



Синдром солитарной язвы прямой кишки у детей: обзор литературы и серия клинических наблюдений*

Лохматов М. М.^{1,2}, Хавкин А. И.^{3,4,5}, Олдаковский В. И.¹, Королев Г. А.¹, Ерохина М. И.¹, Чибрина Е. В.¹,
Тупыленко А. В.¹, Будкина Т. Н.¹, Дьяконова Е. Ю.¹, Бекин А. С.¹, Куликов К. А.¹, Е. А. Яблокова^{1,2}

¹ ФГАУ «Национальный медицинский исследовательский центр здоровья детей» Минздрава Российской Федерации, (Ломоносовский проспект, д. 2, стр. 1, Москва, 119296, Россия)

² ФГАОУ ВО «Первый Московский государственный медицинский университет имени И. М. Сеченова» Минздрава Российской Федерации (Сеченовский Университет), (ул. Трубецкая, д. 8 стр. 2, Москва, 199991, Россия)

³ ГБУЗ МО «Научно-исследовательский клинический институт детства» Министерства здравоохранения Московской области, (Большая Серпуховская, 62, Москва, 115093, Россия)

⁴ ФГАОУ ВО «Белгородский государственный национальный исследовательский университет», (ул. Победы, д. 85 к. 13, г. Белгород, 308015, Россия)

⁵ ОСП «Научно-исследовательский клинический институт педиатрии им. академика Ю. Е. Вельтищева» ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н. И. Пирогова Минздрава России, (ул. Талдомская, д. 2, Москва, 125412, Россия)

Для цитирования: Лохматов М. М., Хавкин А. И., Олдаковский В. И., Королев Г. А., Ерохина М. И., Чибрина Е. В., Тупыленко А. В., Будкина Т. Н., Дьяконова Е. Ю., Бекин А. С., Куликов К. А., Е. А. Яблокова Синдром солитарной язвы прямой кишки у детей: обзор литературы и серия клинических наблюдений. Экспериментальная и клиническая гастроэнтерология. 2023;212(4): 145–151. DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-212-4-145-151

✉ Для переписки:

Хавкин

Анатолий Ильич

gastropedclin

@gmail.com

Лохматов Максим Михайлович, д.м.н., главный научный сотрудник, заведующий отделением эндоскопических исследований; профессор кафедры детской хирургии, урологии и уроандрологии

Хавкин Анатолий Ильич, д.м.н., профессор, руководитель Московского областного центра детской гастроэнтерологии и гепатологии; главный научный сотрудник отдела гастроэнтерологии; профессор кафедры педиатрии с курсом детских хирургических болезней

Олдаковский Владислав Игоревич, врач-эндоскопист, младший научный сотрудник отделения эндоскопических исследований

Королев Григорий Алексеевич, врач-эндоскопист, младший научный сотрудник отделения эндоскопических исследований

Ерохина Мария Ильинична, заведующая отделением гастроэнтерологии; научный сотрудник отдела наследственных и метаболических болезней

Чибрина Елена Владимировна, к.м.н., врач отделения гастроэнтерологии; научный сотрудник отдела педиатрии

Будкина Татьяна Николаевна, к.м.н., врач-эндоскопист, старший научный сотрудник отделения эндоскопических исследований

Тупыленко Артём Викторович, к.м.н., Старший научный сотрудник отделения эндоскопических исследований
Дьяконова Е. Ю.,

Бекин А. С.,

Куликов К. А.,

Яблокова Екатерина Александровна, к.м.н., ведущий научный сотрудник отдела педиатрии, доцент кафедры детских болезней

Резюме

* Иллюстрации

к статье –

на цветной

вклейке в журнал

(стр. III–IV).

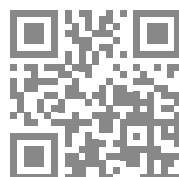
Синдром солитарной язвы прямой кишки — редкое, полиэтиологическое заболевание, которое в основном встречается у молодых мужчин и представляет собой комплекс клинических, эндоскопических и морфологических проявлений. Кроме того, сам общепризнанный термин «одиночная язва» нередко вводит гастроэнтерологов и эндоскопистов в заблуждение. Это связано с тем, что макроскопическая картина не всегда соответствует данному термину и проявления могут варьироваться от очага гиперемизированной слизистой до гигантской язвы, или нескольких язв в различных отделах прямой кишки и полиповидных образований на ножке.

В представленной статье, обобщены данные литературы о проявлениях синдрома солитарной язвы прямой кишки у детей, а также представлен собственный опыт наблюдения 5 пациентов. Помимо этого, учитывая, что у всех наблюдаемых пациентов были отмечены фенотипические признаки дисплазии соединительной ткани, было сформулировано предположение участие этого патофизиологического феномена в патогенезе синдрома солитарной язвы прямой кишки у детей.

Ключевые слова: синдром солитарной язвы прямой кишки, дети, клинические случаи, дисплазия соединительной ткани

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

EDN: YWJONO



<https://doi.org/10.31146/1682-8658-ecg-212-4-145-151>

Solitary rectal ulcer syndrome in children: a review of the literature and a series of clinical observations*

M. M. Lokhmatov^{1,2}, A. I. Khavkin^{3,4,5}, V. I. Oldakovsky¹, G. A. Korolev¹, M. I. Erokhina¹, E. V. Chibrina¹,A. V. Tupylenko¹, T. N. Budkina¹, E. Yu. Diakonova¹, A. S. Bekin¹, K. A. Kulikov¹, E. A. Yablokova^{1,2}¹ National Medical Research Center for Children's Health of the Ministry of Health of the Russian Federation, (Lomonosovsky prospect, 2, building 1, Moscow, 119296, Russia)² I. M. Sechenov First Moscow State Medical University (Sechenov University). (8–2 Trubetskaya str. Moscow, 119991, Russia)³ Research Clinical Institute of Childhood of the Ministry of Health of the Moscow Region, (B. Serpukhovskaya, 62, Moscow, 115093, Russia)⁴ Belgorod National Research University, (st. Pobedy, 85, Belgorod, 308015, Russia)⁵ Veltischev Research and Clinical Institute for Pediatrics and Pediatric Surgery of the Pirogov Russian National Research Medical University Research Clinical Institute of Pediatrics, (Taldomskaya str. 2, Moscow, 125412, Russia)

For citation: Lokhmatov M. M., Khavkin A. I., Oldakovsky V. I., Korolev G. A., Erokhina M. I., Chibrina E. V., Tupylenko A. V., Budkina T. N., Diakonova E. Yu., Bekin A. S., Kulikov K. A., Yablokova E. A. Solitary rectal ulcer syndrome in children: a review of the literature and a series of clinical observations. *Experimental and Clinical Gastroenterology*. 2023;212(4): 145–151. (In Russ.) DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-212-4-145-151

✉ **Corresponding author:**

Anatoly I. Khavkin
gastropedclin@gmail.com

Maksim M. Lokhmatov, MD, PhD, Dr Sci, Professor, head of the Department of endoscopic examinations; professor of the Department of pediatric surgery, urology and uroandrogyny; ORCID: 0000-0002-8305-7592

Anatoly I. Khavkin, MD, PhD, DrSci (Med), professor, head of the Moscow Regional Center of Pediatric Gastroenterology, Hepatology of the Research Clinical Institute of Childhood of the Ministry of Health of the Moscow Region; chief researcher of the gastroenterology department; Professor, Chair of Pediatrics, Course of Pediatric Surgical Diseases; ORCID: 0000-0001-7308-7280
Vladislav I. Oldakovsky, endoscopist, researcher of the Department of endoscopic examinations; ORCID: 0000-0002-8805-8164
Grigory A. Korolev, endoscopist, researcher of the Department of endoscopic examinations; ORCID: 0000-0001-5730-3684

Maria I. Erokhina MD., Head of the Department of Gastroenterology; ORCID: 0000-0003-3441-4626

Elena V. Chibrina MD., MD, PhD, MSc (Medicine), gastroenterologist; ORCID: 0000-0003-3332-5090

Tatyana N. Budkina, MD, endoscopist, senior researcher of the Department of endoscopic examinations; ORCID: 0000-0002-7379-7298

Artyom V. Tupylenko, MD, endoscopist, senior researcher of the Department of endoscopic examinations; ORCID: 0000-0003-4299-3269

E. Yu. Diakonova,

A. S. Bekin,

K. A. Kulikov,

Ekaterina A. Yablokova, MD, PhD, MSc (Medicine), Leading Researcher of the Department; associate professor of the Department of Children's Diseases; ORCID: 0000-0003-3364-610X

Summary

* Illustrations to the article are on the colored inset of the Journal (p. III–IV).

Solitary rectal ulcer syndrome is a rare, polyethiological disorder that occurs mainly in young men and presents a complex of clinical, endoscopic and morphological manifestations. In addition, the widely accepted term 'solitary ulcer' itself is often misleading to gastroenterologists and endoscopists. This is because the macroscopic picture does not always correspond to this term and manifestations can vary from a focus of hyperemic mucosa to a giant ulcer, or several ulcers in different parts of the rectum and polypoid stem-like masses.

This article summarises the literature on the manifestations of solitary rectal ulcer syndrome in children and presents our own experience in 5 patients. Besides, taking into account that all observed patients had phenotypic signs of connective tissue dysplasia, the assumption concerning the participation of this pathophysiological phenomenon in the pathogenesis of the solitary rectal ulcer syndrome in children was formulated.

Keywords: solitary rectal ulcer syndrome, children, clinical cases, connective tissue dysplasia

Conflict of interest. Authors declare no conflict of interest.

Введение

В 1920 году французский патологоанатом Жан Крювелье описал до этого неизученное поражение прямой кишки у группы пациентов, а более чем через 100 лет в медицинскую литературу введен термин «единичная язва прямой кишки» [1, 2]

Синдром солитарной (одиночной) язвы прямой кишки – редкая патология, которая, как правило, сочетает в себе комплекс клинических, эндоскопических и морфологических проявлений [3, 4]. Однако общепризнанный термин «одиночной язвы» может ввести в заблуждение, так как макроскопическая картина не всегда соответствует данному термину. При выполнении эндоскопического

исследования проявления могут варьироваться от очага гиперемизированной слизистой до гигантской язвы, или нескольких язв в различных отделах прямой кишки, также возможно увидеть полиповидное образование на ножке. Возможно поражение не только прямой, но и сигмовидной кишки. И все это многообразие объединено в термин – синдром солитарной язвы прямой кишки [4, 5].

Цель данной работы – обобщить данные литературы о клинических, эндоскопических и морфологических проявлениях синдрома солитарной язвы прямой кишки у детей, а также поделиться собственным опытом наблюдения.

Распространенность

Солитарная язва прямой кишки (СЯПК) – редкое заболевание и встречается у 1 на 100 000 человек. Чаще болеют мужчины в возрасте 30–40 лет. Данных об эпидемиологии одиночной язвы у детей нет. Несмотря на то, что симптомокомплекс иден-

тичен таковому у взрослых, диагностика и лечение язвы прямой кишки у детей вызывает сложности. Большинство исследований, посвященной данной проблеме у детей представлены клиническими случаями или малыми когортами пациентов [4–9].

Клиническая картина

Как правило пациенты с СЯПК предъявляют жалобы на боль в прямой кишке, ректальный пролапс (выпадение прямой кишки), боль при дефекации, выделение слизи и крови из прямой кишки, хро-

нические и тяжелые запоры, чувство дискомфорта, а также чувство неполного опорожнения [9–11]. По данным литературы у 26% пациентов заболевание протекает бессимптомно [12].

Патогенез

Точный патогенез синдрома СЯПК в настоящее время не известен. Latos и соавт. в 2007 году предположили, что существует две наиболее вероятные причины развития данной патологии: травма слизистой оболочки или локальная ишемия прямой кишки [13]. Sharara и соавт. в ходе исследования установили, что травма слизистой оболочки может развиваться у пациентов с тяжелыми запорами в связи с выраженным настуживанием [14]. Также, травматизация слизистой возможна при мануальном извлечении каловых камней [13]. Morio и соавт.

в своей работе установили связь между развитием солитарной язвы и несоординированным сокращением лобково-прямокишечной мышцы, что приводит к повышению прямокишечного давления и локальной ишемии кишечной стенки [15]. Другой причиной ишемии прямой кишки можно назвать ректальный пролапс. Стоит упомянуть, что выпадение прямой кишки часто наблюдается у пациентов с коклюшем на фоне повышения интраабдоминального давления, вызванного приступами кашля [16].

Диагностика

Синдром солитарной язвы часто диагностируется неправильно и вызывает большое количество сложностей, особенно у врачей с небольшим опытом. Многообразие эндоскопической картины обязывает дифференцировать данную патологию с воспалительными заболеваниями кишечника: неспецифическим язвенным колитом и болезнью Крона, а также с опухолями [17].

Для диагностики СЯПК в настоящее время применяется множество методов визуализации. Наиболее информативным методом является видеоколоноскопия, которая позволяет выполнить детальный осмотр не только прямой и сигмовидной, но и всей ободочной кишки. Также широко применяется магнитно-резонансная томография,

ирригография с раствором бария, дефекография, УЗИ промежности и эндоскопическое УЗИ стенки толстой кишки [18].

Несмотря на многообразие инструментальных методов диагностики, окончательным методом, позволяющем поставить верный диагноз является морфологическое исследование. Для солитарной язвы характерен ряд микроскопических особенностей, таких как утолщение слизистой оболочки и расширение крипт, фибромускулярная дисплазия собственной пластинки слизистой оболочки, прорастание мышечных волокон сквозь слизистую оболочку, изъязвление поверхности, гиперплазия слизистой и зубчатая гиперплазия, деформация желез, воспаление слизистой оболочки [10].

Лечение

Лечение солитарной язвы – актуальная проблема медицинского сообщества. В первую очередь стоит отметить, что терапия основывается на клинических проявлениях. В тех случаях, когда пациент длительное время страдает запорами, терапия

будет направлена на устранения основного заболевания: соблюдение диеты (богатой клетчаткой), применение слабительных препаратов [14, 19]. Пациентам, у которых наблюдается несоординированное сокращение лобково-прямокишечной

мышцы и повышенный тонус внутреннего сфинктера, показано проведение БОС-терапии (биологическая обратная связь) для повышения контроля и расслабления мускулатуры, что в свою очередь позволит снизить интраабдоминальное давление [20].

Медикаментозная терапия в настоящее время включает сукральфат, месалазин, клизмы с кортикостероидными препаратами. Основной клинический результат достигается за счет снижения активности воспаления [9, 21].

Показаниями к хирургическому лечению являются: выпадение прямой кишки и те язвы, ко-

торые не поддаются консервативному лечению. Существует множество способов лечения ректального пролапса, выбор лечения определяется тем, какой вариант выпадения наблюдается у пациента: полное (полностенное выпадение органа) или частичное (выпадение избыточной слизистой оболочки). При неполном выпадении чаще применяются иссечение избыточной слизистой оболочки, а при полном возможны различные варианты ректопексии или проктэктомии. По данным исследований антипролапсное хирургическое лечение приводит к положительному результату у 60% пациентов [22].

Серия клинических наблюдений

За период с 2018 по 2023 год в ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России и ГБУЗ МО «НИКИ детства» МЗ МО синдром солитарной язвы прямой кишки был эндоскопически заподозрен и гистологически подтвержден у 5 детей от 12 до 16 лет (средний возраст 14,6 лет), все мальчики. У двоих детей (40%) макроскопически заболевание имело эрозивно-язвенную форму, у троих (60%) – полиповидную; при этом следует отметить, что у всех пациентов помимо основных эндоскопических проявлений в прямой кишке отмечались очаги яркой гиперемии и/или эрозирования слизистой оболочки. Подробно приводим описание двух клинических случаев.

Мальчик-подросток 15 лет поступил в хирургическое отделение ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России с направляющим диагнозом «Полип прямой кишки» в июне 2021 года. Из анамнеза известно, что раннее развитие протекало без особенностей, однако ребенок страдает лактазной недостаточностью и в июне 2019 года перенес тяжелую форму сальмонеллезного гастроэнтероколита, что потребовало стационарного лечения. После этого в течение двух лет беспокоили эпизодические боли в области ануса при дефекации и натуживании, разжижение стула. Наблюдался амбулаторно по месту жительства: лабораторно отклонений в анализах крови не выявлялось, эндоскопически при ЭГДС значимых изменений также выявлено не было, получал консервативное лечение с временным эффектом. С февраля 2021 года появилась примесь алой крови в стуле и на бумаге после дефекации, в связи с чем ребенок был консультирован хирургом – заподозрен кровоточащий полип прямой кишки, не исключен дебют ВЗК. В апреле 2021 года обследован стационарно по месту жительства в отделении гастроэнтерологии «НИКИ детства» МЗ МО, выполнена колоноскопия, при которой в прямой кишке выявлен крупный полип, проктит. Биопсия не выполнялась. Фото и видеозапись исследования не предоставлены. Мальчик направлен в «НМИЦ здоровья детей» для плановой полипэктомии и уточнения диагноза.

При повторной колоноскопии в июне 2021 года в прямой кишке на расстоянии около 8 см от ануса по передней стенке выявлено полиповидное образование: неправильной округлой формы, на широком основании, размерами около 2х1,5 см, с диффузно гиперемированной и отечной поверхностью (рис. 1а). Несколько проксимальнее его,

также по передней стенке – вытянутый глубокий язвенный дефект с приподнятыми краями, фибрином в дне, перифокальной гиперемией и конвергенцией складок (рис. 1б). Кроме того в прямой кишке возле полиповидного образования и язвы определялись очаги яркой гиперемии слизистой оболочки. На остальном протяжении толстой кишки и в терминальном отделе подвздошной кишки патологических изменений не обнаружено. На основании эндоскопической картины заподозрен синдром солитарной язвы прямой кишки, от удаления образования было решено воздержаться. Выполнена множественная биопсия с краев язвы и с полиповидного образования.

При морфологическом исследовании между криптами слизистой оболочки определялись многочисленные вертикальные пучки гладких мышц и расширенные кровеносные сосуды (рис. 2а). При иммуногистохимическом исследовании с антителами к SMA (к гладкомышечным клеткам) отмечена пролиферация гладких мышц в собственной пластинке слизистой оболочки (рис. 2б). Заключение: морфологическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки.

В плане дополнительного обследования проведена компьютерная томография брюшной полости с внутривенным контрастированием. На серии компьютерных томограмм по передней стенке ампулы прямой кишки выявлено дополнительное объемное образование с множественными кальцинатами и гиподенсивными включениями в структуре с нечеткими контурами диаметром около 2 см, не накапливающее контрастный препарат. Стенки прилежащих отделов прямой кишки умеренно утолщены до 5–6 мм. Параректальная клетчатка не изменена. Стенки кишечника на остальном протяжении без участков патологического накопления контраста. Заключение: КТ-картина дополнительного кальцинированного образования в стенке ампулы прямой кишки без признаков накопления контрастного препарата, что следует дифференцировать между воспалительным процессом с формированием пролиферативных масс и пристеночным новообразованием (рис. 3).

В хирургическом отделении проведен осмотр промежности после дефекации, визуализировано выпадение слизистой оболочки нижних отделов прямой кишки по типу пролапса, в зону которого входит область язвы (рис. 4).

С учетом всех полученных диагностических данных был установлен диагноз: «Выпадение прямой кишки с осложнением в виде синдрома солитарной язвы прямой кишки». Выполнено хирургическое лечение в объеме лапароскопической ректопексии. Послеоперационный период протекал гладко, на 8 день после операции ребенок был выписан домой. Рекомендовано местное применение ректальной суспензии салофалька, эндоскопический контроль в динамике.

Мальчик-подросток 12 лет поступил в гастроэнтерологическое отделение ФГАУ «НМИЦ здоровья детей» Минздрава России с направляющим диагнозом «Язвенный колит» в январе 2023 года после обследования в «НИКИ детства» МЗ МО. Из анамнеза: раннее развитие протекало без особенностей; дебют настоящего заболевания в ноябре 2021 года, когда появились боли в животе, тенезмы, разжижение стула, повышалась температура тела до фебрильных значений. По месту жительства состояние было расценено как кишечная инфекция, получал антибактериальные препараты, сорбенты, ферменты с временным эффектом. Весной 2022 года жалобы вернулись, кроме того, появились прожилки крови в стуле, в связи чем родители обратились к гастроэнтерологу, было рекомендовано лабораторное и эндоскопическое обследование, для которого мальчик был госпитализирован по месту жительства в июне 2022 года. При обследовании исключены кишечные инфекции и глистная инвазия. В общем анализе крови – гипохромия и микроцитоз без анемии (Hb 130 г/л). Фекальный кальпротектин в норме – 28,5 мкг/г. Выполнена илеоколоноскопия с биопсией, эндоскопическая картина интерпретирована как дистальный язвенный колит: слизистая оболочка прямой кишки очагово гиперемирована, сосудистый рисунок обеднен, с единичными эрозиями и язвенными дефектами сливного характера под фибрином, остальные отделы толстого кишечника и терминальный отдел подвздошной кишки без особенностей. По данным морфологического исследования: в слизистой оболочке прямой кишки умеренная инфильтрация лимфоцитами, плазмócитами с единичными нейтрофильными лейкоцитами. Установлен диагноз «Язвенный колит неуточненный», проведен курс парэнтеральной антибактериальной терапии метронидазолом по 200 мг/сутки, назначена терапия месалазином (внутри по 1500 мг/сутки и ректально в форме свечей 750 мг/сутки), пробиотики, даны рекомендации по диете. На фоне лечения было достигнуто улучшение: боли при дефекации и примеси крови в стуле были купированы. Однако к осени 2022 года на фоне нарушения диеты и снижения дозы ректального месалазина до 250 мг/сутки проявления гемоколита возобновились, и в ноябре 2022 года ребенок был госпитализирован по месту жительства в связи с симптомами кишечного кровотечения. При поступлении отмечались обильная примесь крови в стуле, снижение АД до 60/40 мм. рт.ст., снижение Hb до 105 г/л, повышение СРБ до 9 мг/л. Фекальный кальпротектин – норма (42 мкг/г). Выполнена колоноскопия с биопсией. Заключение: катаральный колит, язва прямой кишки. Данные морфологического исследования биоптатов с краев

язвенного дефекта: фрагменты грануляционной ткани со смешанной воспалительной инфильтрацией. Также выполнена ЭГДС: Очаговый гастрит, экспресс-тест на *H. pylori* отрицательный. За время пребывания в стационаре на фоне консервативной терапии проявления кровотечения купированы, назначена безмолочная диета, ИПП и препараты железа, месалазин отменен. Для дальнейшего лечения, обследования и уточнения диагноза мальчик направлен в «НМИЦ здоровья детей».

За время пребывания в отделении ребенку проведено комплексное лабораторно-инструментальное обследование. По данным лабораторных исследований – анемии нет (гемоглобин 130 г/л), маркеры воспаления в пределах референсных значений (лейкоциты 7,27 тыс., лейкоцитарная формула правильная, СРБ – отрицательный). Трансаминазы и маркеры холестаза не повышены, гипоальбуминемии, гипербилирубинемии нет, панкреатические ферменты, электролиты в пределах допустимых значений, иммунологической активности не отмечается. Скрининговые параметры гемостаза в пределах референсных значений. Общий анализ мочи, общее копрологическое исследование – без особенностей. Фекальный кальпротектин – не повышен (51 мкг/г). С целью исключения инфекционного поражения проведено исследование антител к иерсиниям, лямблиям, сальмонелам – получен отрицательный результат.

Выполнено эндоскопическое обследование. По заключению ЭГДС: Признаки распространенного гастрита, ассоциированного с *H. pylori* (экспресс-тест на *H. pylori* положительный). Минимальные эндоскопические признаки рефлюкс-эзофагита. Лактазная недостаточность – гиполактазия по результату экспресс-теста. При колоноскопии в нижеампулярном отделе прямой кишки, по передней стенке, по вершине ближайшей к анусу гиперемированной, пролабирующей и утолщенной поперечной складки определяется язва неправильной формы, размером около 15x10 мм, с фибрином в дне и отечными гиперемированными краями; также несколько проксимальнее описанной складки определяются два небольших очага гиперемии и эрозирования (рис. 5). Иных патологических изменений в толстой кишке и в терминальном отделе подвздошной кишки не выявлено. Взята множественная таргетная биопсия с краев язвенного дефекта и с участков эрозирования. Также выполнена ступенчатая биопсия со всех осмотренных отделов кишки.

При морфологическом исследовании в биоптатах с краев язвы и очагов эрозирования прямой кишки: крипты слизистой оболочки нерегулярные, имеют зубчатый вид; в собственной пластинке слизистой оболочки незначительная лимфоцитарная инфильтрация, отмечается прорастание гладкомышечных волокон (SMA) от собственной мышечной пластинки к слизистой оболочке (рис. 6). В остальных биоптатах слизистой оболочки толстой кишки: крипты регулярные, ровные; в собственной пластинке слизистой оболочки атипичная умеренная и незначительная базальная лимфоплазмoцитарная инфильтрация с единичными эозинофилами и нейтрофилами;

отмечаются фрагменты лимфатических фолликулов. Заключение: морфологическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки; фокального активного колита с фолликулярной гиперплазией слизистой оболочки толстой кишки.

Таким образом, с учетом полученных диагностических данных убедительных данных за течение ВЗК у ребенка не получено. Диагноз сформулирован как «Синдром солитарной язвы прямой кишки. Неинфекционный гастроэнтерит и колит неуточненный». Консультирован хирургом – показаний к хирургическому лечению не установлено, показана местная консервативная терапия, рекомендована профилактика запоров. В стабильном состоянии мальчик был выписан под наблюдение врачей-специалистов по месту жительства. Рекомендовано: длительно продолжать местную противовоспалительную терапию месалазином в форме свечей по 500 мг 1 раз в день на ночь, провести курс терапии салицилатами перорально с неспецифической противовоспалительной целью

по 2000 мг/сутки курсом на 6 месяцев. Назначена эрадикационная терапия в связи с выявлением *H.pylori*-ассоциированного гастрита. Ребенок приглашен на контрольное обследование через 6–8 месяцев.

Ниже приводим эндоскопические фотографии других наших пациентов с морфологически подтвержденным диагнозом синдрома солитарной язвы прямой кишки, чтобы проиллюстрировать разнообразие макроскопической картины и сложность дифференциальной диагностики данного редко встречающегося доброкачественного заболевания (рис. 7).

Кроме того, у всех наблюдаемых нами пациентов были отмечены фенотипические признаки дисплазии соединительной ткани (ДСТ) в виде астенический тип конституции, низкого индекса массы тела и гипермобильности суставов. Это позволяет предположить участие ДСТ в патогенезе синдрома солитарной язвы прямой кишки у детей.

Заключение

Синдром солитарной язвы прямой кишки – редкое и сложное заболевание, которое требует клинического опыта и мультидисциплинарного подхода. Многообразие эндоскопических форм требует максимальной настороженности гастроэнтерологов

и эндоскопистов. При этом, любые подозрительные находки обязательно должны отправляться на морфологическое исследование, так как биопсия является золотым стандартом для постановки верного диагноза.

Литература | References

1. Felt-Bersma R.J., Tiersma E. S., Cuesta M. A. Rectal prolapse, rectal intussusception, rectocele, solitary rectal ulcer syndrome, and enterocele. *Gastroenterol Clin North Am.* 2008;37:645–668, ix. doi: 10.1016/j.gtc.2008.06.001
2. Cruveihier J. Ulcer chronique du rectum. In: Bailliere JB. Anatomie pathologique du crops humain. Paris. 1829.
3. Meurs-Szajda M.M., Terhaar sive Droste JS, Kuik DJ, Mulder CJ, Felt-Bersma RJ. Diverticulosis and diverticulitis form no risk for polyps and colorectal neoplasia in 4,241 colonoscopies. *Int J Colorectal Dis.* 2008 Oct;23(10):979–84. doi: 10.1007/s00384-008-0510-4.
4. Abusharif O., Bokhary R. Y., Mosli M. H., Saadah O. I. Solitary rectal ulcer syndrome in children and adolescents: a descriptive clinicopathologic study. *Int J Clin Exp Pathol.* 2021 Apr 15;14(4):399–407. PMID: 33936361.
5. Forootan M., Darvishi M. Solitary rectal ulcer syndrome: A systematic review. *Medicine (Baltimore).* 2018 May;97(18):e0565. doi: 10.1097/MD.00000000000010565.
6. Abreu M., Azevedo Alves R., Pinto J., Campos M., Aroso S. Solitary rectal ulcer syndrome: a paediatric case report. *GE Port J Gastroenterol.* 2017 May;24(3):142–146. doi: 10.1159/000450900.
7. Kowalska-Duplaga K., Lazowska-Przeorek I., Karolewska-Bochenek K. et al. Solitary rectal ulcer syndrome in children: a case series study. *Adv Exp Med Biol.* 2017;1020:105–112. doi: 10.1007/5584_2017_2.
8. Suresh N., Ganesh R., Sathiyasekaran M. Solitary rectal ulcer syndrome: a case series. *Indian Pediatr.* 2010 Dec;47(12):1059–61. doi: 10.1007/s13312-010-0177-0.
9. Sadeghi A., Biglari M., Forootan M., Adibi P. Solitary Rectal Ulcer Syndrome: A Narrative Review. *Middle East J Dig Dis.* 2019 Jul;11(3):129–134. doi: 10.15171/mejdd.2019.138.
10. Forootan M., Darvishi M. Solitary rectal ulcer syndrome: A systematic review. *Medicine (Baltimore).* 2018 May;97(18):e0565. doi: 10.1097/MD.00000000000010565.
11. Blackburn C., McDermott M., Bourke B. Clinical presentation of and outcome for solitary rectal ulcer syndrome in children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2012 Feb;54(2):263–5. doi: 10.1097/MPG.0b013e31823014c0.
12. Tjandra J.J., Fazio V. W., Church J. M., et al. Clinical conundrum of solitary rectal ulcer. *Dis Colon Rectum.* 1992 Mar;35(3):227–34. doi: 10.1007/BF02051012.
13. Latos W., Kawczyk-Krupka A., Ledwoń A., et al. Solitary rectal ulcer syndrome: the role of autofluorescence colonoscopy. *Photodiagnosis Photodyn Ther.* doi: 10.1016/j.pdpdt.2007.03.002.
14. Sharara A.I., Azar C., Amr S. S. et al. Solitary rectal ulcer syndrome: endoscopic spectrum and review of the literature. *Gastrointest Endosc.* 2005 Nov;62(5):755–62. doi: 10.1016/j.gie.2005.07.016.
15. Morio O., Meurette G., Desfourneaux V. et al. Anorectal physiology in solitary ulcer syndrome: a case-matched series. *Dis Colon Rectum.* 2005 Oct;48(10):1917–22. doi: 10.1007/s10350-005-0105-x.
16. Nagar A. B. Isolated colonic ulcers: diagnosis and management. *Curr Gastroenterol Rep.* 2007 Oct;9(5):422–8. doi: 10.1007/s11894-007-0053-9.

17. Pohl J. Solitary rectal ulcer syndrome. *Video J Encyclopedia GI Endosc.* 2013;1:411. doi: 10.1016/S2212-0971(13)70184-5.
18. Amaechi I., Papagrigoriadis S., Hizbullah S. et al. Solitary rectal ulcer syndrome mimicking rectal neoplasm on MRI. *Br J Radiol.* 2010 Nov;83(995): e221-4. doi: 10.1259/bjr/24752209.
19. Ignjatovic A., Saunders B. P., Harbin L. et al. Solitary 'rectal' ulcer syndrome in the sigmoid colon. *Colorectal Dis.* 2010 Nov;12(11):1163-4. doi: 10.1111/j.1463-1318.2009.02108.x.
20. Jarrett M. E., Emmanuel A. V., Vaizey C. J. et al. Behavioural therapy (biofeedback) for solitary rectal ulcer syndrome improves symptoms and mucosal blood flow. *Gut.* 2004 Mar;53(3):368-70. doi: 10.1136/gut.2003.025643.
21. Edden Y., Shih S. S., Wexner S. D. Solitary rectal ulcer syndrome and stercoral ulcers. *Gastroenterol Clin North Am.* 2009 Sep;38(3):541-5. doi: 10.1016/j.gtc.2009.06.010.
22. Halligan S., Nicholls R. J., Bartram C. I. Proctographic changes after rectopexy for solitary rectal ulcer syndrome and preoperative predictive factors for a successful outcome. *Br J Surg.* 1995 Mar;82(3):314-7. doi: 10.1002/bjs.1800820309.

To article

Solitary rectal ulcer syndrome in children: a review of the literature and a series of clinical observations (p. 145–151)

Рисунок 1. Эндоскопическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки у пациента 15 лет: а – полиповидное гиперемическое образование; б – язва возле полиповидного образования

Figure 1. Endoscopic view of the solitary rectal ulcer syndrome in a 15-year-old patient: a – polypoidal hyperemic mass; b – ulcer near a polypoidal mass

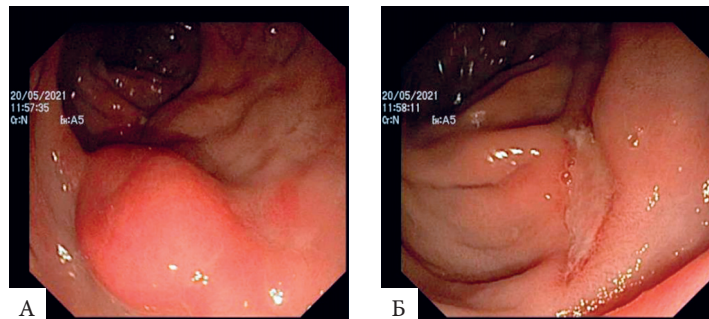


Рисунок 2. Гистологическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки у пациента 15 лет: а – окраска гематоксилин-эозин (стрелкой обозначены пучки гладких мышц); б – ИГХ с антителами к SMA (стрелкой обозначены пучки гладких мышц)

Figure 2. Histological picture of the solitary rectal ulcer syndrome in a 15-year-old patient: a – haematoxylin-eosin staining (arrow indicates smooth muscle bundles); b – IHC with antibodies to SMA (arrow indicates smooth muscle bundles)

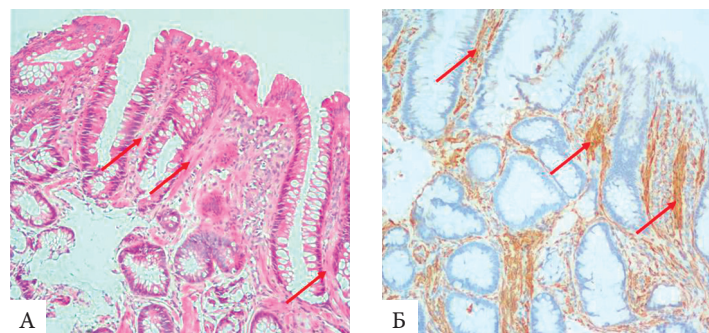


Рисунок 3. Выявленное образование прямой кишки на серии компьютерных томограмм
Figure 3. Identified rectal mass on a series of CT scans

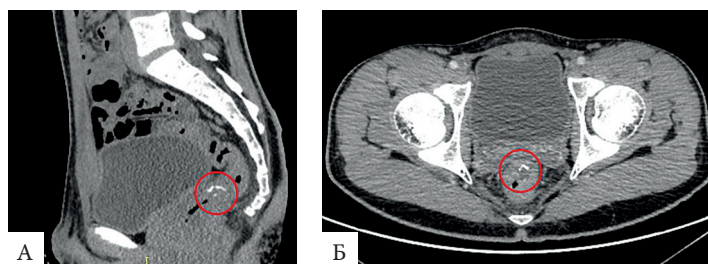


Рисунок 4 Выпадение слизистой оболочки прямой кишки при осмотре промежности
Figure 4. Prolapsed rectal mucosa on perineal examination



Рисунок 5 Эндоскопическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки у пациента 12 лет: а – язва прямой кишки; б – очаги гиперемии и эрозии возле язвы
Figure 5. Endoscopic view of the solitary rectal ulcer syndrome in a 12-year-old patient: a – rectal ulcer; b – foci of hyperemia and erosion near the ulcer

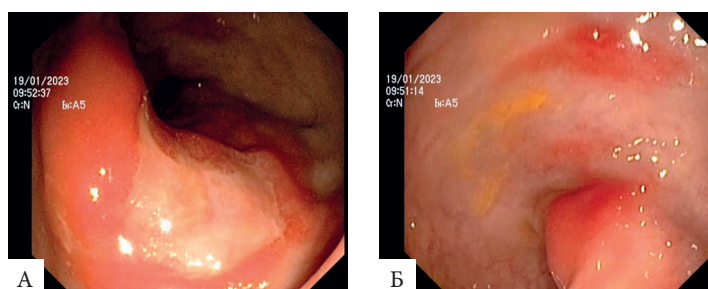


Рисунок 6 Гистологическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки у пациента 12 лет: а – окраска гематоксилин-эозин (стрелкой обозначены пучки гладких мышц); б – ИГХ с антителами к SMA (стрелкой обозначены пучки гладких мышц)
Figure 6. Histological picture of the solitary rectal ulcer syndrome in a 12-year-old patient: a – haematoxylin-eosin staining (arrow indicates smooth muscle bundles): b – IHC with antibodies to SMA (arrow indicates smooth muscle bundles)

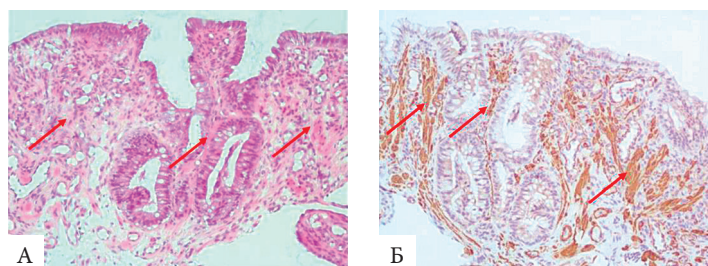


Рисунок 7 Эндоскопическая картина синдрома солитарной язвы прямой кишки у пациентов: а – эрозивно-язвенная формы; б, в – полиповидная форма
Figure 7. Endoscopic picture of solitary rectal ulcer syndrome in patients: a – erosive-ulcer form; b, c – polypoid form

