

УДК 617. 559-006.2-056.7-089.168.1-053. 2

О.Д. Фофанов

Принципи анатомічного відновлення тазового дна при хірургічному лікуванні природжених вад розвитку – крижово-куприкових тератом у дітей (аналіз літератури і власні рекомендації)

Івано-Франківський національний медичний університет, Україна

Paediatric Surgery (Ukraine). 2025. 3(88): 123-127. doi: 10.15574/PS.2025.3(88).123127

For citation: Fofanov OD. (2025). Principles of anatomical reconstruction of the pelvic floor during surgical treatment of congenital malformations – sacrococcygeal teratoma in children (literature analysis and own recommendations). Paediatric Surgery (Ukraine). 3(88): 123-127. doi: 10.15574/PS.2025.3(88).123127.

Мета – визначити ключові фактори та основні принципи хірургічної техніки, що впливають на функціональний результат при відновленні структур тазового дна при хірургічному лікуванні крижово-куприкових тератом (ККТ) у дітей.

Огляд літератури проведено з використанням PubMed, Elsevier та навчальних посібників. Визначено ключові фактори, що впливають на функціональний результат при відновленні структур тазового дна під час хірургічного лікування ККТ. Описано специфічні зміни крижово-куприкової ділянки, що зумовлені зростанням пухлини. проаналізовано шляхи оптимізації хірургічної техніки при анатомічному відновленні структур тазового дна, після резекції ККТ у дітей. Анатомічний тип пухлини, виразність росту ККТ, ступінь патологічного впливу та проростання в навколишні структури, виразність диспластичних змін скелетно-м'язової та нервової системи – ключові фактори, що впливають на функціональний результат при відновленні структур тазового дна та визначають індивідуальну диференційовану стратегію під час хірургічного лікування ККТ.

Щадна анатомічна дисекція тератоми у межах капсули пухлини, максимальне збереження нервів та м'язових волокон, ідентифікація змінених анатомічних структур та реконструкція відповідно їх нормальної анатомії – основні принципи хірургічної техніки анатомічного відновлення тазового дна під час хірургічного лікування ККТ.

Автор заявляє про відсутність конфлікту інтересів.

Ключові слова: природжені вади розвитку, крижово-куприкова тератома, плід, новонароджена дитина, дитина старшого віку, перинатальний супровід, хірургічне лікування.

Principles of anatomical reconstruction of the pelvic floor during surgical treatment of congenital malformations – sacrococcygeal teratoma in children (literature analysis and own recommendations)

O.D. Fofanov*Ivano-Frankivsk National Medical University, Ukraine*

Aim – to identify key factors and basic principles of surgical technique that influence the functional outcome in the reconstruction of pelvic floor structures during the surgical treatment of sacrococcygeal teratomas (SCT) in children.

The literature review was conducted using PubMed, Elsevier, and textbooks. Key factors influencing the functional outcome of pelvic floor structure restoration during surgical treatment of pelvic floor tumors were identified. Specific changes in the sacrococcygeal region caused by tumor growth were described. Ways to optimize surgical technique for anatomical restoration of pelvic floor structures after pelvic floor tumor resection in children were analyzed. The anatomical type of the tumor, the severity of the growth of the SCT, the degree of pathological influence and germination into the surrounding structures, the severity of dysplastic changes in the musculoskeletal and nervous system are key factors that affect the functional outcome in the reconstruction of pelvic floor structures and determine the individual differentiated strategy in the surgical removal of SCT.

Reviews

Gentle anatomical dissection of the teratoma within the tumor capsule, maximum preservation of nerves and muscle fibers, identification of altered anatomical structures, and reconstruction of their normal anatomy, respectively, are the main principles of the surgical technique for anatomical reconstruction of the pelvic floor in the surgical treatment of SCT.

The author declares that there is no conflict of interest.

Keywords: congenital malformations, sacrococcygeal teratoma, fetus, newborn child, older child, perinatal support, surgical treatment.

Вступ

ККТ – рідкісна природжена пухлина новонароджених і водночас найбільш поширене новоутворення крижово-куприкової ділянки [18]. Прогноз захворювання залежить від розміру, структури, а також типу розташування пухлини (зовнішнього чи внутрішнього) [8]. Поширеність ККТ становить 1:35 000–40 000 живонароджених дітей, найчастіше зустрічається в дівчаток, зі співвідношенням 3:1 [25].

Попри рідкісність цієї патології, останнім часом значно збільшилась кількість дослідників, що займаються вивченням питань діагностики та лікування пацієнтів із ККТ (Швеція, Нідерланди, Японія, Велика Британія, США, Франція) [1,4,20]. На сьогодні більшість вчених займаються розробкою проблем пренатальної діагностики ККТ та прогностичних факторів, що, безперечно, є дуже важливим аспектом перинатального ведення цих критичних пацієнтів [4,20,24,26]. Унаслідок цього упродовж останніх років спостерігається підвищення рівня раннього виявлення тяжких форм ККТ, що раніше закінчувалися антенатальною загибеллю плода [20,26]. Водночас дедалі частіше простежуються повідомлення про застосування малоінвазивних (лазерна, алкогольна абляція живлячих судин, аспірація кісти, амніоредукція) або відкритих фетальних хірургічних втручань [27].

Але, попри стрімкий розвиток хірургічної науки та новітніх технологій, за даними провідних дослідників, що займаються вивченням цього питання, на сьогодні зберігається висока частота виникнення ускладнень, пов'язаних із порушенням функції тазових органів після резекції ККТ [3,7,16]. А саме, аноректальну дисфункцію відзначено, в середньому, у 29,2% дітей, порушення сечовипускання – у 30,1%, пацієнтів [3,7,16]. Водночас у сучасній світовій літературі відсутні нові дослідження щодо визначення факторів, які впливають на функціональний результат при відновленні структур тазового дна, для покращення якості життя дітей після хірургічного лікування ККТ. Все вищевикладене обумовлює актуальність цього дослідження.

Мета дослідження: визначити ключові фактори та основні принципи хірургічної техніки, що впливають на функціональний результат при відновленні структур тазового дна при хірургічному лікуванні крижово-куприкових тератом (ККТ) у дітей.

Огляд літератури проведено з використанням PubMed, Elsevier та навчальних посібників. Дослідження виконано відповідно до принципів Гельсінської декларації. У статті відсутній конфлікт інтересів.

Згідно із сучасними уявленнями про ембріогенез пухлини, основним етіологічним фактором виникнення ККТ є аномальна проліферація клітин вузла Генсена, що локалізується в куприку [20]. Атиповий клітинний ріст може зберігатися і в постнатальному періоді, після резекції ККТ. Тож, за даними R.E. Gross та співавт. (1951), кокцигектомія – ключовий фактор попередження рецидиву пухлини, що визначає довготривалий прогноз після лікування [8]. Відповідно до деяких досліджень, частота рецидивів ККТ у групі без резекції куприка становить 38%, а у групі з резекцією – 0–13% [10,13,28]. Слід зазначити, що вперше термін «куприк» згадується у працях давньогрецького анатома Herophilus у 2 ст. до н.е. [14]. Куприк названий на честь грецького слова «kokktx», через його схожість із вигнутим дзьобом зозулі [11,25]. За іншою теорією французького вченого Jean Riolan the Younger, звук, що утворюється при відходженні газів внаслідок ударення їх об куприк, має схожість із криком зозулі [14].

Хоча куприк є рудиментарною частиною хребетного стовпа, що часто вважається «реліктом хвоста», він відіграє ключову роль у стабілізації компонентів тазового дна, адже є місцем прикріплення м'язово-зв'язкового апарату діафрагми таза [22]. У своїй структурі куприк не містить хребетного каналу, ніжок, пластинок та остистих відростків [29]. У 70–80% випадків він складається з чотирьох куприкових хребців, у решті – трьох або п'яти [22]. Він має передню, задню та дві бічні поверхні, верхівку та основу [29]. Передня поверхня 1–3 сегментів куприка є місцем прикріплення m. coccygeus, 4 сегменти – m. levator ani (рис. 1) [18]. M. levator ani складається з трьох частин: m. pubococcygeus, m. iliococcygeus, m. puborectalis [8]. Правий та лівий m. levator ani сходяться по середній лінії та формують шов [8]. M. coccygeus та m. levator ani формують діафрагму таза. Одночасне скорочення цих м'язів спричиняє підняття/вивертання дистального відділу прямої кишки, що дає змогу довільно контролювати випорожнення кишечника [22]. Також тазова діафрагма

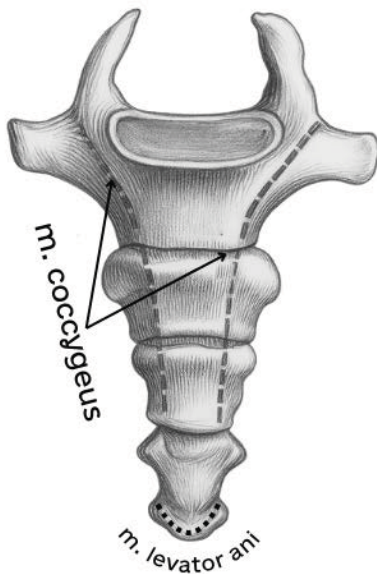


Рис. 1. Передня поверхня куприка – місце прикріплення (позначено пунктирною лінією) *m. coccygeus* та *m. levator ani* (*m. pubococcygeus*, *m. iliococcygeus*) [18]

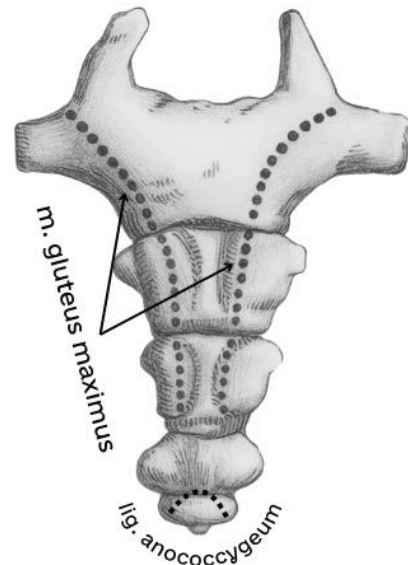


Рис. 2. Задня поверхня куприка – місце прикріплення (позначено пунктирною лінією) *m. gluteus maximus* та *lig. anococcygeum* (*m. sphincter ani externus*) [18]

забезпечує фізіологічне функціонування сечостатевої системи та пологову діяльність у жінок [18].

До задньої поверхні 1–3 сегментів куприка прикріплюється *m. gluteus maximus* [29]. Безпосереднє з'єднання куприка з *m. sphincter ani externus* забезпечується через *lig. anococcygeum*, що є продовженням зовнішнього анального сфінктера, прикріплюється до 4 сегмента задньої поверхні куприка та проходить нижче шва *m. levator ani* (рис. 2) [18].

Відновлення первинної морфології структур тазового дна – ключовий фактор успішного функціонального результату після видалення тератоми. При резекції ККТ, ми вважаємо за доцільне використовувати термін «реконструкція» крижово-куприкової ділянки, адже первинна анатомія зазнає значних змін унаслідок прогресування пухлинного процесу.

Виокремлюють 3 типи диспластичних змін внаслідок патологічного впливу, зумовленого зростанням ККТ: дисплазію/гіпоплазію кісткової тканини, м'язово-зв'язкового апарату та нервів [2,9,17,26]. Гіпоплазія куприка найчастіше зустрічається при солідних гігантських ККТ із високим ступенем експансивного росту [15]. Водночас інтраопераційно може визначатися зачаток куприка з ознаками деформації та відхиленням від серединної осі або його повна відсутність (синдром каудальної регресії) [27].

Ступінь порушення розвитку м'язово-зв'язкового апарату залежить від анатомічного типу пухлини [2]. При переважанні зовнішнього росту (I та II типи за Altman) спостерігається ураження м'язово-

зв'язкового апарату здебільшого задньої поверхні куприка (*m. gluteus maximus*, *lig. anococcygeum*). За наявності внутрішнього компонента (III та IV типи за Altman) пошкоджуються переважно м'язи передньої поверхні куприка (*m. coccygeus*, *m. levator ani*) [6]. Ступінь гіпоплазії м'язів прямо корелює з розміром пухлини. При гігантських тератомах I типу пухлина відтискає м'язи назовні. Водночас *m. gluteus maximus* розпластані по зовнішній округлості пухлини, яка часто має діаметр до 15–20 см, а *lig. anococcygeum* може визначатися у вигляді диспластичного тяжа по нижній поверхні пухлини або не визначатися зовсім [23].

Куприкове сплетення, утворене трьома вентральними гілками S4, S5, та Co1, локалізовано на поверхні *m. coccygeus*, іннервує його і *m. levator ani* [13]. *N. anococcygeum* бере початок від куприкового сплетення та іннервує шкіру анальної ділянки [13]. Ураження нервової системи більш виразне при внутрішньому рості пухлини, що пов'язано з локалізацією куприкового сплетення [22]. Водночас гігантські ККТ III та IV типу поширюються вище S3 та спричиняють ураження крижового сплетення та його гілок, що значно підвищує ризик виникнення функціональних ускладнень у післяопераційному періоді [26].

Розуміння зазначених особливостей патогенезу пухлинного процесу визначає основні принципи хірургічного втручання, зокрема: щадну анатомічну дисекцію тератоми в межах капсули пухлини,

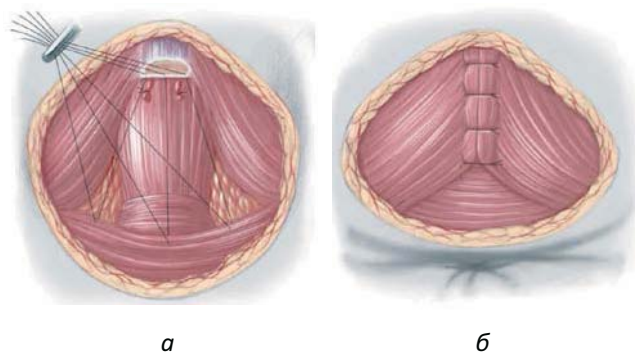


Рис. 3. Етапна реконструкція м'язів тазового дна: *а* – підшивання волокон *m. levator ani* до перихондрію передньої поверхні *sacrum*; *б* – зшивання волокон *m. gluteus maximus* по серединній лінії над ложем пухлини

максимальне збереження нервів та м'язових волокон, ідентифікацію змінених анатомічних структур та реконструкцію відповідно їхньої нормальної анатомії.

Загальновизнаною на сучасному етапі методикою реконструкції тазового дна є підшивання волокон *m. levator ani* до перихондрію передньої поверхні *sacrum*, у місці резекції куприка та зшивання волокон *m. gluteus maximus* по серединній лінії над ложем пухлини (рис. 3) [21].

На нашу думку, основним недоліком даної методики є дистопія прямої кишки та ануса, що наявна (у різних ступенях) у більшості випадків. Це значно впливає на процес дефекації та якість життя дитини. *M. levator ani* здебільшого розпластаний та відтиснений пухлиною, може прикріплюватися до куприка, або ж поширюватися окремими розсипчастими волокнами по нижній чи передній поверхні пухлини. Традиційне підшивання *m. levator ani* до перихондрію *sacrum* спричиняє значний натяг, і як наслідок – дистопію прямої кишки та ануса. Виділено фактори, які сприяють запобіганню цього ускладнення. Вони охоплюють: достатню мобілізацію *m. levator ani* для зменшення натягу останнього, інтраопераційний контроль та моделювання локалізації анального отвору при підшиванні *m. levator ani* до *sacrum*, а також пластику шкірних клаптів.

Крім цього, в сучасній літературі не описані методи відновлення *m. coccygeus* та *lig. anococcygeum*, які відіграють вагомий роль у формуванні тазової діафрагми та фіксуючого апарату прямої кишки. На наше переконання, при можливості ідентифікації *m. coccygeus* та *lig. anococcygeum*, реконструкція вищезазначених структур, із підшиванням їх до *sacrum*, – вагомий додатковий фактор стабілізації тазового дна.

Попри значний розвиток радіології, особливо, новітніх методик променевої терапії, з модульованою інтенсивністю (IMRT), у сучасних дослідженнях не розглянуто можливе застосування методики резекції ККТ зі збереженням куприка, без кокцигектомії, з використанням IMRT [19]. Ця методика дає змогу використовувати навіть найменше променеве навантаження з надзвичайною точністю та вже успішно застосовується при лікуванні різноманітних пухлин [19]. Селективне опромінення куприка, в теорії, може забезпечити елімінацію небезпечного клітинного потенціалу та запобігати розвитку рецидиву ККТ. Натомість збереження куприка могло б забезпечити попередження негативних довгострокових функціональних результатів та підвищення якості життя пацієнтів після резекції пухлини [19].

Таким чином, недосконалість хірургічних підходів при резекції ККТ та реконструкції тазового дна, зумовлює значну кількість функціональних післяопераційних ускладнень та вимагає інтенсивного хірургічного пошуку нових підходів та методик задля підвищення якості життя пацієнтів після резекції пухлини.

Висновки

Анатомічний тип пухлини, виразність росту ККТ, ступінь патологічного впливу та проростання в навколишні структури, виразність диспластичних змін скелетно-м'язової та нервової системи – ключові фактори, що впливають на функціональний результат при відновленні структур тазового дна та визначають індивідуальну диференційовану стратегію під час хірургічного лікування ККТ.

Щадна анатомічна дисекція тератоми в межах капсули пухлини, максимальне збереження нервів та м'язових волокон, ідентифікація змінених анатомічних структур та реконструкція відповідно їхньої нормальної анатомії – основні принципи хірургічної техніки анатомічного відновлення тазового дна при хірургічному лікуванні ККТ.

Автор заявляє про відсутність конфлікту інтересів.

References/Література

1. AbouZeid AA, Mohamed MH, Dahab MM, GadAllah MA, Zaki AM. (2017). Sacrococcygeal teratoma excision: a vertical rather than transverse wound closure. *Ann Pediatric Surg.* 13: 207-212.
2. Bougie E, Padeanu S, Plourde C, Aspirot A, Bouchard S et al. (2023, Apr 18). It is all about form and function: a new approach to giant neonatal sacrococcygeal teratomas. *Pediatr Surg Int.* 39(1): 182.
3. Braungart S, James EC, Powis M, Gabra H et al. (2023, Jan). Sacrococcygeal teratoma: Long-term outcomes. A UK CCLG Surgeons Group Nationwide Study. *Pediatr Blood Cancer.* 70(1).

4. Çalbiyik M, Zehir S. (2023, Jun 30). Teratomas from past to the present: A scientometric analysis with global productivity and research trends between 1980 and 2022. *Medicine (Baltimore)*. 102(26): e34208.
5. Eickmeyer SM. (2017, Aug). Anatomy and Physiology of the Pelvic Floor. *Phys Med Rehabil Clin N Am*. 28(3): 455-460.
6. Fishman SJ, Jennings RW, Johnson SM, Kim HB. (2004, Mar). Contouring buttock reconstruction after sacrococcygeal teratoma resection. *J Pediatr Surg*. 39(3): 439-441.
7. Fumino S, Hirohata Y, Takayama S, Tajiri T, Usui N, Taguchi T et al. (2024, Apr). Long-Term Outcomes of Infantile Sacrococcygeal Teratoma: Results from a Multi-Institutional Retrospective Observational Study in Japan. *J Pediatr Surg*. 59(4): 587-592.
8. Gross RE, Clatworthy HW, Meeker IA. (1951). Sacrococcygeal teratomas in infants and children: A report of 40 cases. *Surg Gynecol Obstet*. 92: 341-353.
9. Handschin AE, Mackowski M, Vogt PM, Peters T. (2010). A new technique for gluteal lifting using deepithelialized dermal flaps. *Aesth Plast Surg*. 34: 96-99.
10. Hasan S, Çeltik Ü, Şakul G, Çelik A, Ergün MO. (2024, Sep 26). Germ Cell Neoplasms of Sacrococcygeal Region: Clinical Characteristics, Outcomes and Analysis of Recurrence after Treatment; A Comprehensive 20-Year Single Center Study. *J Pediatr Res*. 11(3): 149-154.
11. Hyrtl J. (1880). *Onomatologia Anatomica. Geschichte und Kritik der anatomischen Sprache der Gegenwart*. Wien: Wilhelm Braumüller. K.K. Hof- und Universitätsbuchhändler.
12. Jouzova A, Jouza M, Turek J, Gerychova R, Jezova M et al. (2025, Apr 23). Sacrococcygeal teratoma – prognosis based on prenatal ultrasound diagnosis, single-center experience and literature review. *BMC Pregnancy Childbirth*. 25(1): 469.
13. Kayalioglu G. (2009). The Spinal Nerves. Chapter 4. In: *The Spinal Cord*. Editor(s): Charles Watson, George Paxinos, Gulgun Kayalioglu. Academic Press: 37-56.
14. Kraus LA. (1844). *Kritisch-etymologisches medicinisches Lexikon (Dritte Auflage)*. Göttingen: Verlag der Deuerlich- und Dieterichschen Buchhandlung.
15. Kylat RI, Bader M. (2020, Nov 4). Caudal Regression Syndrome. *Children (Basel)*. 7(11): 211.
16. Masahata K, Ichikawa C, Makino K, Abe T, Kim K, Yamamichi T et al. (2020, Nov). Long-term functional outcome of sacrococcygeal teratoma after resection in neonates and infants: a single-center experience. *Pediatr Surg Int*. 36(11): 1327-1332.
17. Mosleh MM, Heo TG, Shin HB, Sohn MJ. (2023, Jan). Sacrococcygeal teratomas: a case-based review from the perspective of individual multidisciplinary experts. *Childs Nerv Syst*. 39(1): 57-64.
18. Mostafa E, Varacallo MA. (2023, Jun 5). Anatomy, Back, Coccygeal Vertebrae. In: *StatPearls [Internet]*. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2025 Jan-. PMID: 31751060.
19. Paulino AC, Mazloom A, Terashima K, Su J, Adesina AM, Okcu MF et al. (2013, Jul 15). Intensity-modulated radiotherapy (IMRT) in pediatric low-grade glioma. *Cancer*. 119(14): 2654-2659. Epub 2013 Apr 30. doi: 10.1002/cncr.28118. PMID: 23633429.
20. Phi JH. (2021, May). Sacrococcygeal Teratoma: A Tumor at the Center of Embryogenesis. *J Korean Neurosurg Soc*. 64(3): 406-413.
21. Puri P, Höllwarth ME. (Eds.). (2019). *Pediatric Surgery*. Springer Surgery Atlas Series: 440.
22. Raizada V, Mittal RK. (2008, Sep). Pelvic floor anatomy and applied physiology. *Gastroenterol Clin North Am*. 37(3): 493-509.
23. Shalaby MS, Dorris L, Carachi R. (2014). The long-term psychosocial outcomes following excision of sacrococcygeal teratoma: a national study. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 99: F149-152.
24. Shue E, Bolouri M, Jelin EB, Vu L, Bratton B, Cedars E et al. (2013). Tumor metrics and morphology predict poor prognosis in prenatally diagnosed sacrococcygeal teratoma: a 25-year experience at a single institution. *J Pediatr Surg*. 48: 1225-1231.
25. Sugar O. (1995). Coccyx. The bone named for a bird. *Spine*. 20: 379-383.
26. Taguchi T. (2019, Jul). Sacrococcygeal teratoma: Nationwide survey and guidelines. *Pediatr Int*. 61(7): 633.
27. Van Mieghem T, Al-Ibrahim A, Deprest J, Lewi L, Langer JC, Baud D et al. (2014). Minimally invasive therapy for fetal sacrococcygeal teratoma: case series and systematic review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 43: 611-619.
28. Wang Y, Wu Y, Wang L, Yuan X, Jiang M, Li Y. (2017, Jan 2). Analysis of Recurrent Sacrococcygeal Teratoma in Children: Clinical Features, Relapse Risks, and Anorectal Functional Sequelae. *Med Sci Monit*. 23: 17-23.
29. Woon JT, Stringer MD. (2012, Mar). Clinical anatomy of the coccyx: A systematic review. *Clin Anat*. 25(2): 158-167.

Відомості про автора:

Фофанов Олександр Дмитрович – д.мед.н., проф., зав. каф. дитячої хірургії з курсом клінічної анатомії та оперативної хірургії ІФНМУ. Адреса: м. Івано-Франківськ, вул. Є. Коновальця, 132; тел./факс: +8 (0342) 52-56-49. <https://orcid.org/0000-0003-1437-4161>.

Стаття надійшла до редакції 12.07.2025 р., прийнята до друку 16.09.2025 р.