

УДК 616.711.8+618.132-006.2:616-053

**В.С. Коноплицький¹, В.Б. Гончарук², О.М. Шишковський²,
Ю.Є. Коробко¹, І.В. Саприга¹, О.В. Пасічник¹**

Пресакральні кісти в дітей

¹Вінницький національний медичний університет імені М.І. Пирогова, Україна
²КНП «Вінницька обласна дитяча клінічна лікарня Вінницької обласної ради», Україна

Modern Pediatrics. Ukraine. (2024). 4(140): 73-82. doi: 10.15574/SP.2024.140.73

For citation: Konoplytskyi VS, Honcharuk VB, Shyshkovsky OM, Korobko YuYe, Sapriga IV, Pasichnyk OV. (2024). Presacral cysts in children. Modern Pediatrics. Ukraine. 4(140): 73-82. doi: 10.15574/SP.2024.140.73.

Пресакральна епідермальна кіста — рідкісне вроджене утворення в педіатричній практиці ектодермального походження, з ектодермальних залишків тканин, які зміщуються під час ембріогенезу через порушення розвитку оточуючих структур. Пресакральні дермоїдні кісти становлять менше 5% усіх пухлиноподібних утворень пресакрального простору. Пресакральні утворення можуть мати нервову, судинне/лімфатичне, мезенхімальне або змішане (як-то медулоепітеліома) походження, бувають первинними (при вогнищевих захворюваннях) або системними (при мультифокальних захворюваннях). Пресакральні кісти часто трапляються як випадкові знахідки через свою незвичайну локалізацію та повільний ріст, що забезпечує їхній тривалий безсимптомний перебіг. Больовий симптом зазвичай пов'язаний із вторинним інфікуванням і злоякісним переродженням.

Мета — висвітлити питання діагностики та лікування пресакральних кіст за даними джерел літератури та з власного досвіду.

Пресакральні кісти в дітей належать до патології, що рідко трапляється і потребує значних діагностичних зусиль у плані візуалізації та диференційної діагностики. Лікування пресакральних кіст у дитячому віці має бути лише оперативним, що полягає в екстирпації утворення з обов'язковою морфологічною верифікацією остаточного діагнозу. Під час вибору операційного доступу при екстирпації пресакральних кіст слід враховувати дані методів візуалізації локалізації утворень у пресакральному просторі з урахуванням висоти їхнього проксимального полюсу для запобігання можливих периопераційних ускладнень. За найменшої можливості, екстирпацію кіст потрібно проводити максимально ощадно, з метою запобігання пошкодженню їхніх стінок та ймовірному обсіменінню тотипотентними клітинами пресакрального простору, а також для попередження рецидивів патології.

Дослідження виконано згідно з принципами Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду батьків дитини.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

Ключові слова: кишкова непрохідність, діти, операційний доступ, периопераційні ускладнення, пресакральна кіста, перфорація прямої кишки, пухлина.

Presacral cysts in children

V.S. Konoplytskyi¹, V.B. Honcharuk², O.M. Shyshkovsky², Yu.Ye. Korobko¹, I.V. Sapriga¹, O.V. Pasichnyk¹¹National Pirogov Memorial Medical University, Vinnytsia, Ukraine²CEI «Vinnytsia Regional Children's Clinical Hospital of Vinnytsia Regional Council», Ukraine

Presacral epidermal cyst is a rare congenital formation in pediatric practice of ectodermal origin, from ectodermal remnants of tissues that are displaced during embryogenesis due to the development of surrounding structures. In general, presacral dermoid cysts make up less than 5 % of all tumor-like formations of the presacral space. Presacral formations can have a nervous, vascular/lymphatic, mesenchymal or mixed (like medulloepithelioma) origin, they can be primary (in focal diseases) or systemic (in multifocal diseases). Presacral cysts are often encountered as incidental findings, due to their unusual localization and slow growth, which ensures their long asymptomatic course. The painful symptom is usually associated with secondary infection and malignant transformation.

The aim is to highlight the experience of diagnosis and treatment of presacral cysts based on literature sources and own experience.

Presacral cysts in children are a rare pathology that requires significant diagnostic efforts in terms of visualization and differential diagnosis. Treatment of presacral cysts in childhood should be only operative, consisting in extirpation of the formation with mandatory morphological verification of the final diagnosis. The choice of operative approach for the extirpation of presacral cysts should take into account the data of visualization methods of the localization of formations in the presacral space, taking into account the height of their proximal pole to prevent possible perioperative complications. As far as possible, extirpation of cysts should take place as sparingly as possible, in order to prevent damage to their walls and the possibility of probable insemination by totipotent cells of the presacral space and prevention of recurrences of the pathology. The research was carried out in accordance with the principles of the Declaration of Helsinki. Informed consent of the child's parents was obtained for the research.

The authors declare no conflict of interest.

Keywords: intestinal obstruction, children, surgical access, perioperative complications, presacral cyst, perforation of the rectum, tumor.

Уражувати пресакральну ділянку в дітей можуть різні типи утворень як вродженого, так і набутого (у тому числі внаслідок запалення) генезу, з приблизною частотою 1:40 000 усіх госпіталізацій [10]. Зареєстрована захворюваність становить 0,0025%, переважає серед жіночої статі [18]. У цілому пресакральні дермоїдні кісти ста-

новлять менше 5% усіх пухлиноподібних утворень пресакрального простору [36].

Пресакральні утворення можуть мати нервову, судинне/лімфатичне, мезенхімальне або змішане (як-то медулоепітеліома) походження, бувають первинними (при вогнищевих захворюваннях) або системними (при мультифокальних захворюваннях) [4,24,25,29].

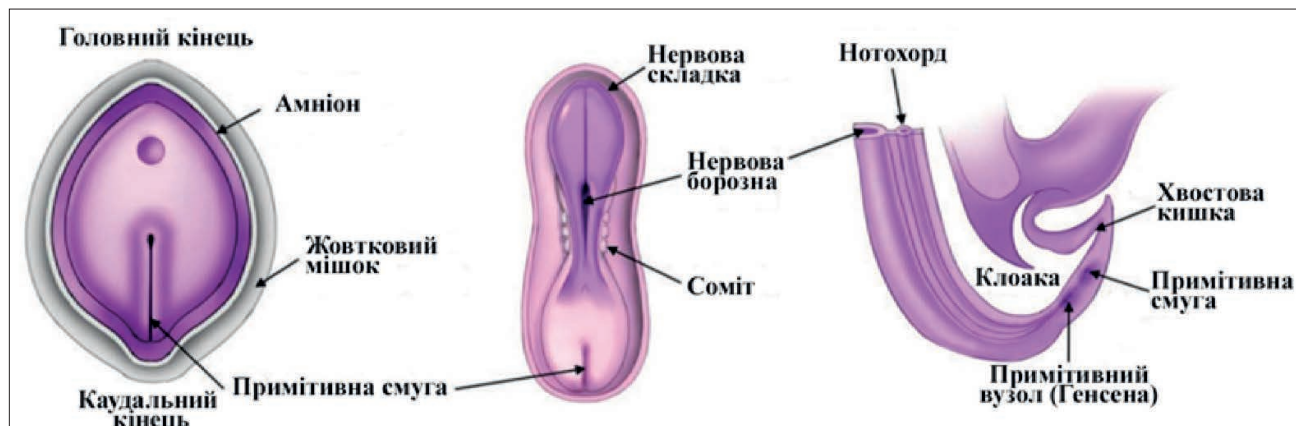


Рис. 1. Схема ембріонального розвитку каудального відділу тулуба зародка: I — термін гестації 16 діб: простежується примітивна смуга, яка являє собою поздовжній гребінь ендодермальних клітин каудального відділу біламінарного ембріонального диска; II — термін гестації 20 діб: визначається зміщення примітивної смужки в каудальному напрямку та її регресія; III — термін гестації 28 діб: спостерігається регрес примітивної смужки та вузла Генсена, який розташований вентральніше крижово-куприкового відділу, що розвивається [48]

Пресакральна епідермальна кіста — рідкісне вроджене утворення в педіатричній практиці ектодермального походження, з ектодермальних залишків тканин, які зміщуються під час ембріогенезу через порушення розвитку оточуючих структур [2].

Зважаючи на такий широкий спектр тканинного походження утворень, важливим є знання функціональної анатомії пресакральної ділянки та особливостей візуалізації її вражень у педіатричній практиці [28].

Пресакральний (задньопрямкишковий) простір розташований між задньою поверхнею прямої кишки та передньою поверхнею крижово-куприкової частини хребта. Важливим у розумінні формування цієї анатомічної ділянки є особливості її ембріогенезу, який відштовхується від примітивної смужки, що утворена за рахунок проліферації ектодермальних клітин, які рухаються до середньої лінії зародка. Первинна смужка складається з тотипотентних клітин, здатних трансформуватися в клітини будь-якого типу. Примітивна смужка утворює внутрішньозародкову мезодерму, поперечну перетинку та хорду, визначаючи майбутню краніо-каудальну вісь, поділяючи його на ліву та праву половини. Після формування внутрішньозародкової мезодерми примітивна смужка зазвичай регресує, зникаючи повністю до кінця першого місяця гестації (рис. 1). Якщо тотипотентні клітини первинної смужки залишаються в подальшому, вони сприяють розвитку різних новоутворень пресакрального простору, визначаючи їхній тип [40,45]. До вроджених або набутих утворень пресакрального простору

в дітей різного віку належать кістозні утворення різного походження [24].

Класифікаційні ознаки. Пресакральні маси належать до гетерогенної групи уражень, варіабельність яких поширюється від доброякісних кіст до злоякісних пухлин. Пресакральні кісти, згідно з класифікацією I. Hassan та E.D. Wietfedlt, відносяться до вроджених новоутворень, схильних до збільшення [13].

Відповідно до хірургічної анатомії співвідношення сусідніх органів та оточуючих тканин, згідно з Консенсусом китайських експертів зі стандартизованого лікування пресакральних кіст, виділяють дві локалізації утворень: центральне та асиметричне (рис. 2).

Центральна кіста — основна маса утворення, розташована позаду аноректуму перед крижовою кісткою і верхнім своїм полюсом, може досягати S₂, а нижнім — підшкірної клітковини/шкіри позаду ануса. Середня та верхня частини передньої стінки кісти щільно прилягають до прямої кишки або задньої частини піхви. Часто передня стінка кісти щільно прилягає до відхідниково-прямокишково-промежинних м'язів, а задня має тісний зв'язок із фасцією куприка та мембранозні зрощення із крижовою фасцією. Бокові стінки кісти прилягають до великого сідничного м'яза та *musculus (m.) puborectalis*, досягаючи сідничного горба. При центральному варіанті локалізації кісти більшість її стінок спаяна з великим сідничним м'язом та *m. puborectalis*.

Ексцентрична кіста — основна маса утворення локалізована з одного боку пресакрально-

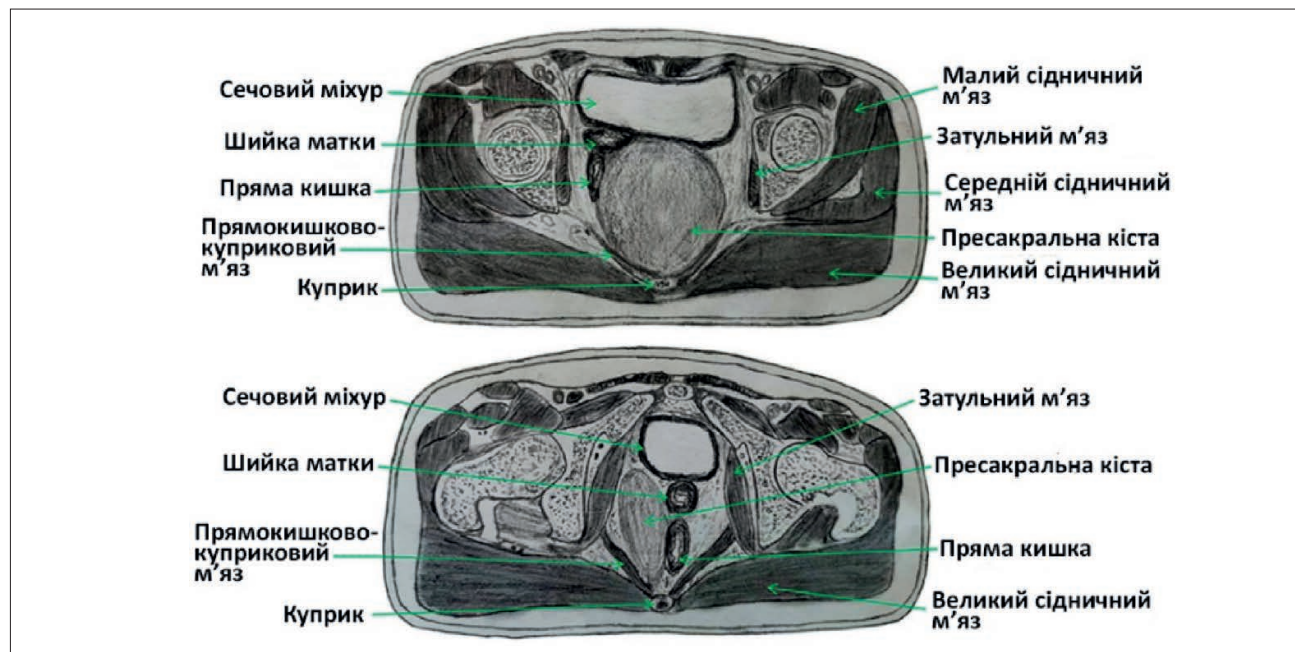


Рис. 2. Схема варіантів локалізації пресакральних кіст: А — центральна, Б — ексцентрична [43]

го простору. Передня стінка кісти прилягає до лобка та м'язів, які до нього прикріплені. Прилягаюче положення задньої стінки переважно аналогічне з варіантом центральної локалізації кісти. Сусідніми структурами медіальної стінки кісти в жінок є стінка піхви, у чоловіків — передміхурова залоза, стінки прямої кишки, відхідниково-промежинно-прямокишкові м'язи. Латеральна стінка кісти щільно пов'язана з прилеглими структурами, зокрема, зі зв'язками сідничного горба, великим сідничним м'язом, куприком, *m. puborectalis*, *m. iliococcygeus* та *m. pubococcygeus* [43].

Розуміння центрації розташування кісти відносно оточуючих анатомічних структур має важливе значення в попередженні післяопераційних ускладнень, оскільки видалення кісти може передбачати резекцію куприка, пересічення крижово-куприкової зв'язки та порції *m. levator ani*, поверхневий шар зовнішнього анального сфінктера (не пошкоджуючи внутрішнього анального сфінктера).

Клініка. Пресакральні кісти часто трапляються як випадкові знахідки, через свою незвичайну локалізацію та повільний ріст, що забезпечує їхній тривалий безсимптомний перебіг. Больовий симптом зазвичай пов'язаний із вторинним інфікуванням і злоякісним переродженням [47].

Структурна будова. Стінка кісти зазвичай тонка, вистелена багатошаровим плоским епітелієм із виразним шаром зернистих клітин,

що оточують суміш лусочкових залишків, холестерину, кератину та води [3,12].

Діагностика. Оскільки клінічні прояви пресакральних кіст часто неспецифічні, візуалізація відіграє провідну роль в їхній діагностиці та диференціації, визначенні програми лікування. З метою точної інтерпретації результатів променевих методів діагностики необхідно чітко розуміти конкретні переваги та обмеження кожного з методів візуалізації.

Правильна первинна діагностика патології та адекватне лікування важливе для зниження ризику розвитку патологічного процесу і його ускладнень, таких як нетримання калу [20].

Зазвичай біопсія, або голкова (у тому числі тонкоголкова) аспірація, не обґрунтована через можливий ризик поширення злоякісних пухлин і ймовірне вторинне інфікування стерильного вмісту кістозного утворення і/або пресакрального простору [27,38].

Трансректальне ультразвукове дослідження (УЗД) сприяє визначенню мультикістозної природи утворення, наявності в його порожнинах желеподібного вмісту або елементів (залишків) запалення.

Під час комп'ютерної томографії (КТ) кіста візуалізується у вигляді дискретної пресакральної маси зниженої щільності з чітко окресленими краями, щільністю води або м'яких тканин залежно від вмісту кісти. Стінки кісти можуть містити кальцинати. При великих розмірах кіст/кісти пряма кишка зміщена вперед,

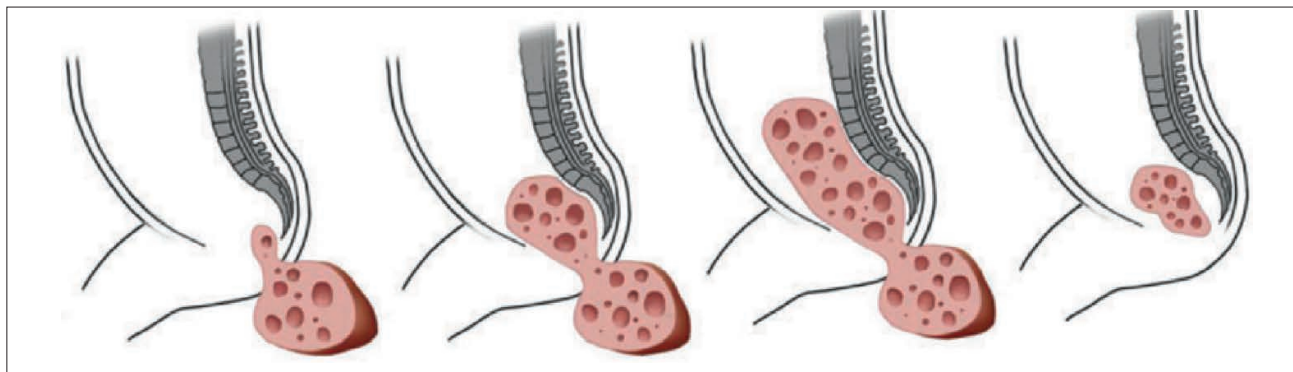


Рис. 3. Морфологічна класифікація крижово-куприкових тератом згідно з секцією Американської академії дитячої хірургії: I — зовнішній тип; II — зовнішньо-внутрішній тип (форма «гантели»); III — із переважанням внутрішнього компонента; IV — внутрішній тип [48]

що іноді може зумовлювати клінічну симптоматику кишкової непрохідності [51]. Супутня навколишня вісцеральна інвазія, що проявляється втратою дискретних меж, може свідчити про злоякісний або запальний процеси [36].

Характеристика сигналу під час магнітно-резонансної томографії (МРТ) залежить від наявності ускладненого перебігу патології (інфекції, запалення, злоякісних змін), рідинних і потенційно небезпечних ускладнень. МРТ дає змогу диференціювати можливі ураження кісток, спинномозкового каналу та мозкових оболонок або ознаки злоякісного переродження (неоднорідна інтенсивність сигналу при T2, нерівномірні потовщення стінки кісти) [11,47].

На МРТ високі сигнали T1 зумовлені присутністю в кістозних утвореннях муцинозного вмісту та жиру [7]. На МРТ епідермоїдні кісти проявляються як гіпоінтенсивні T1 та гіперінтенсивні T2 утворення з дифузиею, іноді з внутрішньо вогнищевими ділянками T2 через присутність кератину [39]. За ускладненого перебігу: T1 — високі компоненти сигналу можуть виникати внаслідок наявності муцинозного матеріалу, високого вмісту білка або внутрішньокістозного крововиливу; T2 — компоненти низького сигналу можуть виникати через крововиливи або наявність кератину [17].

Деякі сучасні дослідники вважають, що КТ має переваги перед МРТ у візуалізації утворень пресакральної ділянки [6,33,30,46].

Диференційна діагностика. Кістозні утворення пресакральної ділянки слід диференціювати з дермоїдними та епідермоїдними кістами, з *adrenal rest tumors*, хордомами, переднім крижовим менингоцелем, кістозними гамартомами, кістами і/або подвоєнням дистальних відділів товстої кишки, післяопераційним ретроектальним абсцесом, синдромом (тріадою)

Куррарино, ОНVIRA синдром тощо [16,23,32,47]. Кісткові дефекти можуть спостерігатися при дермоїдах, нейроентеральних і товстокишкових кістах. Останні зазвичай містять кальцифікати у своїй стінці та внутрішні перетинки. Крім того, слід пам'ятати, що переднє крижове менингоцеле може одночасно дублюватися поширенням кістозного утворення на пряму кишку [11].

Особливе значення в диференційній діагностиці належить крижово-куприковим тератомам, особливо при IV типі їхньої локалізації (рис. 3) [15,21].

Лікування. Хірургічна резекція залишається стандартним методом лікування пресакральних кіст, навіть за їхнього безсимптомного перебігу, оскільки вони можуть містити злоякісні новоутворення. Існують три різновиди доступу при резекції: передній (трансабдомінальний), задній (промежинний) та комбінований (черевно-промежинний). Пухлини, локалізовані вище за рівень S₄, можуть бути видалені через передній або комбінований доступи. При більш низьких локалізаціях доцільним є задній доступ [38].

Сучасна хірургічна концепція лікування пресакральних кіст у дітей передбачає повну резекцію її стінок без пошкодження останніх, із поряд розташованою крижово-куприковою фасцією (за потреби, для повного видалення крижово-куприкової фасції рекомендована резекція куприка), з метою попередження можливих рецидивів кісти [42]. З цією ж метою не рекомендована алкоголізація стінок кісти і використання елекрокоагуляції для порушення їхньої секреторної функції.

Лікування патології шляхом черезшкірної декомпресії встановленням дренажу не рекомендоване через короткотривалий ефект, за винятком випадків, коли кіста стискає пряму

кишку і/або уретру, викликаючи гострі порушення дефекації та сечовипускання. Трансректальне або трансанальне дренування кістозного вмісту також не рекомендоване через високу ймовірність інфікування тазових органів і клітковинних просторів таза та заочеревинного простору.

З метою зменшення болючості можна видаляти пухлини ендоскопічним (лапароскопічним) методом [9,19,50].

Незалежно від обраного способу (відкритого або мініінвазивного) резекції пухлини, особливо обережним має бути її відділення від прямої кишки, щоб уникнути формування кишкових нориць, які ускладнюють післяопераційний перебіг у 3% випадків [13]. Під час вибору способу резекції пресакральних утворень слід враховувати можливість її радикального та повного видалення, оскільки кількість їхніх післяопераційних рецидивів досягає 23% [30].

Трансперинеальний поздовжній доступ рекомендований при невеликих за обсягом і вмістом кістах, верхній полюс яких розташований нижче за рівень S₄ та передбачає за необхідності резекцію тіла S₄–S₅. При цьому доступі лінію розрізу розташовують уздовж або паралельно сідничній складці. Загальний обсяг втручання передбачає розсічення частини великого сідничного м'яза та *m. levator ani* до крижового відростка, резекцію куприка (за потреби), під контролем трансректально введеного пальця оператора, з метою захисту прямої кишки від пошкодження. Доцільно такий доступ використовувати як при центральній, так і при асиметричній локалізаціях пресакральної кісти [1,5].

Пресакральний поперечний дугоподібний доступ рекомендований при кістах, верхній полюс яких розташований нижче за рівень S₂. Положення пацієнта літотомічне. Використовуючи кінчик куприка як орієнтир, планують лінію розрізу між ним і відхідником, а зліва та справа – до сідничних горбів. За ходом втручання відбувається розтин куприка, прямокишково-куприкової зв'язки та певної порції великого сідничного м'яза [42].

Трансперинеальний інтерсфінктерний розріз тазового дна доцільно використовувати тільки для резекції кіст низької локалізації і невеликого об'єму. Розріз V-подібний або радіальний (безпосередньо за анусом). Ця техніка передбачає препарування сфінктерного простору тупим шляхом, догори до рівня *m. levator ani*, без

конфлікту з відхідником та анальними сфінктерами [34,35].

Лапароскопічна пресакральна резекція кісти рекомендована при первинному лікуванні за умови пухкого простору між прямою кишкою та крижово-куприковим відділом хребта, без пересічення задньої частини крижової кістки. При великих розмірах кістозних утворень, для полегшення маніпуляцій у ділянці оперативної інтервенції, можлива попередня аспірація вмісту утворення.

Відкрите пресакральне висічення кісти рекомендоване для відкритої хірургії за наявності відомостей про можливий виразний спайковий процес у параректальній клітковині, а також за високих локалізацій кіст [26,31,37].

Комбінований абдомінально-промежинний доступ рекомендований при великих розмірах пресакральних кіст, коли їхній верхній полюс локалізується вище за рівень S₄ або прогнозується щільне зрощення нижнього полюса кісти з оточуючими тканинами крижово-куприкової ділянки. Операційний доступ – пресакральний поперечний дугоподібний або поздовжній. Перший етап операції полягає в лапаротомічному або лапароскопічному виділенні кісти до рівня м'язів тазового дна. Другим етапом втручання є виділення дистального полюса кісти через перинеальний доступ. Цей метод відносно складний у виконанні через необхідність інтраопераційної зміни положення на операційному столі. На жаль, у післяопераційному періоді після цієї процедури можуть виникати ускладнення у вигляді сексуальної дисфункції та порушень сечовипускань, що зумовлено можливим пошкодженням підчеревного сплетення під час абдомінальної інтервенції.

Загалом, незалежно від обраного способу видалення утворення, у післяопераційному періоді можливі досить різнопланові ускладнення: пресакральні кровотечі на різних рівнях; пошкодження (перфорація) прямої кишки; тривале загоєння післяопераційної рани в ділянці куприка; вторинне інфікування післяопераційної рани; утворення прямокишкової нориці; формування анальної дисфункції внаслідок пошкодження м'язів анального сфінктера; травматизація тазових нервів [8,14,41,44]. Це слід враховувати під час вибору операційного доступу та безпосередньо під час хірургічного втручання, шляхом ретельного ошадливого препарування тканин строго під контролем зору.

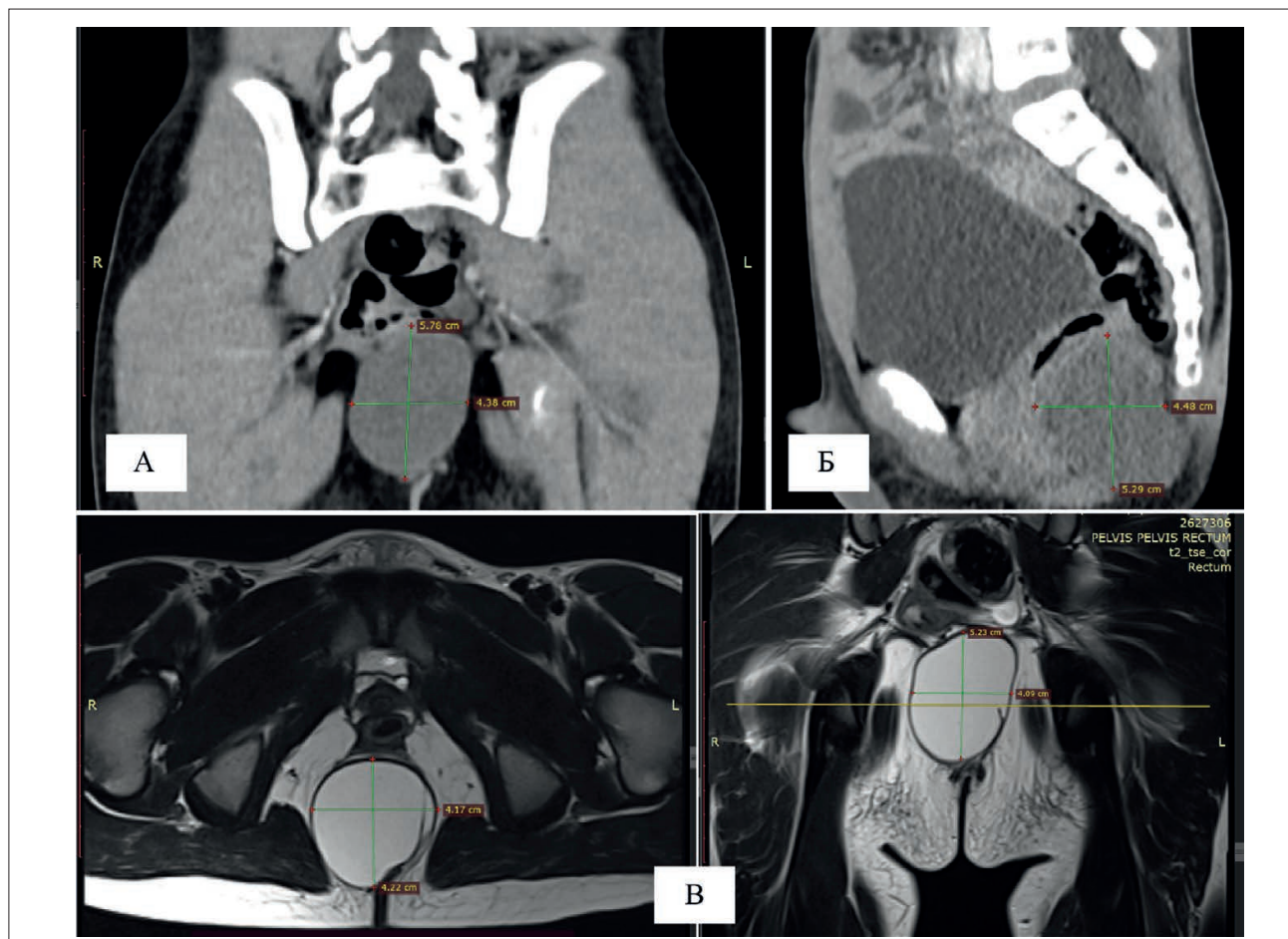


Рис. 4. Пацієнт Ю., віком 11 років. Діагноз «Пресакральна кіста». Спіральна комп'ютерна томографія крижово-куприкової ділянки: А - фронтальний зріз; Б — сагітальний зріз; В: МРТ — аксіальні зрізи. Наявність об'ємного кістозного утворення у пресакральному та ретросакральному просторах із середніми розмірами 57,8×43,8 мм

Доброякісні пресакральні кісти в післяопераційному періоді рекомендовано спостерігати кожні 6 міс протягом 2 років та потім ще наступні 2 роки зі щорічним інтервалом. УЗД, МРТ та КТ рекомендовані для спростування рецидивів кіст або їхньої злоякісної трансформації. У разі виникнення в пацієнтів у післяопераційному періоді раптового больового синдрому в крижово-куприковій ділянці необхідно терміново виключити ймовірність злоякісного переродження кісти.

Злоякісні пресакральні кісти лікують із застосуванням додаткових методів обстеження після первинної операції та остаточної верифікації діагнозу з обов'язковим дотриманням чинних онкологічних настанов (протоколів) і рекомендацій. За такого варіанта перебігу патології рекомендоване спостереження в післяопераційному періоді кожні 3 міс протягом 2 років, а в наступні 2 роки — кожні 6 місяців. УЗД, МРТ або КТ доцільно виконувати в процесі кожного етапу спостереження [43].

З метою ілюстрації лікувальної-діагностичної тактики в дітей із пресакральними кістами

нижче наведено **клінічний випадок** із власного досвіду лікування патології.

Дослідження виконано згідно з принципами Гельсінської декларації. На проведення досліджень отримано інформовану згоду батьків дитини.

Пацієнт Ю., віком 11 років, звернувся зі скаргами на наявність утворення у крижово-куприковій ділянці (м'яке, безболісне, від народження). За останні 6 місяців утворення почало інтенсивно збільшуватися, у зв'язку з чим виконано дообстеження (УЗД куприкової ділянки, КТ та МРТ тулуба).

Місцево: у куприковій ділянці визначається пухлиноподібне утворення діаметром 50 мм, яке сиднична складка розділяє на дві нерівні частини, $\frac{1}{3}$ — зліва та $\frac{2}{3}$ — справа, шкіра над ним звичайного кольору, набряку навколишніх тканин немає, пальпаторно утворення м'яко-еластичної консистенції, малорухоме, безболісне, не спаяне зі шкірою.

За даними УЗД крижово-куприкової ділянки, утворення обмежане капсулою, має діаметр 50×43 мм, містить рідинний неод-

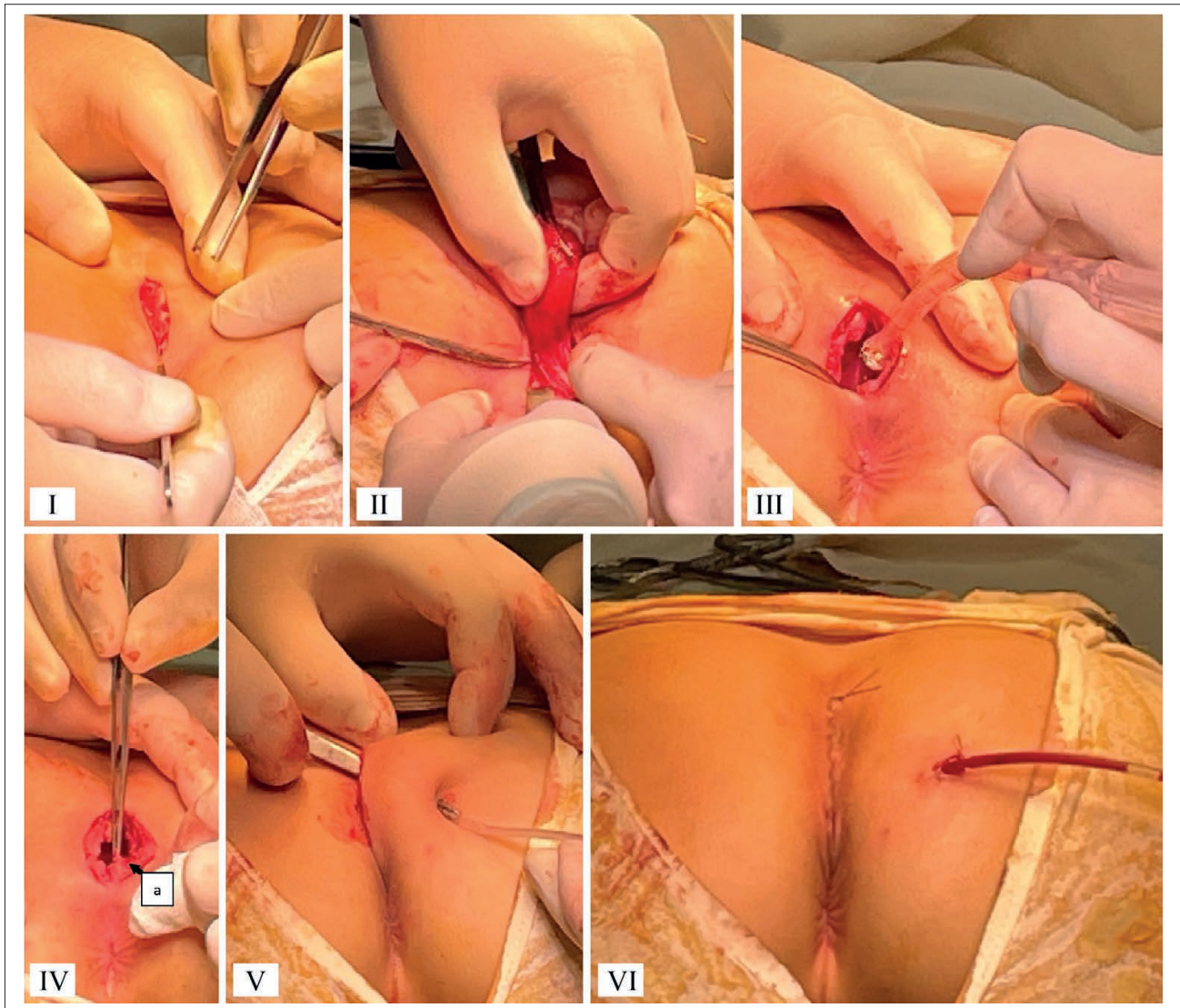


Рис. 5. Пацієнт Ю., віком 11 років. Діагноз «Пресакральна кіста». Етапи оперативного втручання: I — інтраопераційний розріз; II — виділення верхніх 3/4 кісти; III — евакуація вмісту з порожнини кісти; IV — візуалізація відсутності ано-куприкової зв'язки (а — дистальний залишок зв'язки); V — дренажування післяопераційної порожнини; VI — зовнішній вигляд післяопераційної рани

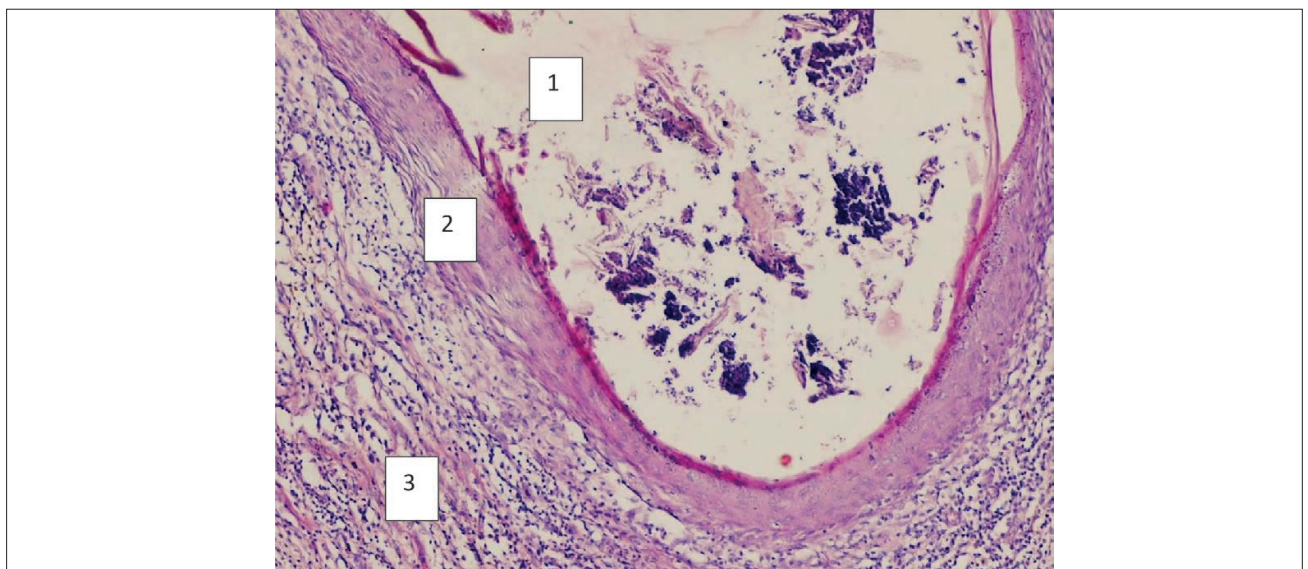


Рис. 6. Пацієнт Ю., віком 11 років. Діагноз «Пресакральна кіста»: 1 — епідермальна кіста, вистелена дистрофічно зміненим багатшаровим плоским епітелієм, вміст — тканинний детрит, кератогіалінові лусочкові маси; 2 — оболонка кісти; 3 — перифокальне запалення в дермі. Забарвлення гематоксилін та еозин. $\times 200$

норідний ехо+ вміст, без ознак додаткового кровотоку.

За даними променевих методів візуалізації із контрастним підсиленням виявлено кістозне утворення, що локалізується в пресакральному та ретросакральному просторах малого таза та має ознаки пресакральної дермоїдної кісти (рис. 4).

Після інструментально-лабораторного дообстеження дитині проведено оперативне втручання — ревізію куприкової ділянки. Видалено пресакральну кісту. Після обробки операційного поля розчином бетадину тричі, трансперинеальним поздовжнім доступом довжиною до 7 см, паралельно сідничній складці, виділено верхній полюс кісти. У ході ревізії куприкової ділянки оболонки кісти відсепаровано від оточуючих тканин до її нижньої $\frac{1}{4}$. З метою зменшення об'єму утворення, з порожнини кісти аспіровано до 6,0 мл густого рідинного вмісту сірувато-жовтого кольору. Безпосередньо після евакуації вмісту кісти та виділення її верхнього полюсу всі оболонки видалено єдиним блоком, без порушення їхньої цілісності. За результатами ревізії післяопераційної рани звертає на себе факт відсутності ано-куприкової зв'язки (присутній лише її дистальний фрагмент довжиною до 6–7 мм). Залишкову післяопераційну порожнину дреновано трубчастим дренажем. Післяопераційну рану пошарово ушито з накладанням косметичного внутрішньошкірного шва (рис. 5).

Гістологічне дослідження. Мікроскопічний опис: фрагмент шкіри з підшкірною жировою клітковиною з повнокровними судинами та наявністю двох кіст, одна з яких вистелена високим призматичним епітелієм, інша — багатоядерним плоским епітелієм та містить кера-

тогіалінові лусочкові маси. Патологогістологічний висновок: муцинозна та епідермальні кісти (рис. 6).

Післяопераційний перебіг — без ускладнень. На 5-ту добу дитину в задовільному стані виписано зі стаціонару на амбулаторне лікування за місцем проживання. На момент контрольного огляду через 2 місяці не виявлено даних про рецидив утворення.

Висновки

Пресакральні кісти в дітей належать до патології, що рідко зустрічається і потребує значних діагностичних зусиль у плані візуалізації та диференційної діагностики.

Лікування пресакральних кіст у дитячому віці має бути лише оперативним, що полягає в екстирпації утворення з обов'язковою морфологічною верифікацією остаточного діагнозу.

Під час вибору операційного доступу при екстирпації пресакральних кіст слід брати до уваги дані методів візуалізації локалізації утворень у пресакральному просторі з урахуванням висоти їхнього проксимального полюсу для запобігання можливим періопераційним ускладненням.

За найменшої можливості, екстирпацію кіст слід проводити максимально ошадно для запобігання пошкодженню їхніх стінок та ймовірному обсіменінню тотипотентними клітинами пресакрального простору, а також для попередження рецидивів патології.

Вищенаведений клінічний випадок яскраво показує перебіг пресакральної кісти, демонструє можливі методи діагностики та лікування.

Автори заявляють про відсутність конфлікту інтересів.

REFERENCES/ЛІТЕРАТУРА

1. Abe K, Nakamura S, Ikeda R, Wada M. (2008). Gastrointestinal infections. children [Review]. *Current World Literature. Current Opinion in Gastroenterology*. 26(1): 69–84.
2. Aihole JS, Aruna G, Deepak J, Supriya S. (2018). Precoccygeal epidermoid cyst in a child — A unique case report. *African Journal of Urology*. 24(4): 336–338. <https://doi.org/10.1016/j.afju.2018.07.002>.
3. Alvi MI, Mubarak F, Khandwala K, Barakzai MD, Memon A, Alvi MI, Barakzai MDD. (2018). A rare case of presacral epidermoid cyst in an adult male: emphasis on diffusion weighted magnetic resonance sequences in preoperative imaging. *Cureus*. 10(1). <https://doi.org/10.7759/cureus.2050>.
4. Ammar S, Cheikhrouhou T, Jallouli M, Chtourou R, Sellami S, Zitouni H, Mhiri R. (2021). Pediatric case of presacral ganglioneuroma: diagnostic considerations and therapeutic strategy. *Annals of Pediatric Surgery* 17(1). <https://doi.org/10.1186/s43159-021-00100-z>.
5. Aranda-Narváez JM, González-Sánchez AJ, Montiel-Casado C, Sánchez-Pérez B, Jiménez-Mazure C et al. (2012). Posterior approach (Kraske procedure) for surgical treatment of presacral tumors. *World journal of gastrointestinal surgery*. 4(5): 126. <https://doi.org/10.4240/wjgs.v4.i5.126>.
6. Coco C, Manno A, Mattana C, Verbo A, Sermoneta D, Franceschini G et al. (2008). Congenital tumors of the retrorectal space in the adult: report of two cases and review of the literature. *Tumori Journal*. 94(4): 602–607. <https://doi.org/10.1177/030089160809400428>.

7. Dahan H, Arrivé L, Wendum D, le Pointe HD, Djouhri H, Tubiana JM. (2001). Retrorectal developmental cysts in adults: clinical and radiologic-histopathologic review, differential diagnosis, and treatment. *Radiographics*. 21(3): 575–584. <https://doi.org/10.1148/radiographics.21.3.g01ma13575>.
8. De Bruijn H, Maeda Y, Murphy J, Warusavitarne J, Vaizey CJ. (2018). Combined laparoscopic and perineal approach to omental interposition repair of complex rectovaginal fistula. *Diseases of the Colon & Rectum*. 61(1): 140–143. <https://doi.org/10.1097/dcr.0000000000000980>.
9. Duclos J, Maggiori L, Zappa M, Ferron M, Panis Y. (2014). Laparoscopic resection of retrorectal tumors: a feasibility study in 12 consecutive patients. *Surgical endoscopy*. 28: 1223–1229. <https://doi.org/10.1007/s00464-013-3312-x>.
10. Dziki Ł, Włodarczyk M, Sobolewska-Włodarczyk A, Saliński A, Salińska M, Tchórzewski M et al. (2019). Presacral tumors: diagnosis and treatment—a challenge for a surgeon. *Archives of Medical Science*. 15(3): 722–729. <https://doi.org/10.5114/aoms.2016.61441>.
11. Ebinesh A. Challenges in Diagnosis and Management of Pediatric Presacral Tumors: A Radiologist's Perspective. *Asian and oceanic forum of pediatric radiology*. 7(6): 31–36.
12. Gu L, Berkowitz CL, Stratigis JD, Collins LK, Mostyka M, Spigland NA. (2021). Presacral epidermoid cyst in a pediatric patient. *Journal of Pediatric Surgery Case Reports* 71: 101904. <https://doi.org/10.1016/j.epsc.2021.101904>.
13. Hassan I, Wietfeldt ED. (2009). Presacral tumors: diagnosis and management. *Clinics in colon and rectal surgery*. 22(02): 084–093. <https://doi.org/10.1055/s-0029-1223839>.
14. Hokenstad ED, Hammoudeh ZS, Tran NV, Chua HK, Occhino JA. (2016). Rectovaginal fistula repair using a gracilis muscle flap. *International urogynecology journal*. 27: 965–967. <https://doi.org/10.1007/s00192-015-2942-z>.
15. Huddart S, Mann J, Robinson K, Raafat F, Imeson J, Gornall P et al. (2003). Sacrococcygeal teratomas: the UK children's cancer study group's experience. I. Neonatal. *Pediatric surgery international*. 19: 47–51. <https://doi.org/10.1007/s00383-002-0884-2>.
16. Ikegami M, Takahashi T, Shiojima S, Yoshizawa Y, Kimata M, Konno H et al. (2023). A novel surgical intervention using transvaginal endoscopic ultrasonography for the children with OHVIRA syndrome. *Journal of Pediatric Surgery Case Reports*. 92: 102622. <https://doi.org/10.1016/j.epsc.2023.102622>.
17. Jadeja D, Shah B, Shah J, Kotak S. (2021, Dec 1). Pelvic retroperitoneal masses in children: what does the radiologist need to know? *GAIMS Journal of Medical Sciences*. 1 (1): 18–27.
18. Jao SW, Beart Jr RW, Spencer RJ, Reiman HM, Ilstrup DM. (1985). Retrorectal tumors: mayo clinic experience, 1960–1979. *Diseases of the colon & rectum*. 28(9): 644–652.
19. Jones M, Khosa J. (2013). Presacral tumours: a rare case of a dermoid cyst in a paediatric patient. *Case Reports*. 2013: bcr2013008783. <https://doi.org/10.1136/bcr-2013-008783>.
20. Kesici U, Sakman G, Mataraci E. (2013). Retrorectal/Presacral epidermoid cyst: report of a case. *The Eurasian journal of medicine*. 45(3): 207. <https://doi.org/10.5152/eajm.2013.40>.
21. Keslar PJ, Buck JL, Suarez ES. (1994). Germ cell tumors of the sacrococcygeal region: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*. 14(3): 607–620. <https://doi.org/10.1148/radiographics.14.3.8066275>.
22. Kim HC, Lee HL, Lee SH, Kim GY. (2008). Squamous cell carcinoma arising from a presacral epidermoid cyst: CT and MR findings. *Abdominal Radiology*. 33(4): 498. <https://doi.org/10.1007/s00261-007-9287-0>.
23. Kim HJ, Ho IG, Ihn K, Han SJ, Oh JT. (2020). Clinical Characteristics and Treatment of Currarino Syndrome: A Single Institutional Experience. *Advances in Pediatric Surgery*. 26(2): 46–53. <https://doi.org/10.13029/aps.2020.26.2.46>.
24. Kocaoglu M, Frush DP. (2006). Pediatric presacral masses. *Radiographics*. 26(3): 833–857. <https://doi.org/10.1148/rg.263055102>.
25. Kouyate M, Diakite A, Magassa M, Traore IL, Dicko B, Toure SM et al. (2022). Sacrococcygeal Teratoma in A New-born in Kay ES (Mali) about 3 Cases. *SAS J Surg*. 2: 60–62.
26. Kuroyanagi H, Oya M, Ueno M, Fujimoto Y, Yamaguchi T, Muto T. (2008). Standardized technique of laparoscopic intracorporeal rectal transection and anastomosis for low anterior resection. *Surgical endoscopy*. 22: 557–561. <https://doi.org/10.1007/s00464-007-9626-9>.
27. Kwon YS, Lee N, Lee HS, Youn EJ, Lee SK, Kim Y, Lee JJ. (2020). Risk of rectal puncture due to needle entry into the presacral space: importance of measuring the distance between the rectum and sacrococcyx, and the thickness of the sacrococcyx. *Medicine*. 99(28): e20935.
28. Li Z, Lu M. (2021). Presacral tumor: insights from a decade's experience of this rare and diverse disease. *Frontiers in Oncology*. 11: 639028. <https://doi.org/10.3389/fonc.2021.639028>.
29. Mendonça GS, Artiles CB, Malheiros GC, Amorim VB. (2021). Presacral medulloepithelioma with peritoneal carcinomatosis in an 11-year-old boy: An extremely rare association. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2020.12.060>.
30. Messick CA, Londono JMR, Hull T. (2013). Presacral tumors: how do they compare in pediatric and adult patients? *Polish Journal of Surgery*. 85(5): 253–261. <https://doi.org/10.2478/pjs-2013-0039>.
31. Nedelcu M, Andreica A, Skalli M, Pirlet I, Guillon F, Nocca D, Fabre JM. (2013). Laparoscopic approach for retrorectal tumors. *Surgical endoscopy*. 27: 4177–4183. <https://doi.org/10.1007/s00464-013-3017-1>.
32. NM BS, JM SG, MI ER. (2020, Jan). Chronic constipation due to Currarino syndrome. *Anales de Pediatria*, 93; 5: 349–351.
33. Pappalardo G, Frattaroli FM, Casciani E, Moles N, Mascagni D, Spoletini D et al. (2009). Retrorectal tumors: the choice of surgical approach based on a new classification. *The American Surgeon*. 75(3): 240–248. <https://doi.org/10.1177/000313480907500311>.
34. Pena A, Hong A. (2003). The posterior sagittal trans-sphincteric and trans-rectal approaches. *Techniques in Coloproctology* 7: 35–44. <https://doi.org/10.1007/s101510300006>.
35. Pescatori M, Bruscianno L, Binda GA, Serventi A. (2005). A novel approach for perirectal tumours: the perianal intersphincteric excision. *International Journal of Colorectal Disease*. 20: 72–75. <https://doi.org/10.1007/s00384-004-0623-3>.
36. Poudel D, Shrestha BM, Kandel BP, Shrestha S, Kansal A, Joshi Lakhey P. (2021). Presacral dermoid cyst in a young female patient: A case report. *Clinical Case Reports*. 9(11): e05062. <https://doi.org/10.1002/ccr3.5062>.
37. Prakash A, Ashta A, Garg A, Verma A, Padaliya P. (2023). Pediatric presacral tumors with intraspinal extension: a rare

- entity with diagnostic challenges. *Acta Radiologica*. 64(12). <https://doi.org/10.1177/02841851231202688>.
38. Reiter MJ, Schwoppe RB, Bui-Mansfield LT, Lisanti CJ, Glasgow SC. (2015). Surgical management of retrorectal lesions: what the radiologist needs to know. *American Journal of Roentgenology*. 204(2): 386–395. <https://doi.org/10.2214/AJR.14.12791>.
 39. Riojas CM, Hahn CD, Johnson EK. (2010). Presacral epidermoid cyst in a male: a case report and literature review. *Journal of Surgical Education*. 67(4): 227–232. <https://doi.org/10.1016/j.jsurg.2010.06.005>.
 40. Singh GP. (2017). Neuroembryology. In *Essentials of neuroanesthesia*: 41–50. Academic Press.
 41. Vanni AJ, Buckley JC, Zinman LN. (2010). Management of surgical and radiation induced rectourethral fistulas with an interposition muscle flap and selective buccal mucosal onlay graft. *The Journal of urology*. 184(6): 2400–2404. <https://doi.org/10.1016/j.juro.2010.08.004>.
 42. Wang GC, Liu LB, Han GS, Ren YK. (2012). Application of an arc-shaped transperineal incision in front of the apex of coccyx during the resection of pelvic retroperitoneal tumors. *Zhonghua Zhong liu za zhi. [Chinese Journal of Oncology]*. 34(1): 65–67.
 43. Wang G, Miao C. (2023). Chinese expert consensus on standardized treatment for presacral cysts. *Gastroenterology Report*. 11: goac079. <https://doi.org/10.1093/gastro/goac079>.
 44. Wang G, Han G, Ren Y, Cheng Y. (2013). Clinical effects of pedicled omentum covering the intestinal anastomotic stoma in preventing anastomotic fistula. *Chinese Journal of Digestive Surgery*, (12): 508–511.
 45. Wells RG, Sty JR. (1990). Imaging of sacrococcygeal germ cell tumors. *Radiographics*. 10(4): 701–713. <https://doi.org/10.1148/radiographics.10.4.2165626>.
 46. Wolpert A, Beer-Gabel M, Lifschitz O, Zbar AP. (2002). The management of presacral masses in the adult. *Techniques in coloproctology*. 6: 43–49. <https://doi.org/10.1007/s101510200008>.
 47. Yang BL, Gu YF, Shao WJ, Chen HJ, Sun GD, Jin HY, Zhu X. (2010). Retrorectal tumors in adults: magnetic resonance imaging findings. *World Journal of Gastroenterology: WJG*. 16(46): 5822. <https://doi.org/10.3748/wjg.v16.i46.5822>.
 48. Yoon HM, Byeon SJ, Hwang JY, Kim JR, Jung AY, Lee JS et al. (2018). Sacrococcygeal teratomas in newborns: a comprehensive review for the radiologists. *Acta Radiologica*. 59(2): 236–246. <https://doi.org/10.1177/0284185117710680>.
 49. Zang YW, Xiang JB. (2019). Pathologic and functional anatomy basis of intersphincteric resection. *Zhonghua wei Chang wai ke za zhi = Chinese Journal of Gastrointestinal Surgery*. 22(10): 937–942.
 50. Zhou JL, Wu B, Xiao Y, Lin GL, Wang WZ, Zhang GN, Qiu HZ. (2014). A laparoscopic approach to benign retrorectal tumors. *Techniques in coloproctology*. 18: 825–833. <https://doi.org/10.1007/s10151-014-1146-8>.
 51. Zhu XL, Su WW, Tang JL, Yao LD, Lu LJ, Sun XJ. (2019). Primary alveolar rhabdomyosarcoma of retrorectal-presacral space in an adult patient: A case report of an uncommon tumor with rare presentation. *Medicine*. 98(10): e13416.

Відомості про авторів:

Коноплицький Віктор Сергійович — д. мед. н., проф., зав. каф. дитячої хірургії ВНМУ ім. М.І. Пирогова. Адреса: м. Вінниця, вул. Пирогова, 56. <https://orcid.org/0000-0001-9525-1547>.

Гончарук Віктор Борисович — зав. хірургічного відділення № 2 ВОДКЛ ВОР. Адреса: м. Вінниця, вул. Хмельницьке шосе, 108.

Шишковський Олександр Миколайович — лікар онкогематологічного відділення ВОДКЛ ВОР. Адреса: м. Вінниця, вул. Хмельницьке шосе, буд. 108.

Коробко Юрій Євгенійович — д. філос., асистент каф. дитячої хірургії ВНМУ ім. М.І. Пирогова. Адреса: м. Вінниця, вул. Пирогова, 56. <https://orcid.org/0000-0002-3299-878X>.

Саприга Іван Вадимович — аспірант каф. дитячої хірургії ВНМУ ім. М.І. Пирогова. Адреса: м. Вінниця, вул. Пирогова, 56.

Пасічник Олег Вадимович — д. філос., асистент каф. дитячої хірургії ВНМУ ім. М.І. Пирогова. Адреса: м. Вінниця, вул. Пирогова, 56. <https://orcid.org/0000-0001-8302-3520>.

Стаття надійшла до редакції 09.03.2024 р., прийнята до друку 14.05.2024 р.