

<https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-2-156-161>

Спонтанный лизис уретры при гипоспадии типа хорды у детей

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Е.В. Федорова^{1,2}, И.В. Поддубный^{1,2}, М.Г. Петрова², А.С. Ранишаков^{1,2}, А.А. Суходольский^{1,3}, М.В. Цаца²

¹ Российский университет медицины Минздрава России; д. 20/1, Делегатская ул., Москва, 127473, Россия

² Федеральный научно-клинический центр детей и подростков ФМБА России; д. 20, Москворечье ул., Москва, 115409, Россия

³ ГБУЗ МО Московский областной центр охраны материнства и детства; д. 38, Октябрьский проспект, Люберцы, Московская область, 140002, Россия

Контакт: Федорова Елена Владимировна, fedorova-e2010@mail.ru

Аннотация:

Введение. Гипоспадия типа хорды у детей встречается редко и составляет от 4 до 10% от всех форм гипоспадий. В литературе нет описаний возникновения лизиса передней стенки уретры до выполнения оперативной коррекции.

Клинический случай. Представлено два клинических случая образования кожно-уретрального свища у детей и варианты хирургического лечения по восстановлению уретры.

Заключение. Использование многообразия методик пластики уретры позволяет в каждом конкретном случае создать уретру с хорошими функциональными и косметическими результатами.

Ключевые слова: дети; гипоспадия; гипоспадия типа хорды; уретро-кожный свищ; уретропластика.

Для цитирования: Федорова Е.В., Поддубный И.В., Петрова М.Г., Ранишаков А.С., Суходольский А.А., Цаца М.В. Спонтанный лизис уретры при гипоспадии типа хорды у детей. Экспериментальная и клиническая урология 2024;17(2):156-161; <https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-2-156-161>

<https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-2-156-161>

Spontaneous lysis of the urethra in hypospadias of the chord type in children

CLINICAL CASE

E.V. Fedorova^{1,2}, I.V. Poddubny^{1,2}, M.G. Petrova², A.S. Ranshakov^{1,2}, A.A. Sukhodolsky^{1,3}, M.V. Tsatsa²

¹ Russian University of Medicine of Ministry of Health of Russia; 20/1, Delegatskaya st., Moscow, 127473, Russian Federation

² Federal Scientific and Clinical Center for Children and Adolescents of Federal Medical and Biological Agency of Russia; 20, Moskvorechye st., Moscow, 115409, Russia

³ Moscow Regional Center for Motherhood and Childhood Protection; 38, Oktyabrsky prospect, Lyubertsy, Moscow region, Russia

Contacts: Elena V. Fedorova, fedorova-e2010@mail.ru

Summary:

Introduction. Hypospadias without hypospadias (i.e. chordae hypospadias) in children is rare and accounts for 4 to 10% of all forms of hypospadias. There are no descriptions of the occurrence of the anterior wall of the urethra lysis before surgical correction in the literature.

Clinical case. There are two case reports of percutaneous urethral fistula formation in children and surgical treatment options for urethral reconstruction are presented.

Conclusion. The variety of urethroplasty techniques allows to reconstruct a urethra with satisfactory functional and cosmetic results in each case.

Key words: children; hypospadias; chord type hypospadias; urethrocutaneous fistula; urethroplasty.

For citation: Fedorova E.V., Poddubny I.V., Petrova M.G., Ranshakov A.S., Sukhodolsky A.A., Tsata M.V. Spontaneous lysis of the urethra in hypospadias of the chord type in children. Experimental and Clinical Urology 2024;17(2):156-161; <https://doi.org/10.29188/2222-8543-2024-17-2-156-161>

ВВЕДЕНИЕ

Гипоспадия у детей относится к частой патологии наружных половых органов. Одной из форм гипоспадии является гипоспадия без гипоспадии или гипоспадия типа хорды. Эта форма встречается редко и описывается не во всех наблюдениях. Доля ее среди

всех форм гипоспадии составляет 4–10% [1–4]. За период с 2017 по 2022 год на базе ФНКЦ детей и подростков ФМБА России было прооперировано 43 ребенка с данной формой гипоспадии. И мы столкнулись с таким крайне редким проявлением этой формы, как самопроизвольный лизис передней стенки уретры.

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Представлен опыт хирургического лечения двух детей с гипоспадией в виде хорды в сочетании с изолированным уретро-кожным свищом, образовавшимся самопроизвольно до хирургического лечения.

Ребенок К. в возрасте 2,5 лет поступил в клинику с жалобами на подтекание мочи из отверстия в средней трети ствола полового члена. Со слов матери, ди-

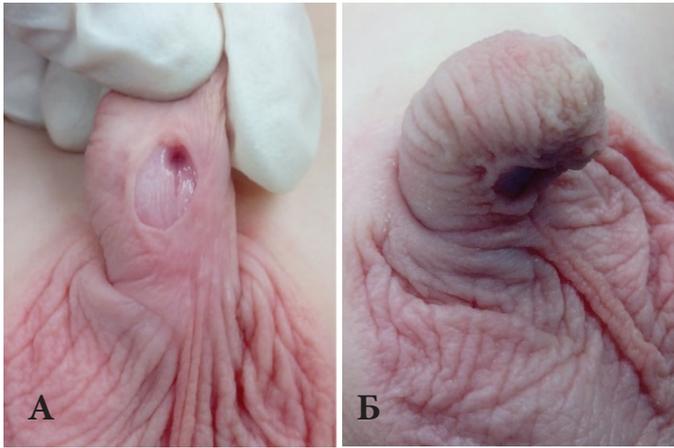


Рис.1. Ребенок К. Общий вид полового члена. А – Свищ передней стенки уретры. Б – Вентральная деформация ствола полового члена
Fig.1. Child K. General view of the penis. А – Fistula of the anterior urethral wall. Б – Ventral deformation of the penile shaft

агноз гипоспадии без гипоспадии был поставлен при осмотре в возрасте 3 месяцев. Наблюдались по месту жительства. За несколько месяцев до поступления в средней трети ствола полового члена появилось точечное отверстие, из которого начала подтекать моча. В дальнейшем свищевое отверстие стало увеличиваться, и к моменту поступления в стационар дефект передней стенки уретры составил 12-13 мм в длину (рис.1 А, Б).

Ребенок был оперирован. В ходе операции выявлен дефект передней стенки уретры на расстоянии 20 мм и отсутствие спонгиозного тела уретры. Тест искусственной эрекции показал наличие деформации кавернозных тел до 40°. Деформация была устранена методикой дорзальной пликацией по Nesbit. Для восстановления пениальной части уретры выполнена уретропластика по Дюплею с применением непрерывного возвратного шва в модификации клиники с использованием шовного материала PDS 7.0. Зона уретрального шва укрыта прилежащими фасциями. Выполнена кожная пластика (рис. 2 А, Б, В).

Уретральный катетер удален на 10 суток. Мочеиспускание широкой струей. Подтекания мочи выявлено не было. Ребенок осмотрен в отдаленном периоде через 4 года после операции. Отмечен хороший косметический и функциональный результат (рис. 3 А, Б, В). ■

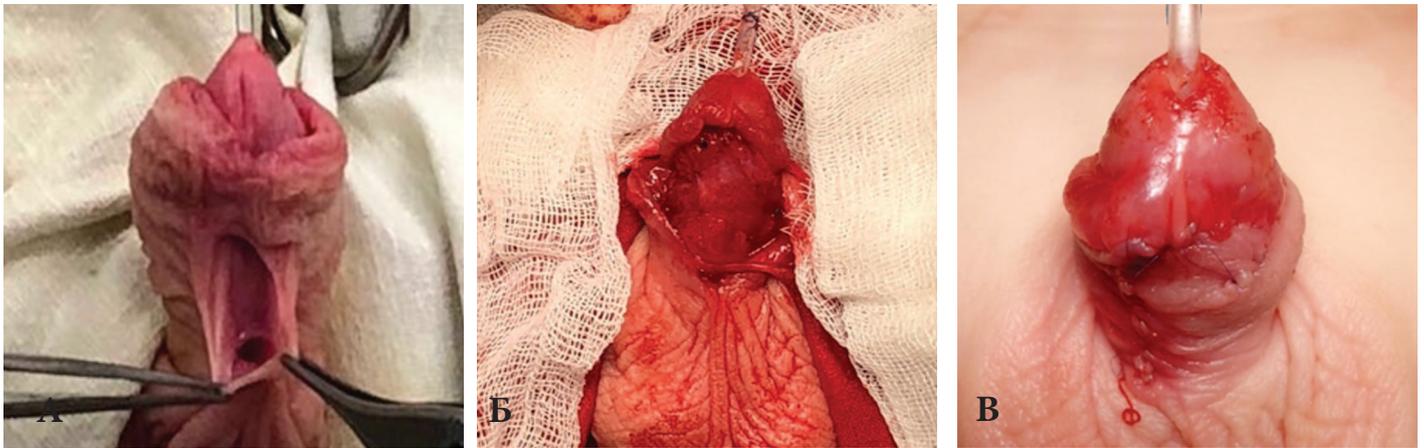


Рис. 2. Ребенок К. Этапы операции. А – дефект передней стенки уретры. Б – покрытие зоны анастомоза. В – внешний вид половых органов после операции
Fig. 2. Child K. А – defect of the anterior urethral wall. Б – covering the anastomosis area. В – appearance of the genitals after surgery



Рис.3. Ребенок К. Отдаленные результаты операции. А, Б – внешний вид половых органов. В – фотография во время эрекции
Fig. 3. Child K. Long-term results of the operation. А, Б – appearance of the genital organs. В – photograph during an erection

Ребенок Б., 11 лет поступил в клинику с жалобами на малый размер полового члена, деформацию и капельное подтекание мочи из свища в средней трети ствола полового члена. Ребенок ранее не оперирован. При осмотре кавернозные тела утоплены в подкожно-жировой клетчатке лона, половой член ротирован влево на 70° (рис. 4 А, Б). Отмечена вентральная деформация ствола полового члена. Меатус располагался на головке. Визуализировалось свищевое отверстие на расстоянии около 30 мм от венечной борозды. При калибровке уретры выявлено отсутствие спонгиозного тела уретры на значительном протяжении, свищ уретры в этой зоне (рис.4 В).

Интраоперационно после этапа дегловинга подтверждено отсутствие передней стенки уретры и спонгиозного тела в этой зоне на протяжении 12-13 мм.

Таким образом, дефицит уретры оставил около 12-15 мм (рис. 5 А). Вентральная деформация кавернозных тел отсутствовала. В данном случае пластику уретры выполняли по методике Orandy непрерывным обвивным швом PDS 7.0 с использованием кожи ствола полового члена. Первым этапом выполнялся шов передней «губы» анастомоза (рис. 5 Б). Затем выполнялась маркировка лоскута (рис.5 В) и шов задней «губы» анастомоза (рис. 5 Г). У данного ребенка кавернозные тела были утоплены в подкожно-жировой клетчатке лона. Это потребовало дополнительного создания пено-скротального угла путем наложения фиксирующих швов между кожей и белочной оболочкой кавернозных тел на 4, 6 и 8 часах. Кожная пластика выполнялась путем перемещения лоскутов крайней плоти в условиях дефицита кожи. На этом этапе предпринята



Рис. 4. Ребенок Б. А, Б – Внешний вид полового члена. В – Калибровка уретры
Fig. 4. Child B. А, Б – Appearance of the penis. В – Urethral calibration

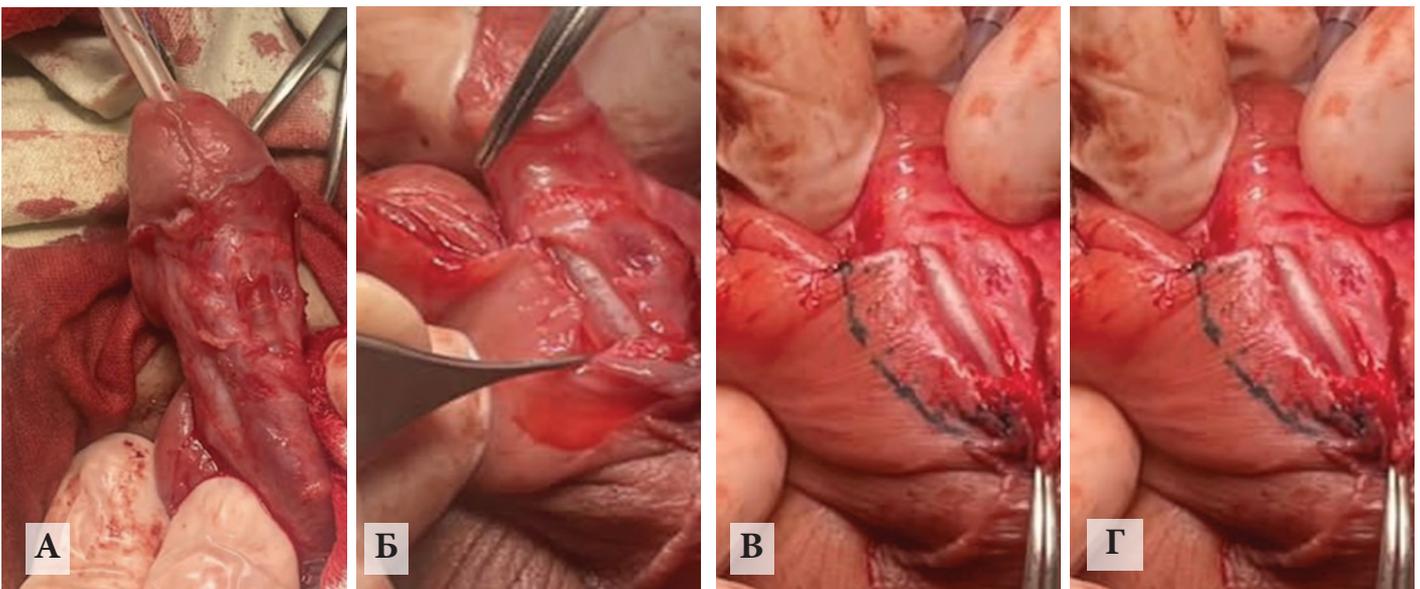


Рис. 5. Ребенок К. Этапы операции. А – дефект уретры. Б – шов передней «губы» анастомоза
Fig. 5. Child K. Stages of the operation. А – urethral defect. Б – suture of the anterior «lip» of the anastomosis. В – marking of the lateral access. Г – suture of the second «lip» of the anastomosis

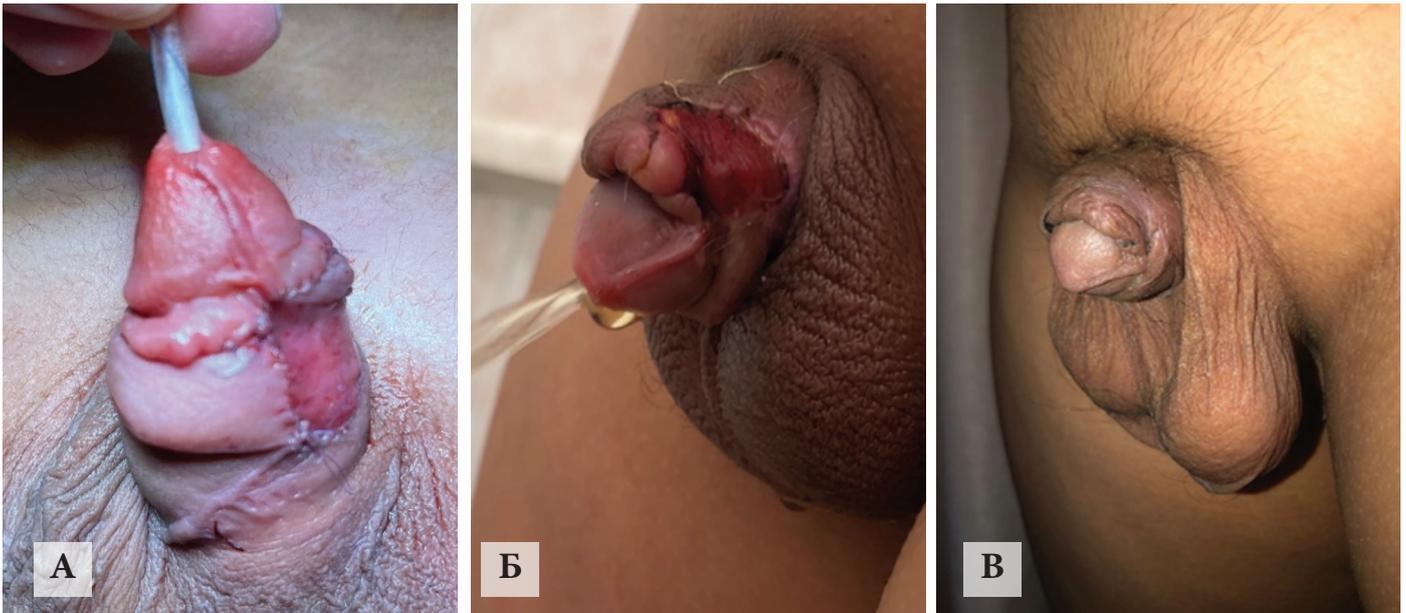


Рис. 6. Ребенок К. Результаты операции. А – внешний вид в ближайшем послеоперационном периоде. Б – мочеиспускание. В – внешний вид половых органов через 1 месяц после операции.

Fig. 6. Child K. Results of the operation. А – appearance in the immediate postoperative period. Б – urination. В – appearance of the genital organs 1 month after surgery

попытка устранения ротации полового члена. Но при оценке отдаленных результатов последнюю устранить не удалось (рис. 6 А).

Послеоперационный период протекал без особенностей. Уретральный катетер удален на 11 суток. Мочеиспускание широкой струей (рис. 6 Б). Уретра состоятельная. Свищей не возникло. Внешний вид через 1 месяц после операции представлен на рисунке 6 В.

ОБСУЖДЕНИЕ

Гипоспадия без гипоспадии относится к особой форме гипоспадии, является достаточно редкой и составляет не более 10% всех больных с гипоспадией. При этой форме из всех характерных признаков гипоспадии отмечается только вентральная деформация ствола полового члена. Меатальное отверстие обычно расположено на головке. Уретра, как правило, сформирована правильно [2, 3, 5-9].

Таким образом, при этой патологии на первое место выступает искривление кавернозных тел и аномальное строение крайней плоти. Искривление может быть обусловлено дефицитом кожи на вентральной поверхности ствола полового члена, дисплазией уретры частично или на всем протяжении с отсутствием в этой зоне спонгиозного тела, деформацией самих кавернозных тел или сочетанием этих факторов. Как правило, причина вентральной деформации устанавливается интраоперационно после этапа degloving («раздевания» полового члена) и проведения теста искусственной эрекции.

Н.Д. Ширяев и И.М. Каганцов в монографии, посвященной порокам развития полового члена, подробно изучили литературные источники, из которых видно, что

первенство в описании этой патологии принадлежит Н. Young [5, 10]. В настоящее время среди урологов принято различать 4 типа искривления в зависимости от выявленной причины данного порока: недоразвития фасции dartos; недоразвития фасции dartos и фасции Buck; гипоплазия дистального отдела уретры с отсутствием в этой зоне спонгиозного тела; диспропорция кавернозных тел [11].

Ю.Э. Рудин к причинам искривления полового члена относит соединительнотканые тяжи на вентральной и боковой поверхности полового члена, наличие хорды, представляющей собой измененную спонгиозную ткань уретры. Автор отмечает, что в 40% случаев в зоне максимальной деформации уретра представлена тонкой пленкой, не окруженной парауретральной спонгиозной тканью. Поэтому в этом месте уретра нерастяжима и может стать причиной деформации полового члена [12].

Объем хирургического лечения напрямую зависит от выявленной причины деформации полового члена: устранение деформации кавернозных тел различными способами, уретропластика или операция ограничивается только мобилизацией кавернозных тел с кожной пластикой [4, 5, 12, 13].

Урологи в основном ссылаются на методики дорзальной пликаций кавернозных тел за белочную оболочку под дорсальным сосудисто-нервным пучком по Nesbit. В ряде случаев используется корпоропластика с замещением дефекта свободным лоскутом внутреннего листка крайней плоти (grafting) [12]. При выраженных деформациях полового члена в ряде случаев отмечается укорочение уретры, в связи с чем для расправления кавернозных тел приходится пересекать уретру с последующей уретропластикой. Как правило, уретру

формируют путем тубуляризации лоскута крайней плоти на сосудистой ножке. Избежать пересечения уретры возможно путем мобилизации висячего отдела уретры на всем протяжении в сочетании с одной из методик расправления кавернозных тел.

Представленные в статье два клинических случая самопроизвольного лизиса передней стенки уретры являются редкими ситуациями. Описаний таких дооперационных осложнений у детей с данным видом гипоспадии при анализе русскоязычных источников и баз PubMed, Scopus найдено не было. Появление этих состояний (образование кожно-уретральных свищей) возможно связано с полным отсутствием пещеристого тела мочеиспускательного канала на значительном протяжении и истончением вентральной стенки уретры и кожи [5, 13]. На наш взгляд, иногда это истончение может оказывать влияние на течение гипоспадии до оперативного вмешательства.

Вполне возможно объяснить спонтанное возникновение свищей уретры при гипоспадии типа хорды с позиции эмбриогенеза данного порока. Вероятнее

всего, имеет место нормальное формирование головчатого отдела уретры. При этом вследствие недостаточного влияния активного метаболита тестостерона-дигидротестостерона, образующегося под влиянием специфического фермента – 5альфа-редуктазы, не происходит нормальное замыкание формирующегося дистального отдела уретры, и определенные ее участки получают резко истонченными. Далее в процессе жизни ребенка под влиянием каких-либо неблагоприятных факторов (повреждения, инфекция и пр.) происходит лизис истонченного участка мочеиспускательного канала.

ВЫВОДЫ

Таким образом, целью нашего сообщения являлось показать редкую ситуацию самопроизвольного возникновения дефекта передней стенки уретры с формированием уретро-кожного свища, образовавшегося до оперативного вмешательства, и варианты хирургического лечения данных больных. ■

ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

- Baskin L. What Is Hypospadias? *Clin Pediatr (Phila)* 2017;56(5):409-18. <https://doi.org/10.1177/0009922816684613>.
- Baskin L. Hypospadias: Pathogenesis, diagnosis, and evaluation. 2021. [Electronic resource]. URL: <https://www.uptodate.com/contents/hypospadias-pathogenesis-diagnosis-and-evaluation>.
- Лопаткин Н.А. Урология. Национальное руководство. М.ГЭОТАР – Медиа 2013:1024. [Lopatkin N.A. Urology. National leadership. M.GEOTAR – Media 2013:1024. (In Russian)].
- Холов Ш.И., Курбанов У.А., Джанобилова С.М., Давлатов А.А. Хирургическая коррекция гипоспадии по типу хорды. *Вестник Авиценны* 2016;(2):56-58. [Kholov Sh.I., Kurbanov U.A., Janobilova S.M., Davlatov A.A. Surgical correction of «hypospadias by the chord type». *Vestnik Avitsenny = Avicenna Bulletin* 2016;(2):56-58. (In Russian)].
- Ширяев Н.Д., Каганцов И.М. Очерки реконструктивной хирургии наружных половых органов у детей. (Часть II – изолированные искривление и торсия полового члена, эписпадия, нарушение полового развития). *Сыктывкар* 2012:96. [Shiryaev N.D., Kagantsov I.M. Essays on reconstructive surgery of the external genitalia in children. (Part II – isolated curvature and torsion of the penis, epispadias, disorders of sexual development). *Syktvykar* 2012:96. (In Russian)].
- Люлько А.В. Хирургическая андрология. МЕДпресс-информ 2005:504 с. [Lyulko A.V. Surgical andrology. MEDpress-inform 2005:504 p. (In Russian)].
- Radmayr C, Bogaert G, Bujons A, Burgu B, Castagnetti M, Hoen LA, et al. EAU Guidelines on Paediatric Urology 2024. [Electronic resource]. URL: <https://uroweb.org/wp-content/uploads/EAU-ESPU-Guidelines-on-Paediatric-Urology-2024.pdf>.
- Merriman LS, Arlen AM, Broecker BH, Smith EA, Kirsch AJ, Elmore JM. The GMS hypospadias score: assessment of inter-observer reliability and correlation with post-operative complications. *J Pediatr Urol* 2013; 9(6 Pt 2):707-12. <https://doi.org/10.1016/j.jpuro.2013.04.006>.
- Halaseh SA, Halaseh S, Ashour M. Hypospadias: A comprehensive review including its embryology, etiology and surgical techniques. *Cureus* 2022;14(7):e27544. <https://doi.org/10.7759/cureus.27544>.
- Youong NH. Genital abnormalities, hermaphroditism and related adrenal diseases. Baltimore, Williams and Wilkins 1937:649 p.
- Devine CJ, Horton CE. Chordee without hypospadias. *J Urol* 1973;110(2):264-7. [https://doi.org/10.1016/s0022-5347\(17\)60183-6](https://doi.org/10.1016/s0022-5347(17)60183-6).
- Рудин Ю.Э., Руненко В.И., Решетникова Л.Б., Аникиев А.В. Лечение гипоспадии типа хорды у мальчиков. *Детская хирургия* 2001;(1):26-31. [Rudin Yu.E., Runenko V.I., Reshetnikova L.B., Anikiev A.V. Treatment of hypospadias of the chord type in boys. *Detskaya khirurgiya = Pediatric Surgery* 2001;(1):26-31. (In Russian)].
- Суров Р.В., Каганцов И.М. Хирургическое лечение гипоспадии у детей: фундаментальные основы и новейшие тенденции. *Андрология и генитальная хирургия* 2017;18(4):34-42. [Surov R.V., Kagantsov I.M. Hypospadias repair in children: fundamental principles and latest tendencies. *Andrologiya i genital'naya khirurgiya = Andrology and Genital Surgery* 2017;18(4):34-42. (In Russian)]. <https://doi.org/10.17650/2070-9781-2017-18-4-34-42>.

Сведения об авторах:

Федорова Е.В. – к.м.н., доцент кафедры детской хирургии «Российский Университет Медицины» Минздрава России, детский уролог-андролог ФНКЦ детей и подростков ФМБА России; Москва, Россия;
<https://orcid.org/0000-0002-5824-4732>

Поддубный И.В. – д.м.н., профессор, заведующий кафедрой детской хирургии «Российский Университет Медицины» Минздрава России, детский уролог-андролог ФНКЦ детей и подростков ФМБА России; Москва, Россия;
РИНЦ Author ID 158297, <https://orcid.org/0000-0002-9077-6990>

Петрова М.Г. – к.м.н., детский уролог-андролог ФНКЦ детей и подростков ФМБА России; Москва, Россия

Раншаков А.С. – ассистент кафедры детской хирургии «Российский Университет Медицины» Минздрава России, детский уролог-андролог ФНКЦ детей и подростков ФМБА России; Москва, Россия;
<http://orcid.org/0000-0002-9431-3395>

Суходольский А.А. – к.м.н., детский хирург, уролог-андролог Московского областного центра охраны материнства и детства, ассистент кафедры детской хирургии «Российский Университет Медицины» Минздрава России; Москва, Россия

Цаца М.В. – детский хирург ФНКЦ детей и подростков ФМБА России; Москва, Россия

Вклад авторов:

Федорова Е.В. – написание текста статьи, 40 %
Поддубный И.В. – редактирования текста статьи, 30 %
Петрова М.Г. – сбор данных о пациентах, 10 %
Раншаков А.С. – сбор данных о пациентах, 10 %
Суходольский А.А. – сбор данных о пациентах, 5 %
Цаца М.В. – сбор данных о пациентах, 5 %

Конфликт интересов: Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Финансирование: Статья подготовлена без спонсорской поддержки.

Статья поступила: 08.04.24

Результаты рецензирования: 18.05.24

Исправления получены: 20.05.24

Принята к публикации: 30.05.24

Information about authors:

Fedorova E.V. – PhD, Associate Professor of the Department of Pediatric Surgery «Russian University of Medicine» of the Ministry of Health of Russia, pediatric urologist – andrologist of the Federal Scientific Research Center for Children and Adolescents of the Federal Medical and Biological Agency of Russia; Moscow, Russia;
<http://orcid.org/0000-0002-5824-4732>

Poddubny I.V. – Dr. Sci., Professor, Head of the Department of Pediatric Surgery «Russian University of Medicine» of the Ministry of Health of Russia, pediatric urologist – andrologist of the Federal Scientific Research Center for Children and Adolescents of the Federal Medical and Biological Agency of Russia; Moscow, Russia; RSCI Author ID 158297,
<http://orcid.org/0000-0002-9077-6990>

Petrova M.G. – PhD, pediatric urologist – andrologist of the Federal Scientific Clinical Center for Children and Adolescents, Federal Medical and Biological Agency of Russia; Moscow, Russia

Ranshakov A.S. – Assistant of the Department of Pediatric Surgery «Russian University of Medicine» of the Ministry of Health of Russia, pediatric urologist– andrologist of the Federal Scientific Research Center for Children and Adolescents of the Federal Medical and Biological Agency of Russia; Moscow, Russia; <http://orcid.org/0000-0002-9431-3395>

Sukhodolsky A.A. – Ph.D., pediatric surgeon, urologist–andrologist at the Moscow Regional Center for Maternal and Child Health, assistant at the Department of Pediatric Surgery at the Russian University of Medicine, Ministry of Health of Russia; Moscow, Russia

Tsatsa M.V. – pediatric surgeon of the Federal Scientific Research Center for Children and Adolescents of the Federal Medical and Biological Agency of Russia; Moscow, Russia

Authors' contributions:

Fedorova E.V. – writing the text of the article, 40%
Poddubny I.V. – editing the text of the article, 30%
Petrova M.G. – collection of patient data, 10%
Ranshakov A.S. – collection of patient data, 10%
Sukhodolsky A.A. – collection of patient data, 5%
Tsatsa M.V. – collection of patient data, 5%

Conflict of interest. The authors declare that there are no obvious or potential conflicts of interest related to the publication of this article.

Financing. The article was made without financial support.

Received: 08.04.24

Peer review: 18.05.24

Corrections received: 20.05.24

Accepted for publication: 30.05.24