

STRUČNI ČLANCI PROFESSIONAL ARTICLES

Institut za zdravstvenu zaštitu dece i omladine, Novi Sad
Klinika za dečju hirurgiju

Stručni članak
Professional article
UDK 616.34/.35+616.617]-007-073

UDRUŽENOST URODENE VESTIBULARNE FISTULE SA ATREZIJOM DUODENUMA I REFLUKSNO-OPSTRUKTIVNIM MEGAURETEROM

ASSOCIATED CONGENITAL ANOMALIES: VESTIBULAR FISTULA, DUODENAL ATRESIA AND OBSTRUCTIVE REFLUXING MEGAURETER

Svetlana BUKARICA, Smiljana MARINKOVIĆ, Vladimir BORIŠEV, Jelena ANTIĆ i Danica STANIĆ-ČANJI

Sažetak - Kongenitalne anomalije gastrointestinalnog trakta predstavljene su širokim spektrom abnormalnosti, od najjednostavnijih do veoma kompleksnih i udruženih sa anomalijama drugih organa i organskih sistema. Novorođenče sa anorektalnom anomalijom u 50-60% slučajeva ima promene na kardiovaskularnom, gastrointestinalnom, urogenitalnom sistemu, kao i na kičmenim pršljenovima. U ovom radu prikazali smo žensko novorođenče, kod koga je prenatalno ultrasonografski dijagnostikovana atrezija duodenuma, hidronefroza i megaureter sa desne strane, a kliničkim pregledom je verifikovana atrezija anusa sa vestibularnom fistulom. Rendgenskim nativnim snimkom abdomena viđen je znak *double-bubble* i potvrđena opstrukcija duodenuma. U opštoj anesteziji u prvom danu života urađena je ekscizija intraluminalne membrane duodenuma i izvedena je kolostomija sigmoidnog kolona. Ultrasonografski i intravenskom urografijom potvrđena je hidronefroza i refluksni opstruktivni megaureter sa desne strane te je u petom mesecu života načinjena reimplantacija uretera a šest meseci kasnije i zadnja saginatalna anorektoplastika po metodi Pena. U sedamnaestom mesecu života usledila je fermetura kolostome. Dete je normalnog psihofizičkog razvoja za uzrast, fekalno kontinentno bez opstipacije i prljanja veša između normalnih defekacija, kao i bez urinarnih infekcija.

Cljučne reči: Rektalna fistula; Gastrointestinalni sistem + abnormalnosti; Atrezija anusa; Ureter + abnormalnosti + hirurgija; Hidronefroza

Summary - Congenital gastrointestinal anomalies include spectrum of malformations, simple ones as well as complex, which are associated with anomalies of other organs and systems of organs. Most infants (50-60%) with imperforate anus also have genitourinary, cardiovascular, gastrointestinal and vertebral anomalies. This case report is of a female newborn with prenatally diagnosed duodenal atresia and right hydronephrosis. Clinical investigation revealed an imperforate anus with vestibular fistula. A plain abdominal x-ray showed a "double-bubble" sign, characteristic for duodenal atresia. Intraluminal membrane was excised and sigmoid colostomy was performed in general anesthesia on the first day of life. Ultrasound and intravenous pyelography confirmed a hydronephrotic right kidney and obstructive megaureter after Pena. In the fifth month of life, the ureter was tapered and reimplanted. Six months later, posterior sagittal anorectoplasty was performed. In the seventeenth month of life the colostomy was closed. This child attained normal growth and development, normal bowel control, fecal continence without soiling, obstipation and urinary infections.

Key words: Rectal Fistula; Gastrointestinal System + abnormalities; Anus, Imperforate; Ureter + abnormalities + surgery; Hydronephrosis

Uvod

Kongenitalne anomalije gastrointestinalnog trakta predstavljene su širokim spektrom malformacija, od najjednostavnijih do veoma kompleksnih i udruženih sa anomalijama drugih organa i organskih sistema. Neadekvatna maturacija ili vremensko odvijanje razvojnih procesa u kritičnom periodu učiniće da se javi brojne malformacije gastrointestinalnog sistema. Smatra se da mnogobrojni faktori, pojedinačno ili udruženo, utiču na razvoj tkiva i organa u periodu organogeneze [1].

Neka stanja u trudnoći, kao što je polihidramnion, ukazuju na postojanje fetalne malformacije a genetski poremećaji i nasledne bolesti metabolizma se dijagnostikuju utvrđivanjem kariotipa fetusa. Većina malformacija gastrointestinalnog trakta mo-

Introduction

Gastrointestinal congenital anomalies include a wide spectrum of abnormalities, from the simplest to very complex. They can be associated with anomalies of different organ systems. Inadequate maturation or timing of development in critical moment result in a number of gastrointestinal anomalies. Different factors are involved in organ genesis [1].

Some conditions during pregnancy, like polyhydramnion, point to some kind of fetal malformation. Genetic abnormalities and inherited metabolic diseases can be detected by karyotype analysis. Most gastrointestinal malformations can be detected by prenatal ultrasound examination. Management of a fetus with some kind of anomaly demands further evaluation of

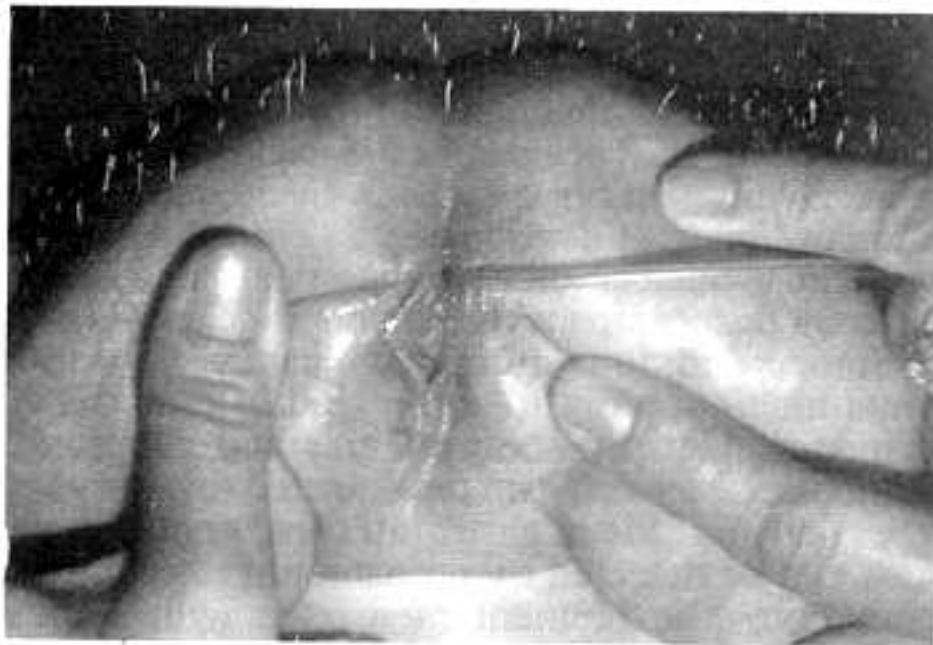
Skraćenice

EKG	- elektrokardiogram
EHO	- ehokardiografija
IVU	- intravenska urografija
PSARP	- zadnja sagitalna anorektoplastika

že biti prenatalno ultrasonografski dijagnostikovana. Menadžment fetusa sa nekom od anomalija zahteva detaljnu evaluaciju drugih organskih sistema zbog njihove česte udruženosti [2].

Novorođenče sa anorektalnom anomalijom kod 50-60% slučajeva ima promene na kardiovaskularnom, gastrointestinalnom, urogenitalnom sistemu kao i na kičmenim pršljenovima. Što je malformacija anusa kompleksnija, to je procenat pojavljivanja udruženih anomalija veći. U istraživanjima sa velikim brojem ovakve novorođenčadi, opstrukcije duodenuma se opisuju u procentu oko 1-2, kao i postojanje Hirschprungovog oboljenja, dok su atrezije na tankom i debelom crevu retke. Opstruktivne uropatije, vezikoureteralni refluks, renalna agenezija i displazija i hipospadija prisutni su kod 9% niskih, a 30% kod visokih anorektalnih malformacija [2,3].

Žensko novorođenče, primljeno je na Kliniku za dečju hirurgiju u Novom Sadu, u poluspravnom položaju sa nazogastričnom sondom, u prvom satu života radi lečenja udruženih urođenih anomalija. Prenatalno ultrasonografski u 30. nedelji gestacije dijagnostikovana je atrezija duodenuma i hidronefroza sa desne strane, kada je načinjena i kariotipizacija i utvrđen normalan kariotip (46XX). Porodaj je bio u 37. nedelji gestacije, spontani, vaginalni, sa potiljačnom prezentacijom, plodova voda je bila lako zamućena i obilna (polihidramnion), porodajna masa 2 230 g, porodajna dužina 45cm i AS 9/10. Kliničkim pregledom je opisano da je žensko novorođenče bilo ružičaste prebojenosti kože i vidljivih sluzokoža, auskultatorni nalaz na plućima je bio neupadljiv, a srčana akcija ritmična, sa jasnim tonovima. Abdomen je bio mek, ispod ravni grudnog koša, bez palpabilnih tumefakcija. Inspekcijom



Slika 1. Atrezija anusa sa vestibularnom fistulom
Fig. 1. Imperforate anus with vestibular fistula

Abbreviations

EKG	- electrocardiogram
ECHO	- echocardiography
IVU	- intravenous urography
PSARP	- posterior sagittal anorectoplasty

different systems, because they are frequently associated [2].

Cardiovascular, gastrointestinal, urogenital and vertebral anomalies are present in 50-60% of babies with imperforate anus. In addition, complex abnormalities are associated with more serious malformations. Some extensive studies showed that duodenal obstruction occurs in 1-2% of cases with imperforate anus as well as Hirschsprung disease. Atresia of the small and large intestine is not that common. Obstructive uropathies, vesicoureteric reflux, renal agenesis and dysplasia, as well as hypospadias occur in 9% of low anomalies, and in 30% of high anorectal malformations [2,3].

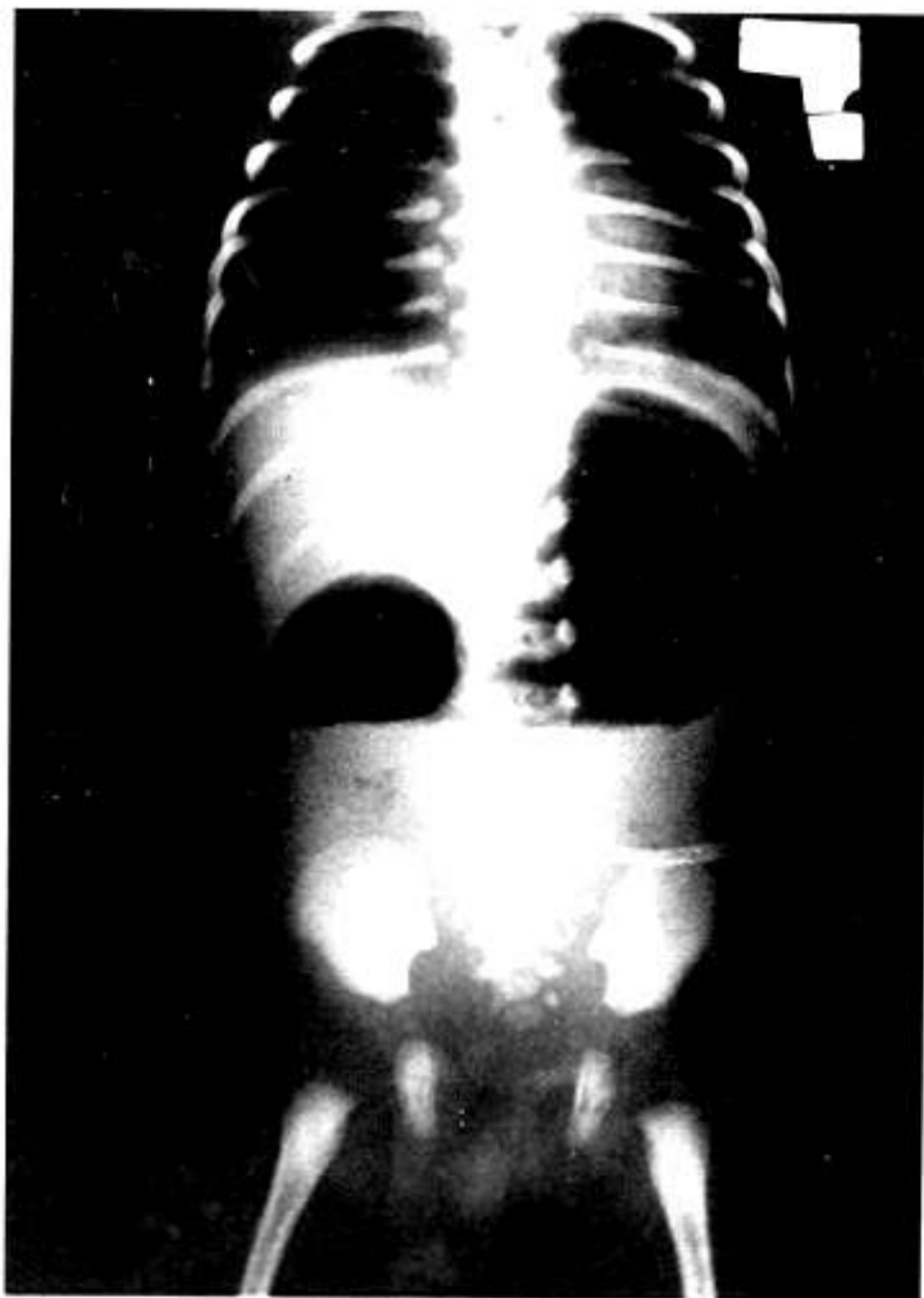
A one-hour-old female newborn was admitted to the Pediatric Surgery Clinic in Novi Sad, (transported in semi-erect position) with a nasogastric tube for management of associated congenital anomalies. In the 30th week of gestation duodenal atresia and hydronephrosis of the right kidney were diagnosed by prenatal ultrasound. Karyotype analysis was normal (46XX). Delivery occurred in the 37th week of gestation, with occipital presentation. The excess amniotic fluid was green. Birth weight was 2230g, birth length 45cm and Apgar score was 9/10. Physical examination showed a female newborn with a normal skin color. The breathing sound was clear, as well as cardiac. The abdomen was soft without palpable tumefactions. Perineal and genital inspection showed anal atresia with vestibular fistula (Fig 1.). A plain radiography showed a typical *double-bubble* sign characteristic for duodenal atresia. (Fig 2). Hydronephrosis and right megaureter were diagnosed by ultrasound examination. Brain ultrasound showed bilateral intraventricular bleeding with asymmetry of brain hemispheres. Electrocardiogram and heart ultrasound were normal, and there were no vertebral anomalies. The patient was operated in general anesthesia after preoperative preparation during the first day of life. Duodenotomy and excision of the intraluminal duodenal membrane were done and intestinal continuity was restored. At the same time, duplex sigmoid colostomy was performed. Exploration of the small intestine showed persistent Meckel's diverticulum. Phototherapy for hyperbilirubinemia was performed after the operation in the intensive care unit. Per oral nutrition started successfully during the 5th postoperative day. The control brain ultrasound was normal, as well as electroencephalography. Intravenous infusion urography showed hydronephrosis and

perineuma i genitalija verifikovana je atrezija anusa sa vestibularnom fistulom (Slika 1). Na nativnom rendgenskom snimku viden je tipičan znak *double-bubble* kojim je potvrđena antenatalno dijagnostikovana atrezija duodenuma (Slika 2). Ultrazvučnim pregledom abdomena i retroperitoneuma verifikovana je hidronefroza sa desne strane i istostrani megaureter. Pregledom mozga uočeno je obostrano intraventrikularno krvarenje, uz asimetriju moždanih komora. EKG i EHO srca je pokazivao uredan nalaz, a na rendgenskom snimku kičmenog stuba nisu uočene anomalije na pršljenovima. Nakon preoperativne pripreme, u opštoj anesteziji u prvom danu života urađena je laparotomija, duodenotomija i ekscizija intraluminalne membrane duodenuma i time uspostavljen kontinuitet u pasaži ovog dela gastrointestinalnog trakta. Tokom iste anestezije izvedena je dupleks kolostoma na sigmoidnom kolonu. Prilikom eksploracije vijuga tankog creva uočeno je i postojanje Mekelovog divertikuluma. Postoperativno novorođenče je smešteno u Jedinicu intenzivne terapije, gde je primenjena fototerapija zbog hiperbilirubinemije. Petog postoperativnog dana je započeto pojenje, a potom i ishrana formulom, što je dete dobro tolerisalo s obzirom da je stoma je funkcionisala. Kontrolni ultrazvučni pregled mozga je pokazao uredan nalaz, a elektroencefalografija maturaciju odgovarajuću za uzrast. Načinjena je intravenska infuziona urografija na kojoj su jasno viđeni znaci izražene hidronefroze i refluksnog opstruktivnog megauretera sa desne strane (Slika 3). Mikciona cistouretrografija je pokazivala aktivni refluks u desni ureter, pa je u petom mesecu života urađen *remodeling* i reimplantacija uretera. Kontrolni ultrazvučni pregled bubrega nije pokazivao postojanje opstrukcije. Dete je nakon druge hirurške intervencije normalno raslo, razvijalo se i ambulantno je kontrolisano. U jedanaestom mesecu života se pristupilo hirurškoj korekciji anusa zbog atrezije i vestibularne fistule primenom zadnje sagitalne anorektoplastike po metodi Pena. Fistula je ispreparisana i formiran neoanus koji je postoperativno bužiran po šemi. Šest meseci nakon operacije, u sedamnaestom mesecu života pristupilo se fermeturi kolostome, kada je urađena i apendektomija, deliberacije creva i resekcija Mekelovog divertikuluma sa terminoterminalnom anastomozom ileuma. Operativni i postoperativni tok su protekli uredno.

Fizički i psihomotorni razvoj deteta su bili zadovoljavajući, uz fekalnu kontinenciju, bez opstipacije i prljanja veša između normalnih defekacija. Kontrolni ultrasonografski pregledi kao i IVU i dinamička scintigrafija bili su zadovoljavajući a ponavljane urinokulture bile su sterilne.

Diskusija

Teorije o patogenezi urođenih anomalija baziraju se na nepotpunom razumevanju događaja u normalnom razvoju embriona čoveka. Česta udruženost



Slika 2. *Double-bubble* - distendiran želudac i proksimalni deo duodenuma iznad mesta opstrukcije

Fig. 2. *Double-bubble* - distended stomach and proximal duodenum

refluxing megaureter of the right kidney (Fig. 3). Voiding cystourethrography showed active reflux in the right ureter. In the 5th month remodeling and reimplantation of the right ureter was performed. Control ultrasound examination showed no obstruction of the kidney. After the second operation the child did well and was followed-up in ambulatory care. Posterior sagittal anorectoplasty was performed by the 11th month after Pena. Fistula was prepared and neoanus constructed. Dilatation started two weeks after surgery. Six months after the operation, the colostomy was closed. Appendectomy, intestinal liberation and resection of Meckel's diverticulum were done during the same operation. Operative and postoperative courses were uneventful. Physical and psychomotor development of the child was satisfactory, with fecal continence and no constipation or soiling between normal defecations. Control ultrasound examination as well as intravenous urography and scintigraphy were normal. Urine cultures were negative.

Discussion

Embryologic theories about congenital anomalies are not very well understood. Frequent association of these anomalies with genetic abnormalities points

anomalija, kao i genetske abnormalnosti, ukazuju da se poremećaj razvoja dešava u prvim nedeljama gestacije.

Jedna od teorija nastanka anorektalnih anomalija opisuje da urorektalni septum ne doseže do kloakalne membrane koja se otvara u sedmoj nedelji gestacije kada se formiraju dva otvora, urogenitalni i analni [3].

Još je Soranus u drugom veku preporučivao pregled anusa kod svih novorođenčadi [1]. Paulus Aeginata je opisao prve slučajeve sa imperforiranim anusom koji su preživeli a Litre je sugerisao izvođenje kolostomije [2]. Hirurški pristupi u rešavanju anorektalnih malformacija tokom godina su se menjali ali su postoperativni rezultati u smislu fekalne kontinencije bili veoma loši. Alberto Pena je 1982. godine opisao posteriornu sagitalnu anorektoplastiku (PSARP) koja je velikom brzinom prihvaćena među hirurzima i danas predstavlja osnovu hirurgije u ovoj regiji [4].

Atrezija anusa, odnosno slepo završeni i prošireni rektum, se može prenatalno ultrasonografski dijagnostikovati. U slučaju našeg pacijenta to nije bilo moguće, s obzirom na postojanje proksimalne opstrukcije gastrointestinalnog trakta koja je na ovaj način prenatalno verifikovana.

Prema Peninom algoritmu pristupa, za muško i žensko novorođenče, atrezija anusa sa vestibularnom fistulom rešava se primarnom kolostomijom u novorođenačkom periodu a nakon četiri do osam nedelja posteriornom sagitalnom anorektoplastikom. PSARP ima za cilj da odvoji fistulu, tj. ektopični anus od urogenitalnog trakta, i da koriguje malpoziciju anorektuma. Ova metoda daje dobre estetske rezultate kao i dobre šanse za postizanje fekalne kontinencije kod pacijenata sa težim oblicima anorektalnih anomalija [4,5].

Opstipacija je najčešća postoperativna komplikacija u lečenju anorektalnih anomalija kod dece sa vestibularnom fistulom. Razlog za ovu pojavu je proširen završni deo rektuma kod ovih pacijenata. Neodgovarajuće konstruisana kolostoma, može biti razlog za zadržavanje stolice u slepom delu rektuma (usled preliivanja iz proksimalne stome u distalni deo creva) i njegovu dilataciju [6]. Neuralne anomalije slepog rektalnog džepa Ishitani je proglasio mogućim uzrokom opstipacije. One obično nestaju pošto završni deo creva preuzme svoju normalnu funkciju [7]. Pražnjenje creva kod našeg pacijenta, nakon završenog hirurškog lečenja, je bilo uredno, bez obzira na preoperativno postojanje vestibularne fistule.

Novorođenče koje smo prikazali je pored atrezije anusa imalo i prenatalno ultrasonografski dijagnostikovanu opstrukciju duodenuma i hidronefrozu sa desne strane.

Prema Tandlerovoj teoriji u drugom mesecu intrauterinog života dolazi do prekomernog bujanja epitelnog sloja zida creva i obliteracije lumena, naročito u predelu duodenuma i rektuma. Rastom creva započinje vakuolizacija solidnog jezgra, te se



Slika 3. Intravenska urografija - hidronefroza desnog bubrega i opstruktivni megaureter

Fig. 3. Intravenous pyelography: hydronephrotic right kidney and obstructive megaureter

to disturbances which happen early in gestational life.

A conflicting theory holds that during the 7th gestational week the urorectal septum does not grow distally and does not fuse with the cloacal membrane, forming the urogenital cavity anteriorly and an anorectal cavity posteriorly [3].

In the second century BC, Soranus recommended anal examination for all newborns [1]. Paulus Aegineta described the first cases with imperforate anus. Litre suggested colostomy [2]. Most reports suggested that good results were to be expected in terms of survival, but poor in regard to fecal continence. The description of the posterior sagittal anorectoplasty (PSARP) by de Vries and Pena (1982) is a landmark in surgery in this region [4].

Imperforate anus can be diagnosed prenatally by ultrasound examination. In this case it wasn't possible because of proximal gastrointestinal obstruction, which was prenatally verified.

According to Pena's algorithm, imperforate anus with vestibular fistula should be managed with colostomy during the neonatal period, and then, after four to eight weeks with posterior sagittal anorectoplasty. PSARP is to separate fistula, ectopic anus from the urogenital tract and to manage the anorectal malposition. This method gives good esthetic results as well as fecal continence [4,5].

lumen rekanališe do kraja desete nedelje gestacije. Ukoliko izostane spajanje vakuola duodenuma fetusa nastaje opstrukcija [8].

Oko 50% novorođenčadi sa atrezijom duodenuma ima kongenitalne anomalije na drugim organskim sistemima, a jedna trećina ima Downov sindrom. Sajja i saradnici su opisali slučaj novorođenčeta sa atrezijom duodenuma, Downovim sindromom, malrotacijom i srčanom anomalijom, kod koga je došlo do multiple idiopatske perforacije proksimalnog jejunuma ispod mesta opstrukcije, a bez prisustva nekrotizirajućeg enterokolitisa [9]. Prenatalna dijagnoza ove anomalije indikuje i amniocentezu radi ispitivanja kariotipa fetusa. To daje vremena da se roditelji pripreme za prihvatanje takvog novorođenčeta, a lekaru za primenu adekvatnih dijagnostičkih i terapijskih procedura neposredno nakon rođenja, s obzirom da se većina ove dece rađa prevremeno zbog polihidramniona. Atrezija duodenuma se postnatalno manifestuje sa povraćanjem žutozelenog sadržaja i postojanjem tipičnog *double-bubble* znaka na nativnom rendgenskom snimku abdomena (dilatirani želudac i duodenum iznad mesta opstrukcije) [10]. Kod našeg pacijenta prenatalno ultrasonografski je dijagnostikovana opstrukcija duodenuma. Urađena je kariotipizacija i utvrđen normalan kariotip, a postnatalno kliničkim pregledom i nativnim snimkom abdomena potvrđena ova dijagnoza, uz prisustvo udruženih anomalija.

Refluksno opstruktivne uropatije sa konsekutivnom hidronefrozom su česte anomalije udružene sa anorektalnim malformacijama. Sanghathat i saradnici su prateći 183 pacijenta sa različitim oblicima anorektalnih anomalija, utvrdili udruženost genitalnih kod 14% slučajeva a urinarnih anomalija kod 26,5% i to najčešće hidronefroze i vezikoureteralnog refluksa. Isti autori su zaključili da je kod svakog deteta sa malformacijom anusa neophodna detaljna evaluacija svih delova urogenitalnog trakta [11]. Opstruktivne uropatije karakterišu se progredirajućim povećanjem volumena pijelokaliksnog sistema u uslovima otežane ureteralne drenaže sa povećanjem intraluminalnog pritiska i trofičkim reperkusijama na bubrežni parenhim. Stoga je važna rana dijagnoza već u novorođenčkom ili odojčadskom uzrastu, a prenatalna ultrasonografska dijagnostika ovih anomalija omogućava nam planiranje operativnog lečenja već u ranom neonatalnom periodu [12,13]. S obzirom na udruženost anomalija, iako prenatalno dijagnostikovana hidronefroza kod našeg pacijenta nije hirurški korigovana neposredno nakon rođenja jer su ekscizija intraluminalne membrane duodenuma kao i kolostomija zbog atrezije anusa, prema algoritmu, predstavljale prioritet u zbrinjavanju.

Postojanje multiplih anomalija kod novorođenčeta zahteva detaljnu kliničku procenu i primenu algoritma za prioritet hirurškog zbrinjavanja a radi postizanja ne samo preživljavanja već i dobrih

Constipation is a rather frequent postoperative complication, as a result of dilatation of the distal rectum. Inappropriate colostomy can provoke keeping the stool in this part of rectum and its dilatation [6]. Ishitani wrote that neural dysplasia can be the reason for constipation. Our patient presented with regular defecation after operation.

The newborn we were discussing had a duodenal obstruction and hydronephrosis together with imperforate anus.

In 1902, Tandler proposed his theory that during the second month of intrauterine life there is extensive growth of the epithelial lining before the size of the gut has increased sufficiently to accommodate it, obliterating the lumen [8].

About 50% of newborn infants with duodenal obstruction have associated congenital anomalies. One third of them have Down syndrome. Sajja et al. discussed the newborn with duodenal atresia, Down syndrome, intestinal malrotation and cardiac anomalies who had multiple idiopathic jejunal perforations after obstruction and without necrotising enterocolitis [9]. Prenatal diagnostic procedures include amniocentesis in order to prepare parents and physicians to deal with such a newborn. Bilious vomiting and double-bubble sign on plain radiography (dilated stomach and proximal duodenum) are characteristics of duodenal atresia [10]. In our patient duodenal obstruction was diagnosed prenatally by ultrasonography. Karyotype analysis was normal. The diagnosis of duodenal obstruction with associated anomalies was confirmed after birth by physical examination and plain radiography.

Reflux-obstructive urologic abnormalities can be associated with imperforate anus. Sanghathat et al. examined 183 patients with imperforate anus. Genital anomalies were associated in 14% and urologic in 26.5% of cases. Hydronephrosis and vesicoureteral reflux were the most common anomalies. They concluded that routine evaluation of urogenital tract in such patients was necessary [11]. Pelvic dilatation and calyces is the first anatomic response to obstructive anomaly and may lead to damage of renal parenchyma. For that reason, early diagnosis during prenatal or neonatal period is very important [12, 13]. In our patient, according to algorithm, excision of the intraluminal duodenal membrane and colostomy had priority, despite prenatally diagnosed hydronephrosis.

Associated abnormalities demand precise clinical assessment and an algorithm of surgical treatment in order to gain good postoperative results as well as quality of life.

postoperativnih rezultata i kvaliteta života koji tek započinje.

Zaključak

U ovom radu prikazali smo novorođenče sa multiplim urođenim anomalijama. Atrezija duodenuma i hidronefroza sa megaureterom desne strane, su prenatalno dijagnostikovane, a atrezija anusa neposredno nakon rođenja. Novorođenče je u prvom satu života, transportovano u hiruršku ustanovu gde je odgovarajućim dijagnostičkim procedurama postojanje anomalija potvrđeno. Prema algoritmu za svaku od njih, pristupilo se hirurškom zbrinjavanju u adekvatnom vremenskom periodu.

Dete je sada u trećoj godini života, normalnog je psihofizičkog razvoja za uzrast, fekalno je kontinentno bez opstipacije i prljanja veša između normalnih defekacija, kao i bez urinarnih infekcija.

Conclusion

This is a case report of a newborn with multiple congenital anomalies. Duodenal atresia and hydronephrosis with right megaureter were diagnosed prenatally. Imperforate anus was diagnosed just after birth. The newborn was transported to the Pediatric Surgery Clinic in the first hour of life where diagnoses were confirmed. All anomalies were surgically treated according to an algorithm.

The child is three years old at the moment and shows normal psychophysical development. Bowel control is normal, without constipation and soiling and there is no urinary infection.

Literatura

1. James A, O'Neil Jr MD. The newborn as a surgical patient. *Pediatr Surg* 1998;1:33-43.
2. van der Putte SCJ. Normal and abnormal development of the anorectum. *J Pediatr Surg* 1986;21:434-40.
3. Pena A. Anorectal malformations. *Semin Pediatr Surg* 1995;4:35-7.
4. Pena A. Management of anorectal malformations during the newborn period. *World J Surg* 1993;17:385-92.
5. Živković SM, Krstić ZD, Vukanić DV. Vestibular fistula: the operative dilemma-cutback, fistula transplantation or posterior sagittal anorectoplasty? *Pediatr Surg Int* 1991;6:111-3.
6. Rintala R, Kildh L, Lindahl H. Fecal continence and quality of life in adult patients with an operated high or intermediate anorectal malformation. *J Pediatr Surg* 1994;29:777-80.
7. Ischitani MB, Rodgers BM. Anteriorly displaced anus: an under-recognized cause of chronic constipation. *J Pediatr Surg* 1991;6:217-20.
8. Grosfeld JL, Rescoria FJ. Duodenal atresia and stenosis: reassessment of treatment and outcome based on antenatal diagnosis pathologic variance, and long-term follow-up. *World J Surg* 1993;17:301-11.
9. Sajja SB, Middlesworth W, Niazi M, Schein M, Gerst PH. Duodenal atresia with proximal jejunal perforation: a case report and review of the literature. *J Pediatr Surg* 2003;38(9):1396-8.
10. James A, O'Neill Jr. Duodenal atresia et stenosis-annular pancreas. *Pediatr Surg* 1998;2:1133-43.
11. Sangkhathat S, Patrapinyokul S, Tadtayathikom K. Associated genitourinary tract anomalies in anorectal malformations: a thirteen year review. *J Med Assoc Thai* 2002;8(3):289-96.
12. Walsch R, Stameg V. In: Campbell's urology. *Pediatr Urologic Surg* 1992;2:1708-18.
13. Woodward M, Frank D. Postnatal management of antenatal hydronephrosis. *Br J Urol Int* 2002;89:149-56.

Rad je primljen 8. III 2004.

Prihvaćen za štampu 14. VII 2004.

BIBLID.0025-8105:(2004):LVII:11-12:573-578.