

## Мультицентровое исследование торакоскопического лечения врожденной диафрагмальной грыжи

Ю.А. КОЗЛОВ<sup>1–3\*</sup>, К.А. КОВАЛЬКОВ<sup>4</sup>, Д.М. ЧУБКО<sup>5</sup>, А.А. РАСПУТИН<sup>1</sup>, И.Н. ВЕБЕР<sup>1</sup>, П.Ж. БАРАДИЕВА<sup>1</sup>, А.Д. ТИМОФЕЕВ<sup>3</sup>, Д.А. ЗВОНКОВ<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Городская Ивано-Матренинская детская клиническая больница, Иркутск, Россия; <sup>2</sup>Иркутская государственная медицинская академия последипломного образования, Иркутск, Россия; <sup>3</sup>Иркутский государственный медицинский университет, Иркутск, Россия; <sup>4</sup>МАУЗ детская городская клиническая больница №5, Кемерово, Россия; <sup>5</sup>КГБУЗ «Красноярский краевой клинический центр охраны материнства и детства», Красноярск, Россия

В работе представлен 15-летний опыт (2002—2017) лечения 197 больных с врожденной диафрагмальной грыжей из трех детских госпиталей, расположенных в Сибирском федеральном округе. **Материал и методы.** Больные были распределены в две группы: 1-я группа — 90 больных, которым пластика купола диафрагмы выполнена с помощью торакоскопии; 2-я группа — 107 пациентов, которым устранение диафрагмального дефекта произведено с использованием открытых методов — торакотомии либо лапаротомии. В отношении пациентов применены единые технологические приемы выполнения торакоскопической пластики купола диафрагмы и рекомендации послеоперационного ведения таких больных, исходные и контролируемые наблюдателями из Ивано-Матренинской детской клинической больницы, Иркутск (экспертный госпиталь). **Результаты.** Сравнимые группы имели одинаковые демографические параметры. Были обнаружены значимые различия в длительности между торакоскопическими и открытыми операциями (64,18 мин против 73,92 мин;  $p < 0,05$ ). Продолжительность пребывания в отделении неонатальной интенсивной терапии и в госпитале была статистически меньше в 1-й группе (8,82 против 12,5 дня; 19,27 против 26,46 дня соответственно;  $p < 0,05$ ). Синтетические материалы для реконструкции дефекта диафрагмы использованы у 21 (23,33%) пациента 1-й группы и у 14 (13,08%) — 2-й группы. Рецидив диафрагмальной грыжи в нашем исследовании обнаружился у 10 (11,11%) пациентов 1-й группы и 20 (18,69%) — 2-й группы. Послеоперационный хилоторакс регистрировался у 23 (25,56%) пациентов 1-й группы и 24 (22,42%) — 2-й группы. Летальность в 1-й группе была меньше, чем во 2-й группе (8,89% против 17,76%). Фундопликация Ниссена была выполнена у 14 (15,56%) пациентов 1-й группы и 10 (9,35%) — 2-й группы. **Заключение.** Торакоскопическая реконструкция ВДГ может быть безопасно выполнена опытными эндоскопическими хирургами из разных центров, объединенных одной идеологией выполнения эндохирургических операций.

**Ключевые слова:** торакоскопия, врожденная диафрагмальная грыжа, новорожденные, многоцентровое исследование.

## Multicentral study of thoracoscopic treatment of congenital diaphragmatic hernia

YU.A. KOZLOV<sup>1–3\*</sup>, K.A. KOVALKOV<sup>4</sup>, D.M. TCHUBKO<sup>5</sup>, A.A. RASPUTIN<sup>1</sup>, I.N. VEBER<sup>1</sup>, P.ZH. BARADIEVA<sup>1</sup>, A.D. TIMOFEEV<sup>1,3</sup>, D.A. ZVONKOV<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Irkutsk municipal pediatric clinical hospital, Irkutsk, Russia; <sup>2</sup>Irkutsk state medical academy of continuing education, Irkutsk; Russia; <sup>3</sup>Irkutsk state medical university Russia, Irkutsk, Russia; <sup>4</sup>Kemerovo city pediatric clinical hospital №5, Kemerovo, Russia; <sup>5</sup>Krasnoyarsk regional clinical center of maternity and childhood, Krasnoyarsk, Russia

In the article we analyze the 15 year experience (2002—2017) of 197 patients with congenital diaphragmatic hernia (CDH) treatment in three children's hospitals located in Siberian Federal District. **Material and methods.** Patients were distributed in two groups: group 1 — 90 patients who has got surgical repair of CDH through thoracoscopic approach; group 2 — 107 patients who has got surgical repair of CDH through thoracotomy or laparotomy. The surgical repair procedure of CDH and the recommendation of postoperative maintaining such patients proceeding and controlled by observers from (Ivano-Matreninsky children's clinical hospital Irkutsk (expert hospital — EG) are applied to patients. **Results.** The compared groups were similar in terms of demographics parameters. There was significant difference in mean operative time between open and thoracoscopic procedure (64.18 min vs 73.92 min;  $p < 0.05$ ). Duration of care in neonatal intensive unit and length of hospital stay were significantly shorter in the Group 1 (8.82 vs 12.5 days; 19.27 vs 26.46 days;  $p < 0.05$ ). Synthetic patches for repair were used in 21 (23.33%) patients of group 1 and in 14 (13.08%) patients of group 2. Diaphragmatic hernia recurrences were found in 10 (11.11%) patients of group 1 and in 20 (18.69%) patients of group 2. Chylotorax in our research was found in 23 (25.56%) patients of endosurgery group and in 24 (22.42%) patients of open repair group. The lethal outcomes in group 1 were lower than in group 2 (8.89% vs 17.76%). The Nissen fundoplication was performed at 14 (15.56%) babies of group 1 (thoracoscopy) and 10 (9.35%) patients of group 2 (open treatment). **Conclusion.** Thoracoscopic reconstruction of congenital diaphragmatic hernia can be safely performed by experienced endoscopic surgeons from different centers united by one ideology of performing endosurgical operations.

**Keywords:** thoracoscopy, congenital diaphragmatic hernia, neonates, multi-institutional study.

Среди аномалий развития врожденную диафрагмальную грыжу (ВДГ) отличает относительно низкая встречаемость — 2—3 случая на 1000 рожденных живыми младенцев [1]. Рандомизированные контролируемые исследования (РКИ), которые считаются «золотым стандартом» доказательности, плохо подходят для исследования ВДГ из-за редкости этого заболевания и непредсказуемости клинического течения. Альтернативой РКИ для сравнительного исследования эффективности ВДГ является создание базы данных, полученных из нескольких хирургических центров, объединенных общей стратегией лечения. Такие базы данных с точки зрения структуры, сбора данных и управления параметрами представляют собой мультицентровые исследования.

В последнее 10-летие произошли кардинальные изменения в стратегиях лечения ВДГ, связанные в первую очередь с внедрением минимально инвазивных методов. Оценить реальную пользу эндохирургической коррекции ВДГ достаточно сложно из-за редкости аномалии вообще и низкого распространения торакокопии в популяции новорожденных в частности. Большинство хирургов для коррекции хирургических заболеваний диафрагмы по-прежнему предпочитают использовать лапаротомию или торакотомия. Например, исследование, представленное К. Tsao и соавт. в 2011 г. [2], продемонстрировало, что лапаротомия по-прежнему остается привилегированным действующим подходом (91,4% случаев) для лечения аномалий диафрагмы. В настоящее время катастрофически не хватает научных работ по сравнению двух подходов в лечении ВДГ. Значительная часть имеющихся сообщений демонстрирует небольшие серии больных, которые не позволяют сформировать общий взгляд на эту процедуру. До сих пор не ясно, может ли эта технология использоваться с оптимальными результатами в госпиталях, в которых проходят лечение незначительное количество пациентов. В настоящее время имеется несколько отчетов о лечении детей с ВДГ с использованием минимально инвазивных технологий [2—10]. Известно несколько РКИ, в которых в основном обсуждались вопросы изучения изменения уровня острофазовых пептидов [11] и газового состава крови [12] в ходе реконструкции диафрагмальных дефектов. Однако РКИ, в которых сравнивают клиническую эффективность двух технологий лечения ВДГ, отсутствуют. Одно из решений состоит в том, чтобы объединить случаи ВДГ из разных госпиталей в рамках мультицентрового исследования, таким образом сократив период накопления пациентов [13]. За все годы сформировано несколько баз данных ВДГ, которые наполнялись поступающими сведениями из разных центров: CAPSNet — Canadian Pediatric Surgery Network (Канада), CDHSG — Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group (Северная Америка, Австралия/Новая Зеландия), Japanese multicenter study of CDH (Япония).

Настоящее научное исследование обобщает опыт торакоскопического лечения ВДГ в трех детских больницах Сибирского федерального округа. Это первый большой опыт концентрации итогов лечения больных с аномалией диафрагмы в масштабах Российской Федерации, пример того, как несколько хирургических центров, объединенных общими теоретическими взглядами и практическими подходами, смогли преодолеть разобщенность и достигли феноменальных успехов в лечении одного из самых сложных пороков развития — ВДГ.

## Материал и методы

В научном исследовании изучены итоги хирургического лечения 197 больных с ВДГ, которые находились на момент операции в различных детских больницах Сибирского федерального округа:

— Ивано-Матренинской детской клинической больнице, Иркутск (экспертный госпиталь — ЭГ) — 120 пациентов;

— областной детской клинической больнице, Кемерово (обучающийся госпиталь №1 — ОГ) — 38 пациентов;

— центре материнства и детства, Красноярск (ОГ №2) — 39 пациентов.

Исследование охватывает 15-летний период с января 2002 г. по июнь 2017 г. Больные были распределены в две группы: 1-я группа — 90 больных, которым пластика диафрагмы выполнена с помощью торакокопии; 2-я группа — 107 пациентов, которым герметизация диафрагмального дефекта произведена с использованием торакотомии либо лапаротомии. В отношении пациентов применены единые технологические приемы выполнения торакоскопической пластики диафрагмы и рекомендации послеоперационного ведения таких больных, исходящие и контролируемые наблюдателями из ЭГ.

### *Техника торакоскопической реконструкции грыжи Богдалека*

Оперативное вмешательство выполнялось под общей анестезией с использованием бипульмональной искусственной вентиляции легких (ИВЛ). Пациент размещался на операционном столе в положении на боку с ротацией тела до 90°. Использовался карботоракс с мягкими параметрами — давление 4—5 мм рт.ст., поток 0,5 л/мин. В редких случаях для облегчения репозиции органов в брюшную полость давление углекислого газа кратковременно повышалось до 7—8 мм рт.ст. Устанавливалось 3 торакопорта. Троякары размещались максимально высоко. Первый троакар для торакоскопа устанавливался во втором или третьем межреберье, два других троакара вводились в четвертом межреберном промежутке по сосковой линии и задней подмышечной линии. При таком размещении торакопортов создается достаточное рабо-

чье пространство, чтобы выполнить маневры для закрытия дефекта. Производилось деликатное перемещение кишечника, желудка и селезенки в брюшную полость. Дефект диафрагмы ушивался отдельными швами prolene 4/0 («Ethicon»). Передняя порция отверстия, не имеющая заднего края, закрывалась швами, которые проводились вокруг ребра и завязывались подкожно. Производились реэкспансия легкого и удаление торакопортов. При больших диафрагмальных дефектах применялось протезирование с использованием протеза Gore-TexTissuePatch.

После операции всем младенцам выполнялись серийные рентгенологические и ультразвуковые исследования грудной клетки для контроля уровня стояния диафрагмы. В дальнейшем методы диагностической визуализации были необходимы, когда появлялись симптомы скопления жидкости либо воздуха в плевральной полости. Отказ от ИВЛ становился возможным в результате восстановления эффективного самостоятельного дыхания. После стабилизации респираторного и гемодинамического статуса пациенты переводились в отделение выхаживания новорожденных детей. Контроль послеоперационных осложнений производился в период нахождения пациентов в госпитале и во время повторных визитов через 1, 3, 6 и 12 мес после выписки из хирургического центра.

В финальной стадии исследования группа специалистов из ЭГ произвели сравнение демографических данных, интра- и послеоперационных параметров, ближайших и отдаленных результатов операций. Данные по группам подверглись статистическому срав-

нению. Произведен анализ дооперационных показателей (вес и возраст в момент операции, сторона аномалии, давление в легочной артерии, использование ИВЛ и высокочастотной ИВЛ до операции). Выполнено сравнение интра- и послеоперационных параметров: длительности операции, давления в легочной артерии после операции, частоты использования протезов для закрытия дефектов, продолжительности ИВЛ, срока нахождения в неонатальной реанимации и стационаре, а также послеоперационных осложнений — ранних (хилоторакс, гастроэзофагеальный рефлюкс (ГЭР)) и поздних (рецидив). Аналогичные сравнения выполнены в группе торакоскопического лечения путем сопоставления данных, поступающих из ЭГ и ОГ. Для оценки средних значений в группах использовался U-тест Манна—Уитни. Для оценки категориальных переменных использовался  $\chi^2$  тест с поправкой Йетса или критерий Фишера. Уровнем достоверной значимости принято значение  $p < 0,05$ .

## Результаты

### Дооперационные параметры

Обе группы больных были сопоставимы относительно возраста и веса в момент операции (табл. 1). Респираторная поддержка до операции применялась у одинаковой части пациентов 1-й и 2-й групп (83,33 и 80,37%;  $p=1,0$ ). Высокочастотная ИВЛ требовалась у 26,67% пациентов группы торакокопии и 24,30% больных группы открытого лечения ( $p=1,0$ ). Давление в легочной артерии до хирургического вмешательства составило 38,53 и 38,40 мм рт.ст. соответ-

**Таблица 1.** Сравнение дооперационных и послеоперационных параметров в группах торакоскопического и открытого лечения ВДГ

Параметр	До операции						p
	1-я группа (n=90)			2-я группа (n=107)			
	М	SD	диапазон	М	SD	диапазон	
Возраст, сут	5,54	5,85	1—35	7,34	11,36	1—60	0,085*
Масса тела, г	3005,01	525,09	1640—4505	3001,92	617,12	1700—4642	0,968*
Давление в ЛА, мм рт.ст.	38,53	13,53	13—70	38,4	13,26	15—70	0,981*
Параметр	N (%)			N (%)			
ИВЛ	75 (83,33%)			86 (80,37%)			1,000**
ВЧ ИВЛ	24 (26,67%)			26 (24,3%)			0,981**
ВДГ слева	72 (80%)			94 (88%)			0,121**
	После операции						
Длительность ОР, мин	64,18	13,14	30—100	73,92	26,75	30—220	0,013*
Давление в ЛА, мм рт.ст.	30,59	5,34	22—44	27,26	5,87	15—40	0,008*
ИВЛ, сут	6,35	4,91	2—30	8,74	6,84	2—33	0,011*
Длительность нахождения в ПИТ, сут	8,82	6,04	3—36	12,5	8,14	3—34	0,001*
Срок госпитализации, сут	19,27	9,72	3—67	26,46	18,57	3—122	0,001*
Использование протеза	21 (23,33%)			14 (13,08%)			0,091**

*Примечание.* \* — U-тест Манна—Уитни; \*\* —  $\chi^2$  с поправкой Йетса; М — среднее значение; SD — стандартное отклонение; p — уровень достоверной значимости; ЛА — легочная артерия; ВЧ ИВЛ — высокочастотная искусственная вентиляция легких; ОР — операция; ПИТ — палата интенсивной терапии.

ственно и достоверно не отличалось при сравнении ( $p=0,981$ ). Грыжа была расположена с левой стороны у пациентов 1-й и 2-й групп в одинаковой пропорции (80 и 88%). Преобразование в лапаротомию требовалось у 3 (3,33%) пациентов. Все конверсии были выполнены в период освоения технологий минимально инвазивной хирургии с 2002 до 2008 г. Показания для перехода к открытой операции включали драматическое снижение насыщения крови кислородом и гемодинамическую нестабильность в ходе нагнетания углекислого газа в плевральную полость. Конверсии не требовались с 2009 до 2017 г.

#### Данные об операции

Длительность торакоскопической операции составила  $64,18 \pm 13,14$  мин (диапазон 30—100 мин). Продолжительность открытой операции была достоверно больше и составила  $73,92 \pm 26,75$  мин (диапазон 30—220 мин). Плевральный дренаж устанавливался в среднем у одинакового числа пациентов 1-й и 2-й групп (35,71 и 37,84%;  $p=0,063$ ). Протезирование дефекта потребовалось также у равной части больных. Синтетическая заплата Gore-Tex использована у 21 (23,33%) пациента 1-й группы и 14 (13,08%) — 2-й группы.

#### Послеоперационные результаты

Среднее давление в легочной артерии в послеоперационном периоде эффективно снижалось и на 5-е сутки после операции составляло соответственно 30,58 и 27,26 мм рт.ст. Длительность послеоперационной ИВЛ сократилась в группе торакоскопического лечения — 6,35 дня против 8,74 дня в группе открытых операций, как и послеоперационное пребывание больных в палате реанимации (8,82 дня против 12,5 дня соответственно). Нахождение в хирургическом госпитале пациентов 1-й группы составило 19,27 дня в сравнении с 26,46 дня во 2-й группе ( $p=0,001$ ).

Ближайшие и отдаленные результаты лечения в 1-й и 2-й группах достоверно не отличались (табл. 2): ранние послеоперационные осложнения в виде хилоторакса встречались в среднем у одинаковой части больных (25,56 и 22,42%;  $p=0,730$ ). В большинстве случаев скопление лимфы постепенно исчезало после назначения соматостатина на протяжении 7—

14 дней. Безуспешная медикаментозная терапия указывала на необходимость лигирования грудного лимфатического протока. Рецидив заболевания регистрировался в меньшей мере у больных торакоскопической группы (11,11%) в сравнении с группой открытых операций (18,69%). Исследование продемонстрировало сопоставимое с открытыми операциями количество рецидивов в группе торакоскопического лечения ( $p=0,202$ ). Эти результаты обусловлены большим опытом выполнения минимально инвазивных процедур в хирургии новорожденных и строгим отбором пациентов. Анализ отдаленных результатов лечения показал достоверный рост случаев поздней спаечной непроходимости у пациентов, которые подверглись лапаротомии (0% в 1-й группе против 14,29% во 2-й группе;  $p<0,05$ ).

Послеоперационная летальность составила 8,89% в 1-й группе и 17,76% во 2-й группе ( $p=0,117$ ). Причины смерти этих больных не связаны с операцией и заключались в экстрахирургической патологии (нарушения кровообращения на фоне первичной легочной гипертензии, бактериальный грамотрицательный сепсис).

В исследовании проведено сравнение данных торакоскопической реконструкции ВДГ, полученных в ЭГ и ОГ (табл. 3).

Результаты, полученные в ЭГ, статистически не отличались от таковых в ОГ. Средняя продолжительность торакоскопической операции в ЭГ составила 63,83 мин и достоверно не отличалась от продолжительности эндохирургического вмешательства в ОГ — 67,5 мин ( $p>0,05$ ). Длительность ИВЛ и срок пребывания в ПИТ после торакоскопии были равными у пациентов из ЭГ и ОГ (5,79 дня против 11,10 дня,  $p<0,05$ ; 8,25 дня против 14 дней,  $p<0,05$ ). Очевидно, что сниженный уровень боли позволил сократить использование наркотических анальгетиков и соответственно повлиял на продолжительность ИВЛ. Существенных отличий в длительности нахождения пациентов в ЭГ и ОГ (18,73 дня против 24,25 дня;  $p>0,05$ ) не обнаружено. Синтетические заплаты, предназначенные для пластики дефекта диафрагмы, использовались в ЭГ в 2,5 раза реже, чем в ОГ (20% против 50%;  $p=0,049$ ).

**Таблица 2. Ранние и отдаленные результаты торакоскопического (1-я группа) и открытого (2-я группа) лечения ВДГ**

Параметр	1-я группа (n=90)	2-я группа (n=107)	$\chi^2$ с поправкой Йетса, p
Хилоторакс	23 (25,56%)	24 (22,42%)	0,730
Летальность	8 (8,89%)	19 (17,76%)	0,117
Рецидив	10 (11,11%)	20 (18,69%)	0,202
ГЭР	14 (15,56%)	10 (9,35%)	0,268
СКН	0	15 (14,29%)	0,001

*Примечание.* ГЭР — гастроэзофагеальный рефлюкс; СКН — спаечная кишечная непроходимость.

**Таблица 3.** Сравнение параметров торакоскопического лечения ВДГ в условиях экспертного (ЭГ) и обучающихся (ОГ) госпиталей

Параметр	До операции						p
	1-я группа (ЭГ), n=80			2-я группа (ОГ), n=10			
	М	SD	Диапазон	М	SD	Диапазон	
Возраст, сут	5,7	6,04	1–35	4,3	4,14	1–14	0,319
Масса тела, г	3011,39	530,81	1640–4505	2934	487,65	2090–3550	0,969
	После операции						
Длительность ОР, мин	63,83	13,2	30–100	67,5	12,82	50–90	0,437
ИВЛ, сут	5,79	4,28	1–30	11,10	8,3	2–22	0,128
Длительность нахождения в ПИТ, сут	8,25	5,14	2–36	14,0	11,11	3–26	0,539
Срок госпитализации, сут	18,73	8,14	7–67	24,25	19,92	3–62	0,391
Использование протеза		16 (20%)			5 (50%)		0,049

Примечание. \* – U-тест Манна–Уитни; \*\* – тест Фишера.

**Таблица 4.** Ранние и отдаленные результаты торакоскопического лечения ВДГ в условиях ЭГ и ОГ

Параметр	1-я группа (ЭГ), n=80	2-я группа (ОГ), n=10	Тест Фишера, p
Хилоторакс	18 (22,5%)	5 (50%)	0,072
Летальность	6 (7,5%)	2 (20%)	0,216
Рецидив	7 (8,75%)	3 (30%)	0,079
ГЭР	11 (13,75%)	3 (30%)	0,184

Ранние и отдаленные последствия торакоскопических операций регистрировались в процессе наблюдения за пациентами на протяжении 1 года (табл. 4). Частота хилоторакса в послеоперационном периоде была сопоставима в 1-й и 2-й группах (22,5% против 50%;  $p=0,072$ ). Число рецидивов ВДГ и частота ГЭР в ОГ в 3 раза превышали аналогичные показатели в ЭГ (рецидив: 30% против 8,75%;  $p=0,079$ ; ГЭР: 30% против 13,75%;  $p=0,184$ ). Послеоперационная летальность была выше в ОГ (20% против 7,5%;  $p=0,216$ ), однако достоверность этих различий не была подтверждена статистическими расчетами.

## Обсуждение

ВДГ идеально подходит для проведения мультицентрового исследования. Главным образом из-за того, что это редкая врожденная аномалия, требующая сложного лечения в условиях специализированных отделений детских больниц. Несмотря на то что за последнее 10-летие произошло существенное улучшение выживания новорожденных с ВДГ (с 50 до 80%), долгосрочное исследование результатов подтверждает, что у этих пациентов увеличилась заболеваемость хроническими болезнями легких и сердца и снизилось качество жизни [13]. Подобные изменения особенно очевидны и широко распространены в хирургических центрах, предлагающих новые методы лечения, дорогостоящие, инвазивные и порой бездоказательные с позиций их клинической эффективности.

Один из обсуждаемых вопросов лечения ВДГ заключается в отборе пациентов для торакоскопического лечения. Считается, что основанием для отбора служит респираторная и гемодинамическая стабильность пациентов до операции. Исследовательская серия, состоящая из 75 пациентов, которым выполнена торакоскопическая реконструкция ВДГ в 2 хирургических центрах, расположенных в Голландии, определила, что жесткая селекция пациентов перед хирургической операцией обеспечивает благоприятные исходы минимально инвазивных операций. В качестве критериев отбора на торакоскопию были использованы следующие предоперативные параметры: давление вдоха при проведении ИВЛ менее 25 см  $H_2O$ , концентрация  $O_2$  во вдыхаемой смеси менее 50%, предуктальное насыщение крови кислородом более 85%, концентрация лактата в крови менее 3 ммоль/л, выделение мочи более 2 мл/кг/час, отсутствие экстракорпоральной мембранной оксигенации и пневмоторакса со стороны контралатерального легкого [9]. Предиктором неблагоприятного исхода является величина давления в легочной артерии: если она превышает 80% от показателей системного артериального давления, то в послеоперационном периоде наступает сердечно-легочная декомпенсация [14].

У торакоскопии как минимально агрессивной техники есть потенциальные преимущества, которые заключаются в улучшенной визуализации, меньшей послеоперационной потребности в наркотических препаратах, сокращении продолжительности ИВЛ [15]. Однако сторонники минимально инвазивных

операций всерьез дискутируют о безопасности торакоскопии, так как использование карботоракса связано с некоторыми осложнениями, такими как дыхательный ацидоз, гиперкарбия, легочная гипертензия [16, 17], и его воздействие на новорожденного во время торакоскопического вмешательства все еще остается неопределенным. Экспериментальная работа G. Stratmann и соавт. [18] и клиническое исследование M. Bishay и соавт. [19] показали, что карботоракс ассоциируется со значительным интраоперационным ацидозом, который может приводить к нейросенсорному поражению. Противоположных результатов добились J. Fishman и соавт. [20], которые не обнаружили разницы в рН во время проведения открытых и торакоскопических операций по реконструкции диафрагмальной грыжи у новорожденных. Подобные данные получены в другой серии из 31 пациента с диафрагмальными дефектами, в которой интраоперационная гиперкапния, всегда сопутствующая торакоскопии, не коррелировала с гипоксемией и ацидозом [21].

Также большое беспокойство у оперирующего хирурга вызывает кислородная десатурация во время проведения карботоракса. С целью коррекции нарушения кислородного насыщения во время торакоскопии N. Liem и соавт. в 2010 г. с успехом применили высокочастотную вентиляцию легких [22]. Этот новый подход помог избежать критической гипоксии и таким образом уменьшить уровень конверсий.

Однозначных доказательств преимуществ торакоскопического лечения ВДГ перед лапаротомией или торакотомией практически не представлено. Основная причина отсутствия большого количества сравнительных исследований заключается в том, что врожденный диафрагмальный дефект является достаточно редким заболеванием. К настоящему моменту в мире известно лишь нескольких серий сравнения результатов открытого и торакоскопического лечения диафрагмальных грыж у новорожденных детей [6—10, 15, 16, 23—26]. Данные этих исследований позволили сделать заключения лишь о некоторых преимуществах малоинвазивного метода лечения, которые в первую очередь были связаны с быстрым послеоперационным восстановлением пациентов. Некоторые авторы [26] установили, что торакоскопия сопровождалась достоверно меньшей продолжительностью ИВЛ и сокращением пребывания больных в госпитале. Обнадешивающие данные получены в работе K. Tsaio и соавт. [2], которые установили, что торакоскопическое лечение приводит к лучшей выживаемости младенцев в сравнении с лапаротомией (98,7% против 82,9%;  $p < 0,05$ ). Исследование A. Ю. Разумовского и соавт. [6] демонстрирует сопоставимые результаты выживаемости больных после торакоскопии (90,3% против 83%). Однако другие исследования сообщают о негативных эффектах минимально

инвазивных операций — увеличении длительности операций и росте числа рецидивов [9].

Камнем преткновения при обсуждении клинической эффективности минимально инвазивного лечения аномалий диафрагмы стали рецидивы заболевания, частота которых в данном случае оказалась выше, чем при открытом лечении. Обескураживающие результаты представили P. Szavay и соавт. [27], сообщив о значительном количестве рецидивов после торакоскопического лечения диафрагмальной грыжи (5/21, 23,8%) и посчитав эту цифру допустимой в сравнении с уровнем аналогичных показателей открытого лечения — 25—44%. Другие отчеты торакоскопического лечения грыж диафрагмы у новорожденных показывают частоту рецидива в пределах от 2 до 18,9% [6, 9, 23, 28, 29]. Причины рецидива заболеваний неизвестны, но определенные факторы могут способствовать возврату заболевания. Как и при выполнении других минимально агрессивных операций, зона оперативного вмешательства находится под экраным увеличением. Это может привести к переоценке пространства между швами на диафрагме или между краями диафрагмального дефекта. Другое объяснение может быть связано с неправильной оценкой напряжения, которое возникает при сопоставлении противоположных сторон диафрагмального отверстия или краев диафрагмы. Мышца диафрагмы склонна к разрыву, и неправильное решение о выборе простого ушивания вместо протезирования дефекта может весьма способствовать рецидиву. Другое возможное объяснение более высокой частоты рецидива — кривая обучения этой относительно новой эндоскопической процедуре. Неудивительно, что кривая обучения этой операции является более пологой, чем для других хирургических вмешательств. Учитывая, что пациенты с ВДГ появляются на свет достаточно редко, может потребоваться намного больше времени, чтобы накопить опыт и обеспечить безрецидивное течение послеоперационного периода [30]. Не подлежит сомнению, что торакоскопия избавляет пациентов от образования вентральных грыж и внутрибрюшных адгезий. A. Tyson [10] и соавт. сообщают о 4 больных с послеоперационными грыжами брюшной стенки и 5 больных, у которых после открытых операций развился спаечный илеус.

В настоящем исследовании принимали участие 3 исследовательских центра Сибирского федерального округа. Общее количество пациентов, внесенных в базу данных, составило 197. Преимущественно (84,3%) ВДГ локализовались с правой стороны. С помощью торакоскопии прооперированы 90 больных. У остальных 107 больных для коррекции ВДГ применена открытая хирургия (лапаротомия или торакотомия). Использовалась стратегия отсроченного хирургического лечения, которая состояла в том, что операция выполнялась после респираторной и

гемодинамической стабилизации пациентов в среднем на 5–7-е сутки жизни. Дооперационная ИВЛ применялась у 81,7% пациентов, а высокочастотная ИВЛ — у 25,4%. Пластика диафрагмы собственными тканями выполнена у 82,2% пациентов. Протезное закрытие дефекта производилось с использованием синтетических заплат Gore-TexTissuePatch у 17,8% больных. В ходе анализа послеоперационных данных было установлено преимущество минимально инвазивного подхода, которое выразилось в быстром восстановлении младенцев и благоприятном течении раннего и позднего послеоперационного периода. Анализ ранних и отдаленных негативных последствий показал их меньшую частоту после торакоскопии. Обнаружена статистически достоверная разница между группами относительно формирования спаечного илеуса: 0% в 1-й группе против 14,29% во 2-й группе ( $p=0,001$ ).

Итак, успехи эндоскопических технологий и методов минимально инвазивной хирургии теперь позволяют воспроизводить результаты стандартного открытого подхода к реконструкции диафрагмы полностью эндоскопическим способом. Недостатки малоинвазивного подхода, связанные с обучением, несущественны и преодолены в ходе накопления навыков. В серии произведенных в трех хирургических центрах торакоскопических операций ушивания или пластики дефектов диафрагмы показаны улучшение хирургической техники с течением времени и снижение побочных эффектов. Исследование подтвердило, что риски выживания младенцев с ВДГ зависят от степени наполняемости госпиталя («большая» наполняемость определялась как 6 случаев ВДГ в год и более, «малая» — менее 6 случаев) [31], закрепив тем самым идею создания баз

данных редких заболеваний и проведения мультицентровых исследований.

## Заключение

Минимально инвазивное лечение заболеваний диафрагмы остается проблемой для многих хирургических центров, в основном из-за редкой природы заболевания и сложности освоения технологий видеоассистированных операций у новорожденных. В настоящей работе представлен первый в Российской Федерации опыт мультицентрового исследования лечения ВДГ, базирующегося на данных регистра, в создании которого участвовали три детских госпиталя, объединенных общими взглядами и подходами к лечению этого заболевания.

В целом было установлено, что результаты торакоскопической реконструкции диафрагмальных дефектов могут очень хорошо конкурировать с результатами открытого лечения. Тщательный статистический анализ продемонстрировал, что минимально агрессивный подход имеет определенные преимущества перед открытой хирургией: более быстрое послеоперационное восстановление пациентов, улучшение отдаленных результатов лечения и непревзойденный косметический эффект. Таким образом, торакоскопия имеет существенные преимущества перед открытой хирургией и является предпочтительной технологией лечения заболеваний диафрагмы у младенцев.

Наш опыт может быть полезным для специалистов, практикующих минимально инвазивные методы в хирургии диафрагмальных грыж.

**Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.**

## ЛИТЕРАТУРА/REFERENCES

1. The International Centre on Birth Defects. International Clearinghouse for Birth Defects Surveillance and Research Annual Report 2013. *ICBDSR Centre*. 2013;216.
2. Tsao K, Lally PA, Lally KP, Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group. Minimally invasive repair of congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg*. 2011;46:1158-1164.
3. Козлов Ю.А., Новожилов В.А., Алейникова Н.Г., Кузнецова С.Н., Кононенко М.И., Вебер И.Н., Соловьев А.А. Торакоскопическая френопликация у новорожденных (сообщение о 3 случаях данной патологии). *Детская хирургия*. 2008;1:52-53. [Kozlov YuA, Novozhilov VA, Alejnikova NG, Kuznetsova SN, Kononenko MI, Weber IN, Soloviev AA. Torakoskopicheskaja frenoplikacija u novorozhdennyh (soobshhenie o 3 sluchajah dannoj patologii). *Detskaja hirurgija*. 2008;1:52-53. (In Russ.)].
4. Козлов Ю.А., Новожилов В.А., Подкаменев А.В., Юрков П.С., Алейникова Н.Г., Вебер И.Н., Кононенко М.И., Кузнецова С.Н., Соловьев А.А., Новопашин А.М. Торакоскопическая реконструкция врожденной диафрагмальной грыжи Богдалека. *Детская хирургия*. 2009;5:22-24. [Kozlov YuA, Novozhilov VA, Podkamenev AV, Yurkov PS, Aleynikova NG, Weber IN, Kononenko MI, Kuznetsova SN, Soloviev AA, Novopashin AM. Torakoskopicheskaja rekonstrukcija vrozhdennoj diafragmal'noj gryzhi Bogdaleka. *Detskaja hirurgija*. 2009;5:22-24. (In Russ.)].
5. Митупов З.Б., Разумовский А.Ю. Эндохирургические операции при диафрагмальных грыжах у детей. *Детская хирургия*. 2009;3:46-49. [Mitupov ZB, Razumovskij AYU. Jendohirurgicheskie operacii pri diafragmal'nyh gryzhah u detej. *Detskaja hirurgija*. 2009;3:46-49. (In Russ.)].
6. Разумовский А.Ю., Мокрушина О.Г., Шумихин В.С., Афуков И.И., Смирнова С.В. Эндохирургические операции на диафрагме у новорожденных: первый опыт в России. *Российский вестник детской хирургии, анестезиологии и реаниматологии*. 2012;1:80-86. [Razumovskij AYU, Mokrushina OG, Shumihin VS, Afukov II, Smirnova SV. Jendohirurgicheskie operacii na diafragme u novorozhdennyh: pervyjopyt v Rossii.

- Rossiiskij vestnik detskoih irurgii, anesteziologii i reanimatologii.* 2012;1:80-86. (In Russ.).
7. Козлов Ю.А., Новожилов В.А., Ковальков К.А., Чубко Д.М., Распутин А.А., Тысячный А.С., Барадиева П.А., Ус Г.П., Кузнецова Н.Н. Эндохирургическое лечение заболеваний диафрагмы у новорожденных и детей грудного возраста. *Эндоскопическая хирургия.* 2015;21:25-32. [Kozlov YuA, Novozhilov VA, Kovalkov KA, Chubko DM, Rasputin AA, Tsyachny AS, Baradiyeva PA, Us GP, Kuznetsova NN. Endosurgical treatment of diseases of diaphragm at neonates and infants. *Endoscopic surgery.* 2015;21:25-32. (In Russ.).]
  8. Arca MJ, Barnhart DC, Lelli Jr, Greenfeld J, Harmon CM, Hirschl RB, Teitelbaum DH. Early experience with minimally invasive repair of congenital diaphragmatic hernias: Results and lessons learned. *J Pediatr Surg.* 2003;38:1563-1568.
  9. Costerus S, Zahn K, van de Ven K, Vlot J, Wessel L, Wijnen R. Thoracoscopic versus open repair of CDH in cardiovascular stable neonates. *Surg Endosc.* 2016;30:2818-2824.
  10. Tyson A, Sola R, Arnold M, Cosper G, Schulman A. Thoracoscopic versus open congenital diaphragmatic hernia repair: single tertiary center review. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques.* 2017;27:1-8.
  11. Snoek K, Kraemer U, Ten Kate C, Greenough A, van Heijst A, Capolupo I, Schaible T, van Rosmalen J, Wijnen R, Reiss I, Tibboel D. High-sensitivity troponin and terminal pro-brain natriuretic peptide in prediction of outcome in congenital diaphragmatic hernia: results from a multicenter, randomized controlled trial. *J Pediatr.* 2016;173:245-249.
  12. Bishay M, Giacomello L, Retrosi G, Thyoka M, Garriboli M, Briery J, Harding L, Scuplak S, Cross K, Curry J, Kiely E, De Coppi P, Eaton S, Pierro A. Hypercapnia and acidosis during open and thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia and esophageal atresia: results of a pilot randomized controlled trial. *Ann Surg.* 2013;258:895-900.
  13. Lally PA, Skarsgard ED. Congenital diaphragmatic hernia: The role of multi-institutional collaboration and patient registries in supporting best practice. *Semin Pediatr Surg.* 2017;26:129-135.
  14. Deeney S, Howley L, Hodges M, Liechty K, Marwan A, Gien J, Kinsella J, Crombleholme T. Impact of Objective Echocardiographic Criteria for Timing of Congenital Diaphragmatic Hernia Repair. *J Pediatr.* 2018;192:99-104.
  15. Gourlay DM, Cassidy LD, Sato TT, Lal DR, Arca MJ. Beyond feasibility: A comparison of newborns undergoing thoracoscopic and open repair of congenital diaphragmatic hernias. *J Pediatr Surg.* 2009;44:1702-1707.
  16. Gomes Ferreira C, Reinberg O, Becmeur F, Allal H, D Lagausie P, Lardy H, Philippe P, Lopez M, Varlet F, Podevin G, Schleff J, Schlobach M. Neonatal minimally invasive surgery for congenital diaphragmatic hernias: A multicenter study using thoracoscopy or laparoscopy. *Surg Endosc.* 2009;23:1650-1659.
  17. Kalfa N, Allal H, Raux O, Lopez M, Forgues D, Guibal MP, Picaud JC, Galifer RB. Tolerance of laparoscopy and thoracoscopy in neonates. *Pediatrics.* 2005;116:785-791.
  18. Stratmann G, May LD, Sall JW, Alvi RS, Bell JS, Ormerod BK, Rau V, Hilton JF, Dai R, Lee MT, Visrodia KH, Ku B, Zusmer EJ, Guggenheim J, Firouzian A. Effect of hypercapnia and isoflurane on brain cell death and neurocognitive dysfunction in 7-day-old rats. *Anesthesiology.* 2009;110:849-861.
  19. Bishay M, Giacomello L, Retrosi G, Thyoka M, Nah SA, McHoney M, De Coppi P, Briery J, Scuplak S, Kiely EM, Curry JI, Drake DP, Cross KM, Eaton S, Pierro A. Decreased cerebral oxygen saturation during thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia and esophageal atresia in infants. *Journal of Pediatric Surgery.* 2011;46:47-51.
  20. Fishman JR, Blackburn SC, Jones NJ, Madden N, De Caluwe D, Haddad MJ, Clarke SA. Does thoracoscopic congenital diaphragmatic hernia repair cause a significant intraoperative acidosis when compared to an open abdominal approach? *J Pediatric Surgery.* 2011;46:458-461.
  21. Bliss D, Matar M, Krishnaswami S. Should intraoperative hypercapnea or hypercarbia raise concern in neonates undergoing thoracoscopic repair of diaphragmatic hernia of Bochdalek? *J Laparoendosc Adv Surg Tech.* 2009;19(suppl 1):55-58.
  22. Liem NT, Dien TM, Ung NQ. Thoracoscopic repair in the neonatal intensive care unit for congenital diaphragmatic hernia during high-frequency oscillatory ventilation. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2010;20:111-114.
  23. Yang EY, Allmendinger N, Johnson SM, Chen C, Wilson JM, Fishman SJ. Neonatal thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: Selection criteria for successful outcome. *J Pediatr Surg.* 2005;40:1369-1375.
  24. Becmeur F, Reinberg O, Dimitriu C, Moog R, Philippe P. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in children. *Semin Pediatr Surg.* 2007;16:238-244.
  25. Cho SD, Krishnaswami S, Mckee JC, Zallen G, Silen ML, Bliss DW. Analysis of 29 consecutive thoracoscopic repairs of congenital diaphragmatic hernia in neonates compared to historical controls. *J Pediatr Surg.* 2009;44:80-86.
  26. Kim AC, Bryner BS, Akay B, Geiger JD, Hirschl RB, Mychaliska GB. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in neonates: Lessons learned. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2009;19:575-580.
  27. Szavay PO, Drews K, Fuchs J. Thoracoscopic repair of a right-sided congenital diaphragmatic hernia. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech.* 2005;15:305-307.
  28. Смирнова С.В., Разумовский А.Ю., Мокрушина О.Г. Современные способы коррекции врожденных диафрагмальных грыж у новорожденных. *Вопросы практической педиатрии.* 2012;7:30-34. [Smirnova SV, Razumovskij AYU, Mokrushina OG. Sovremennyye sposoby korrektsii vrozhdennykh diafragmal'nyh gryzh u novorozhdennykh. *Voprosy prakticheskoy pediatrii.* 2012;7:30-34. (In Russ.).]
  29. Liem NT, Dung LA. Thoracoscopic repair for congenital diaphragmatic hernia: Lessons from 45 cases. *J Pediatr Surg.* 2006;41:1713-1715.
  30. Sola JE, Bronson SN, Cheung MC, Ordonez B, Neville HL, Koniaris LG. Survival disparities in newborns with congenital diaphragmatic hernia: a national perspective. *J Pediatr Surg.* 2010;45:1336-1342.
  31. Grushka JR, Laberge JM, Puligandla P, Skarsgard ED, Canadian Pediatric Surgery Network. Effect of hospital case volume on outcome in congenital diaphragmatic hernia: the experience of the Canadian Pediatric Surgery Network. *J Pediatr Surg.* 2009;44:873-876.

Поступила 29.12.17



*Сведения об авторах:*

*Козлов Юрий Андреевич* — заведующий отделением хирургии новорожденных ОГАУЗ ИМДКБ Иркутска, профессор кафедры детской хирургии ГБОУ ВПО ИГМУ, профессор кафедры ГБОУ ВПО ИГМАПО; <https://orcid.org/0000-0003-2313-897X>

*Ковальков Константин Анатольевич* — заместитель главного врача по хирургии МАУЗ ДГКБ №5, Кемерово; <https://orcid.org/0000-0001-6126-4198>

*Чубко Давид Марленович* — заведующий отделением детской хирургии КГБУЗ «Красноярский краевой клинический центр охраны материнства и детства»; <https://orcid.org/0000-0003-2269-945X>

*Распутин Андрей Александрович* — врач-хирург отделения хирургии новорожденных ОГАУЗ ИМДКБ Иркутска; <https://orcid.org/0000-0002-5690-790X>

*Вебер Ирина Николаевна* — доцент кафедры педиатрии ГБОУ ВПО ИГМУ

*Барадиева Полина Жамцарановна* — врач-детский хирург отделения хирургии новорожденных ОГАУЗ ИМДКБ Иркутска; <https://orcid.org/0000-0002-5463-6763>

*Тимофеев Андрей Дмитриевич* — ординатор курса детской хирургии факультета повышения квалификации специалистов ГБОУ ВПО ИГМУ; <https://orcid.org/0000-0001-7212-5230>

*Звонков Денис Андреевич* — ординатор курса детской хирургии факультета повышения квалификации специалистов ГБОУ ВПО ИГМУ; <https://orcid.org/0000-0002-7167-2520>