anoplastia de avance rectal posterior entre los años 2019 y 2023 en tres servicios terciarios de cirugía pediátrica. El procedimiento se ofreció a aquellos pacientes en los que el aspecto anterior de la fístula se encontraba parcialmente rodeado de complejo esfinteriano. La fístula se definió como todo orificio perineal menor de lo que se considera el calibre normal de un ano a término (Hegar 10-12). Un ano de tamaño normal ubicado en el límite anterior del esfínter se consideraría un ano anterior, sin necesidad de corrección qui-

rúrgica. Se analizaron las malformaciones asociadas, la edad en el momento de la intervención, el tiempo operatorio, los resultados a corto y largo plazo, y las complicaciones. Todos los pacientes fueron sometidos a un estudio VACTERL para descartar malformaciones asociadas.

Se excluyó a los pacientes con fístula rectoperineal en los que el aspecto anterior de la misma se encontraba completamente fuera del complejo esfinteriano, y que por tanto, requerían de una completa movilización de dicho aspecto. En estos pacientes, se practicó una mini-ARPSP clásica con disección circunferencial de la fístula.

Las etapas operativas de la AARP se muestran en la Figura 1.

Tras identificar el complejo esfinteriano elíptico mediante un estimulador muscular, se practica una incisión sagital en la línea media desde el aspecto posterior de la fístula hasta el borde del aspecto posterior del esfínter anal. Se colocan puntos de tracción en la hemicircunferencia posterior del ano, y se disecciona el recto hasta su pared posterior. Una vez obtenida suficiente longitud de recto, se realiza una incisión de 1-2 mm en el borde posterior, y se avanza el borde rectal posterior hacia la piel en el borde posterior del esfínter, llevando a cabo un colgajo de avance. Se realiza una hemianoplastia, dejando la parte anterior del ano sin disecar y la posterior reconstruida, íntegramente rodeada por el esfínter.

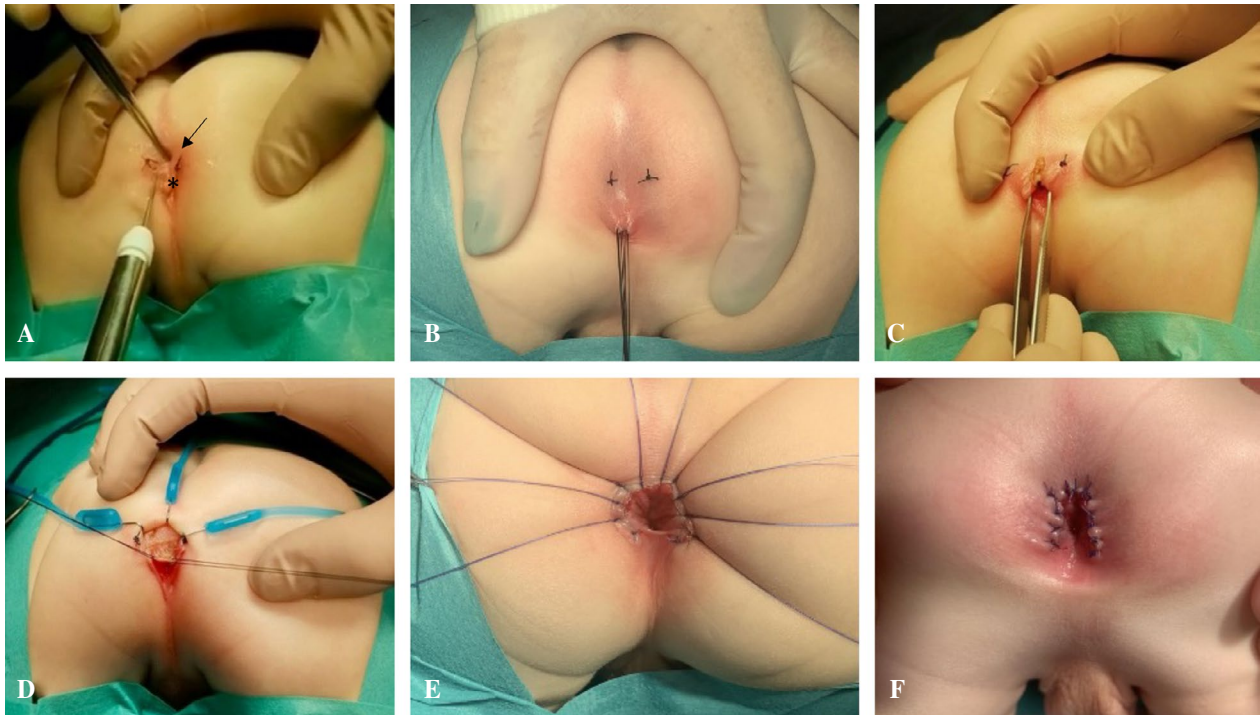
Los datos clínicos se introdujeron en una base de datos (Microsoft Excel 2019; Microsoft Corporation, Redmond, WA, EE.UU.), y el análisis estadístico se llevó a cabo mediante el programa SPSS para MAC OSX (versión 22; IBM Corp., Armonk, NY, EE.UU.). Las variables cualitativas se expresaron en forma de valores absolutos o porcentajes, mientras que las cuantitativas se reflejaron como medianas y percentiles 25 y 75, dado que según la prueba de Kolmogórov-Smirnov, ninguna seguía una distribución normal.

## RESULTADOS

Se practicó una AARP en 18 pacientes con una mediana de edad de 93,5 (1,75-312) días. Solo un (5%) paciente fue diagnosticado antes de nacer, confirmándose el diagnóstico en el alumbramiento. Siete (38%) pacientes fueron tratados en el período neonatal, y 11 (61%), de forma tardía, entre 1 y 29 meses de edad. En 3 (16%) pacientes se realizó un estoma, que fue cerrado posteriormente sin complicaciones.

Once (61%) pacientes presentaban malformaciones congénitas asociadas, de las cuales 3 (16%) tenían al menos 3 malformaciones diagnósticas con asociación VACTERL. Otros 5 (27%) pacientes no cumplían los criterios VACTERL pero presentaban otra anomalía asociada.

Las malformaciones asociadas más frecuentes fueron cardíacas en 6 (33%) casos, renales en 4 (22%) y vertebrales en 3 (16%). Ningún paciente presentaba atresia de esófago ni malformación de las extremidades. Las características de las malformaciones asociadas se recogen en la Tabla I.



**Figura 1.** Etapas quirúrgicas de la anoplastia de avance rectal posterior. A) Identificación del complejo esfinteriano con el estimulador muscular. La flecha señala al centro del esfínter, mientras que el asterisco identifica la fístula. B) Puntos de tracción en la fístula y de marcado en el borde posterior del esfínter. C) Incisión sagital en la línea media desde el aspecto posterior de la fístula hasta el borde del esfínter. D) Puntos de tracción en la hemircunferencia posterior del ano, y disección rectal hasta la pared posterior. E) Colgajo de avance del recto hasta el nivel de la piel en el borde posterior del esfínter. F) Hemianoplastia.

**Tabla I.** Características de los pacientes.

Paciente	Anomalía asociada	VACTERL (sí/no)
1	Hemivértebras. Comunicación interauricular y aneurisma del tabique interauricular	Sí
2	Comunicación interauricular. Aplasia cutis	No
3	Hemivértebras lumbares izquierdas (L3, L5). Comunicación interauricular, síndrome de Noonan. Ectasia pielocalicial con dilatación del uréter izquierdo, hipospadias bilateral-criptorquidia. Tres pares de costillas. Escoliosis lumbosacra	Sí
4	Comunicación interauricular. Ectasia piélica izquierda. Pseudoartrosis de la clavícula derecha.	Sí
5	Comunicación interauricular con estenosis pulmonar leve	No
6	Ninguna	No
7	Comunicación interauricular. Hipospadias glandular. Apéndice preauricular derecho	No
8	Ninguna	No
9	Ectopia renal cruzada y fusión renal izquierda y derecha. Timo ectópico	No
10	Ninguna	No
11	Reflujo vesicoureteral derecho	No
12	Ninguna	No
13	Ninguna	No
14	Ninguna	No
15	Agnesia coccígea	No
16	Ninguna	No
17	Criptorquidia derecha. Pequeño quiste periprostático	No
18	Quiste de remanentes mullerianos	No

La mediana del tiempo operatorio fue de 35 (25-45) minutos. La alimentación se inició transcurridas una mediana de 24 (5-48) horas desde la intervención. En cuanto a las complicaciones, no se registraron lesiones vaginales ni uretrales, infecciones de la herida o dehiscencias.

A lo largo de los 38 (12,75-45,50) meses de seguimiento, no se identificaron estenosis anales. 12 (66%) pacientes fueron sometidos a dilatación proactiva de la anoplastia en las 4 primeras semanas tras la cirugía, sin necesidad de dilataciones posteriores. El tamaño Hegar final fue de 13 (12-14). Todos los pacientes defecan con normalidad, 11 (61%) de ellos con necesidad de bajas dosis de estimulantes o de laxantes osmóticos.

## DISCUSIÓN

En este artículo se describe la experiencia con una técnica quirúrgica reciente<sup>(8)</sup>, la anoplastia de avance rectal posterior (AARP), en tres centros terciarios. Este abordaje está indicado en pacientes con fístula rectoperineal en los que la fístula se encuentra ubicada en el aspecto más anterior de la elipse esfinteriana. Con esta técnica se pretende dejar intacta la pared anterior de la fístula, de forma que las posibilidades de causar una lesión uretral o vaginal sean menores. En la AARP, al contrario que en la ARPSP clásica limitada, se conserva la parte más distal del recto (en ocasiones denominada “tejido fistuloso”), mientras que el ano se coloca dentro del complejo esfinteriano. En el artículo analizamos la aplicación de esta técnica en 18 pacientes, con buenos resultados perioperatorios y postoperatorios en el corto plazo.

A pesar de que la fístula rectoperineal es la lesión más benigna de todas las malformaciones anorrectales, suele cursar con otras anomalías, por lo que debe ser objeto de una evaluación completa para descartar malformaciones asociadas, como malformaciones anorrectales más complejas<sup>(9)</sup>. En nuestra serie, 11 (61%) pacientes tenían algún tipo de malformación asociada, de los cuales 3 (16%) presentaban asociación VACTERL, un síndrome con una incidencia aproximada de entre 1:10.000 y 1:40.000 recién nacidos vivos<sup>(10)</sup>.

La decisión quirúrgica en los pacientes con malformaciones anorrectales depende del tipo de defecto. En el caso de la fístula rectoperineal, la opción habitual es la corrección primaria neonatal con ARPSP<sup>(1)</sup>. El diagnóstico y tratamiento precoces, sobre todo a la vista de su carácter benigno, son importantes para evitar complicaciones. Cuando la fístula rectoperineal se diagnostica tras el período neonatal, como sucedió en el 61% de nuestros pacientes, un diagnóstico tardío puede hacer que se desarrolle megarrecto, o en casos más graves, cursar con distensión abdominal, estreñimiento e impactación fecal, fiebre, vómitos, deshidratación y sepsis<sup>(11)</sup>. Además de estas complicaciones clínicas, el abordaje quirúrgico también conlleva sus propios riesgos. En estos pacientes, la ARPSP es un procedimiento no exento de riesgos, dado que puede dañar las estructuras adyacentes, en cuyo caso la reparación debe

protegerse con una colostomía. En dichos casos, la posibilidad de humedad en el perineo y de contaminación de la herida con heces, moco no estéril y orina crea un entorno más favorable a la aparición de complicaciones como infección de la herida y dehiscencia<sup>(12)</sup>.

Además de la ARPSP, que es el abordaje más utilizado, existen otras técnicas quirúrgicas para el tratamiento de las MAR. La anoplastia tipo *cut-back*, descrita por Bowne y pensada para el llamado “perineo de escopeta/perineo shotgun” en mujeres y el ano ectópico externo en varones, consiste en una incisión posterior de la fístula en la posición normal de la apertura anal, sin sutura del intestino a la piel<sup>(13)</sup>. Sin embargo, dicha técnica deja al paciente sin ningún músculo esfinteriano en torno al aspecto anterior de la apertura anal y se traduce en un cuerpo perineal inadecuado en el caso de las mujeres. Por ese motivo, Potts describió la anoplastia por transferencia, que supone diseccionar la fístula a través de una incisión curvilínea posterior, así como desplazar el recto hacia posterior y suturarlo a la piel por medio de otra incisión superpuesta al músculo esfinteriano<sup>(14)</sup>. Asimismo, existe otra técnica *cut-back* modificada, similar a la descrita por Halleran, pero con un abordaje distinto a la incisión cutánea, con la creación de un colgajo posterior de piel<sup>(4)</sup>.

Con estos dos abordajes en mente, Halleran et al. propusieron la AARP para las fístulas perineales localizadas en el aspecto anterior del complejo esfinteriano<sup>(8)</sup>. La técnica, que coincide exactamente con lo descrito en nuestros métodos, tiene por objeto crear una apertura anal en el centro del complejo esfinteriano sin necesidad de disección rectal anterior y del consiguiente riesgo de lesión uretral y vaginal. La incidencia de dichas lesiones durante la disección de una fístula rectoperineal larga adherida a la vagina o la uretra es nada más y nada menos que del 5%<sup>(15)</sup>, mientras que en el caso de la AARP, ni en la serie de Halleran et al. ni en la nuestra se registró tal complicación. Así pues, la AARP constituye una técnica más sencilla y menos invasiva, además de ser más rápida, puesto que tanto en la serie de Halleran et al. como en la nuestra, todos los casos se completaron en menos de 60 minutos. En cuanto a la indicación de la AARP, conviene subrayar que este abordaje no está indicado en casos de estenosis anal (ano tubular) asociados al síndrome de Currarino. En dichos casos, la técnica quirúrgica de elección sería una incisión sagital posterior clásica con una anoplastia modificada que conservara la mitad del canal anal, tal y como describen Lane et al.<sup>(16)</sup>.

Otra ventaja de la AARP reside en la conservación del recto distal, que algunos autores vinculan a una mejora de la función intestinal. Rutenstock et al. mostraron la presencia de estructuras anales funcionales dentro de la fístula en una serie de pacientes sometidos a manometría rectal preoperatoria de una fístula rectoperineal o rectovestibular, sin diferencias significativas en la manometría postoperatoria tras realizarse una transposición completa de la fístula<sup>(7)</sup>. A pesar de ello, en nuestra serie, se está administrando ablandador de heces a un 27% de los pacientes.

A pesar de que lo normal es que la AARP minimice el riesgo de estenosis postoperatoria gracias a que reduce la disrupción de aporte sanguíneo al recto distal y a que conlleva la realización de una incisión no circunferencial<sup>(8)</sup>, algunos pacientes de nuestra serie fueron sometidos a dilatación de la anoplastia. En esos casos, las dilataciones se practicaron de forma rutinaria (según el protocolo del centro o de los cirujanos), aun y cuando no se registraron estenosis anales. Esta práctica de proceder de manera rutinaria a la realización de dilataciones postoperatorias ha sido puesta en entredicho recientemente por un ensayo controlado aleatorizado<sup>(17)</sup>. Al no practicarse otra incisión que la de la anoplastia, el riesgo de infección de la herida y dehiscencia es menor<sup>(8)</sup>.

El diagnóstico precoz y el tratamiento quirúrgico resultan claves en el manejo de las malformaciones anorrectales. La AARP podría convertirse en la opción habitual para ciertos pacientes con una fístula rectoperineal cuyo aspecto anterior se encuentre dentro del complejo esfinteriano. La técnica ha demostrado estar asociada a un tiempo operatorio y una estancia hospitalaria breves, con buenos resultados y un escaso riesgo de lesión de las estructuras adyacentes. Aún quedan por conocer los datos del seguimiento a largo plazo para determinar el resultado de estos pacientes en términos de continencia, aunque la evolución es prometedora.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Levitt MA, Peña A. Anorectal malformations. *Orphanet J Rare Dis.* 2007; 2(1): 33.
2. Minneci PC, Kabre RS, Mak GZ, Halleran DR, Cooper JN, Afrazi A, et al. Screening practices and associated anomalies in infants with anorectal malformations: Results from the Midwest Pediatric Surgery Consortium. *J Pediatr Surg.* 2018; 53(6): 1163-7.
3. Lin J. Anorectal malformations--update 1998. *Changcheng Yi Xue Za Zhi.* 1998; 21(3): 237-50.
4. Smith EI, Tunell WP, Williams GR. A Clinical evaluation of the surgical treatment of anorectal malformations (imperforate anus). *Ann Surg.* 1978; 187(6): 593.
5. Hong AR, Acuña MF, Peña A, Chaves L, Rodriguez G. Urologic injuries associated with repair of anorectal malformations in male patients. *J Pediatr Surg.* 2002; 37(3): 339-44.
6. Misra D, Chana J, Drake DP, Kiely EM, Spitz L. Operative trauma to the genitourinary tract in the treatment of anorectal malformations: 15 years' experience. *Urology.* 1996; 47(4): 559-62.
7. Rutenstock EM, Zani A, Huber-Zeyringer A, Höllwarth ME. Pre- and postoperative rectal manometric assessment of patients with anorectal malformations. *Dis Colon Rectum.* 2013; 56(4): 499-504.
8. Halleran DR, Coyle D, Kulaylat AN, et al. The cutback revisited — The posterior rectal advancement anoplasty for certain anorectal malformations with rectoperineal fistula. *J Pediatr Surg.* 2022; 57(9): 85-8.
9. Rollins MD, Russell K, Schall K, et al. Complete VACTERL evaluation is needed in newborns with rectoperineal fistula. *J Pediatr Surg.* 2014; 49(1): 95-8.
10. Solomon BD. VACTERL/VATER Association. *Orphanet J Rare Dis.* 2011; 6(1): 56.
11. Eltayeb AA. Delayed presentation of anorectal malformations: the possible associated morbidity and mortality. *Pediatr Surg Int.* 2010; 26(8): 801-6.
12. De la Torre-Mondragón L, Bañuelos-Castañeda C, Santos-Jasso K, Ruiz-Montañez A. Unexpected megarectum: A potential hidden source of complications in patients with anorectal malformation. *J Pediatr Surg.* 2015; 50(9): 1560-2.
13. Browne D. Some congenital deformities of the rectum, anus, vagina and urethra. *Ann R Coll Surg Engl.* 1951; 8(3): 173-92.
14. Potts WJ, Riker WL, DeBoer A. Imperforate anus with recto-vesical, -urethral -vaginal and -perineal fistula. *Ann Surg.* 1954; 140(3): 381-95.
15. Chan KWE, Lee KH, Wong HYV, Tsui SYB, Wong YS, Pang KYK, et al. Outcome of patients after single-stage repair of perineal fistula without colostomy according to the Krickbeck classification. *J Pediatr Surg.* 2014; 49(8): 1237-41.
16. Lane VA, Wood RJ, Reck C, Skerritt C, Levitt MA. Rectal atresia and anal stenosis: the difference in the operative technique for these two distinct congenital anorectal malformations. *Tech Coloproctol.* 2016; 20(4): 249-54.
17. Ahmad H, Skerritt C, Halleran DR, Rentea RM, Reck-Burneo CA, Vilanova-Sanchez A, et al. Are routine postoperative dilations necessary after primary posterior sagittal anorectoplasty? A randomized controlled trial. *J Pediatr Surg.* 2021; 56(8): 1449-53.