

Aus der Kinderchirurgie  
(Dr. med. habil. B. Reingruber)  
Lehrstuhl für Chirurgie der Universität Regensburg  
(Prof. Dr. med. H. J. Schlitt)

DIE DIAGNOSTISCHE SAKRALNERVENSTIMULATION (SNS) IN DER  
KINDERCHIRURGIE

Inaugural-Dissertation  
zur Erlangung des Doktorgrades  
der Medizin

der  
Fakultät für Medizin  
der Universität Regensburg

vorgelegt von  
Beate Blank

2018



Aus der Kinderchirurgie  
(Dr. med. habil. B. Reingruber)  
Lehrstuhl für Chirurgie der Universität Regensburg  
(Prof. Dr. med. H. J. Schlitt)

DIE DIAGNOSTISCHE SAKRALNERVENSTIMULATION (SNS) IN DER  
KINDERCHIRURGIE

Inaugural-Dissertation  
zur Erlangung des Doktorgrades  
der Medizin

der  
Fakultät für Medizin  
der Universität Regensburg

vorgelegt von  
Beate Blank

2018

Dekan: Prof. Dr. Dr. Torsten E. Reichert

1. Berichterstatter: Prof. Dr. med. H. J. Schlitt

2. Berichterstatter: PD Dr. med. Wibke Uller

Tag der mündlichen Prüfung: 23.05.2018

# Inhaltsverzeichnis

<b>1. Einleitung</b>	<b>7</b>
1.1 Luigi Galvani und die Froschschenkel	7
<b>1.2 Physiologische und Anatomische Grundlagen der Sakralnervenstimulation (SNS)</b>	<b>8</b>
1.2.1 Physiologie von Nervenleitung und Muskelkontraktion	8
1.2.2 Anatomie von Rektum und Anus	9
1.2.3 Der Plexus sacralis	12
<b>1.3 Angeborene Fehlbildungen des Enddarmes</b>	<b>13</b>
1.3.1 Anorektale Fehlbildungen	13
1.3.2 Morbus Hirschsprung	17
1.3.3 Andere Fehlbildungen	18
<b>1.4 Der Analsphinkter, Morphologie und Neurologie als Gegenstand aktueller Untersuchungen</b>	<b>18</b>
<b>1.5 Therapeutische SNS</b>	<b>20</b>
<b>2. Fragestellung und Studienziel</b>	<b>22</b>
<b>3. Material und Methoden</b>	<b>23</b>
3.1 Material	23
<b>3.2 Methoden</b>	<b>24</b>
3.2.1 Modifikationen der SNS für die diagnostische Anwendung in der Kinderchirurgie	24
3.2.2 Intraoperatives Setting und Vorgehen	24
3.2.3 Dokumentation und Pseudonymisierung der Patienten	26

3.2.4 Radiologische Auswertung	27
3.2.5 Evaluation der Kontinenz nach der Krickenbeck-Klassifikation	28

## **4. Ergebnisse** **30**

### **4.1 Übersichten** **30**

4.1.1 Patienten	30
4.1.2 Indikationen zur Durchführung einer SNS	31
4.1.3 Reizschwellen und Beobachtungen	33
4.1.4 Radiologische Auswertung	37
4.1.5 SR, Kontinenz, Schwellenwerte des Beckenbodens	41
4.1.6 Ergebnisse der Nachuntersuchungen in Bezug auf die Sicherheit der Methode	42

### **4.2 Kasuistiken** **43**

4.2.1 Patient #10: Vollständig gekreuzte Innervation der Sakralnerven	43
4.2.2 Patient #1: Korrelat für kreuzende Innervation der Sakralnerven im MRT	44
4.2.3 Patient #21: Partiiell kreuzende Innervation der Sakralnerven bei M. Hirschsprung	46
4.2.4 Patient #6: Partiiell kreuzende Innervation der Sakralnerven bei perinealer Fistel	47
4.2.5 Patient #18: Partiiell kreuzende Innervation der Sakralnerven bei Blasenektrophie	48

## **5. Diskussion** **50**

### **5.1. Durchführbarkeit der diagnostischen SNS in der Kinderchirurgie** **50**

### **5.2 Diskussion der Methodik** **50**

5.2.1 Modifikationen der SNS als diagnostisches Verfahren in der Kinderchirurgie	50
5.2.2 Sicherheit der Methode	51
5.2.3 Fehlerquellen bei Gerät und Anwender	51
5.2.4 Die SR als Prognosefaktor	52

5.2.5 Verwendung der Krickenbeck-Klassifikation für die postoperative Kontinenzevaluation	53
5.2.6 Vergleich der diagnostischen SNS mit direkter Muskelstimulation, SR und „percutaneous tibial nerve stimulation“	53
<b>5.3 Diskussion der Ergebnisse</b>	<b>54</b>
5.3.1 Beurteilung der Schwellenwerte	54
5.3.2 Auswertung der MRT-Aufnahmen	55
5.3.3 Ergebnisse der SR in Bezug auf die Kontinenzbefragung	57
5.3.4 Beobachtungen bei der SNS: Erstbeschreibung kreuzender Innervationen der Sakralnerven	57
5.3.5 Vorschlag zur Systematik kreuzender Innervationsmuster	59
<b><u>6. Ausblick</u></b>	<b><u>62</u></b>
<b>6.1 Anwendbarkeit der SNS als Neuromapping</b>	<b>62</b>
<b>6.2 Entwicklung eines standardisierten diagnostischen Procederes auf funktioneller Ebene</b>	<b>62</b>
6.2.1 Das Potenzial der diagnostischen SNS in Diagnostik und Prognoseabschätzung	64
6.2.2 Ergänzung der diagnostischen SNS durch das Sphinkter-EMG	65
<b>6.3 Anpassung des operativen Vorgehens an die individuelle Neurophysiologie</b>	<b>65</b>
<b><u>7. Zusammenfassung</u></b>	<b><u>67</u></b>
<b><u>8. Dokumentations- und Fragebögen</u></b>	<b><u>71</u></b>
8.2 Anamnesebogen Kinderproktologie	72
<b><u>9. Verzeichnisse</u></b>	<b><u>76</u></b>
9.1 Abbildungsverzeichnis	76

<b>9.2 Tabellenverzeichnis</b>	<b>77</b>
<b><u>10. Anhang</u></b>	<b><u>79</u></b>
<b><u>11. Publikationshinweise</u></b>	<b><u>84</u></b>
<b><u>12. Literatur</u></b>	<b><u>86</u></b>
<b><u>13. Erklärungen</u></b>	<b><u>95</u></b>
13.1 Ehrenwörtliche Erklärung	95
13.2 Erklärung zu Anregung und Überwachung der Dissertation	96
<b><u>14. Lebenslauf</u></b>	<b><u>97</u></b>

# 1. Einleitung

## 1.1 Luigi Galvani und die Froschschenkel

Der italienische Mediziner Luigi Galvani und dessen weltberühmte Versuche an Froschschenkeln werden immer wieder gern als anschauliche Anekdote zur Einführung in die Elektrophysik im Schulunterricht verwendet.

Während einer von Galvanis Assistenten gerade mit einer Elektrizitätsmaschine experimentierte, präparierte Galvani am gleichen Tisch Froschschenkel, welche er mit einem Teil des Rückens vom Rumpf eines Frosches abgetrennt hatte. Als er beim Abziehen der Haut gleichzeitig mit der Spitze des Messers die Nerven des Rückgrats berührte und die metallische Klinge zwischen den Fingern hielt, zuckte der Froschschenkel krampfartig; er schien wieder „lebendig“.

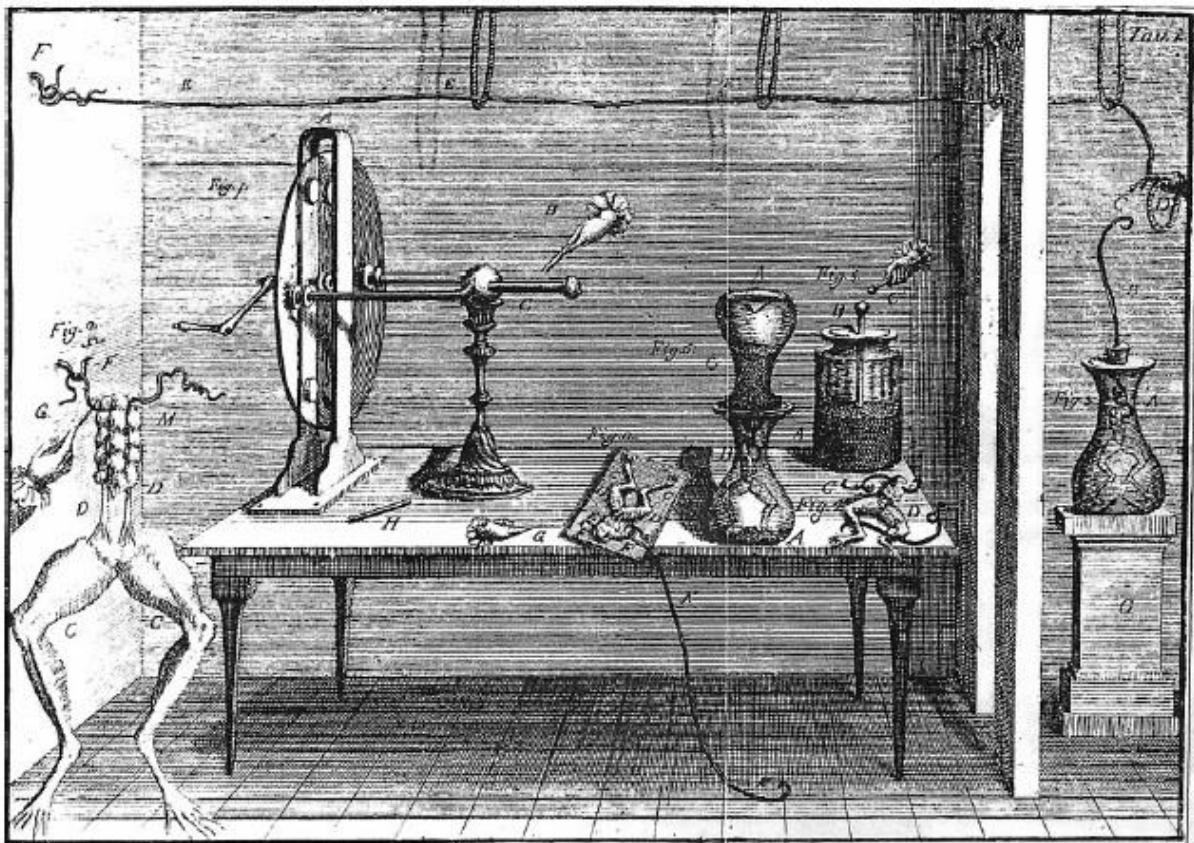


Abbildung 1: Versuchsskizze aus Luigi Galvanis Originalarbeit „De viribus electricitatis in motu musculari“ (1)

Diese zufällige Beobachtung führte zu einer ganzen Reihe von Versuchen, auf deren Erkenntnisse unter anderem auch das Prinzip der Batterie zurückgeht.

Später veröffentlichte Galvani diese Untersuchungsreihe unter dem Titel "De viribus electricitatis in motu musculari", also „Von den Kräften der Elektrizität in der Bewegung der Muskeln“ (1,2).

Aus physioanatomischer Sicht lassen sich die Ereignisse in Luigi Galvanis Laboratorium vereinfacht folgendermaßen erklären: Da die Elektrizitätsmaschine Funken gab, hatte Galvani sich über die Klinge seines Skalpells mit den Sakralnerven des Frosches elektrisch verbunden. Die so übertragene Spannung leitete sich über die Nerven zu den Muskeln fort, wo sie eine deutlich sichtbare Kontraktion auslöste.

Zusammengefasst hatte Luigi Galvani in diesem geschichtsträchtigen Versuch die erste dokumentierte Sakralnervenstimulation durchgeführt und damit den Grundstein der Elektrophysiologie gelegt.

## **1.2 Physiologische und Anatomische Grundlagen der Sakralnervenstimulation (SNS)**

Zunächst werden im folgenden Abschnitt die Grundlagen aus Physiologie und Anatomie zusammengefasst dargestellt, die für das Verständnis der der SNS zugrunde liegenden Vorgänge notwendig sind.

### **1.2.1 Physiologie von Nervenleitung und Muskelkontraktion**

Nervenzellen sind Erzeuger und Überträger elektrischer Impulse, die sie auf Muskelzellen durch ein chemisches Signal übertragen können; diese wiederum reagieren auf Impulse mit einer Kontraktion.

Eine sich im nicht erregten Zustand befindliche Nervenzelle weist aufgrund ungleicher Ionenverteilungen zwischen Intra- und Extrazellulärraum eine negative Oberflächenspannung von ca. -90 mV auf, das sogenannte Ruhepotenzial. Dieses wird durch die Aktivität der Natrium-Kalium-Pumpe aufrechterhalten.

Die Zelle wird erregt, wenn sich ihr Potenzial auf eine weniger negative Spannung verändert. Dies geschieht entweder durch einen lokalen Kationeneinstrom in die Zelle oder durch eine elektrische Erregung aus der Umgebung. Wird der charakteristische

Schwellenwert der Zelle überschritten, wird das Aktionspotenzial über die gesamte Länge der Nervenzelle übertragen.

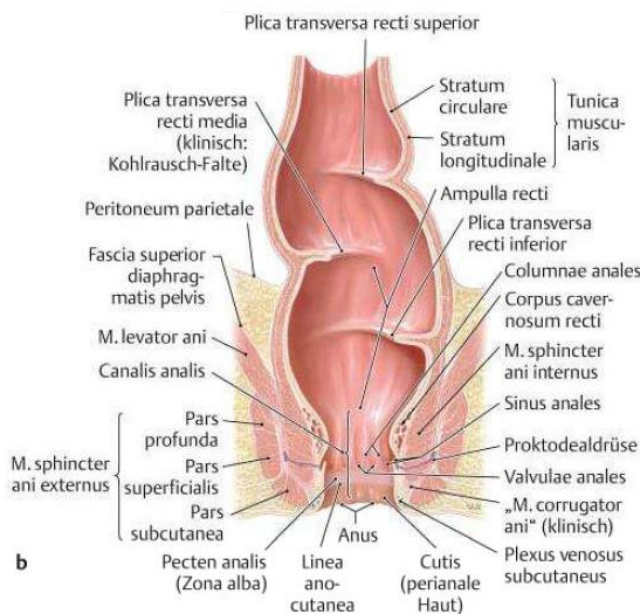
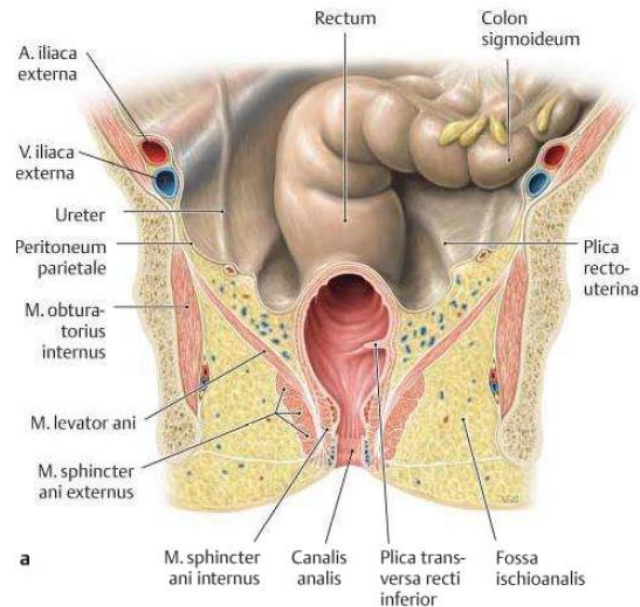
Am Ende einer Nervenzelle ist diese entweder mit einer weiteren Nervenzelle über eine Synapse oder mit einer Muskelzelle in Form einer motorischen Endplatte verbunden. In beiden Fällen gibt die Nervenzelle chemische Transmitter ab, welche die Erregung an die angeschlossene Zelle weitergeben, indem diese dort wiederum an spezifischen Kanälen einen Kationeneinstrom auslösen.

Während die Erregung einer Nervenzelle lediglich gemessen werden kann, wird die einer Muskelzelle in Form einer Kontraktion der Zelle sichtbar.

Erst, wenn dieser Prozess zwischen zahlreichen Zellen ordnungsgemäß und ungehindert – was den räumlichen Kontakt zwischen Nervenende und Zielorgan (Muskel) voraussetzt – stattfindet, kann ein Muskel erfolgreich gesteuert und willentlich kontrahiert werden (3).

#### 1.2.2 Anatomie von Rektum und Anus

Rektum und Anus sind die letzten beiden Abschnitte des Dickdarmes und bilden eine funktionelle Einheit, welche sowohl die Kontinenz gewährleistet als auch der Stuhlauscheidung dient (4).



Ansicht von ventral (a) und Darstellung des Innenreliefs nach Entfernung der Rektum-Vorderwand (b). Der Kohlrausch-Falte im Rektuminneren entspricht an der Außenwand eine Einziehung.

Abbildung 2: Die Anatomie von Anus und Rektum (4)

Embryologisch betrachtet bilden sich Rektum und Anus aus der Kloake, einem gemeinsamen Ende des Darmrohres und des Urogenitaltraktes, die durch die Membrana cloacalis aboral verschlossen wird. Zwischen vierter und sechster Woche der Embryonalentwicklung bildet sich das Septum urorectale, ein stark proliferierendes Bindegewebe, das die Kloake in den primären, ventral gelegenen Sinus urogenitalis und das

dorsal davon liegende Rektum trennt. Hierbei wird die Membrana cloacalis in die Membrana urogenitalis und die Membrana analis geteilt, welche sich zwischen dem 45. und dem 47. Tag auflösen. Die perineale Muskulatur entsteht aus dem das Darmrohr umgebenden Mesoderm (5,6,7,8).

Das Rektum ist beim Erwachsenen ein 12 bis 18 cm langer, sich im kleinen Becken befindlicher Darmabschnitt; der Übergang von Colon sigmoideum zum Rektum liegt ca. auf Höhe des 2. bis 3. Sakralwirbels. Der Analkanal, auch Canalis analis, geht aus dem Rektum an der Flexura perinealis hervor. Auf der Innenseite zeigt sich die gewellte Junctio Anorectalis, welche den Übergang von Rektum zu Analkanal markiert. Der Analkanal wird in drei Zonen gegliedert: Die Zona columnalis, die Zona alba (Pecten analis) und die Zona cutanea. Im Anschluss an die Junctio anorectalis liegt die Zona columnalis, in welcher unregelmäßig abwechselnd Zylinderepithel und mehrschichtiges unverhorntes Plattenepithel vorliegen. Die Linea pectinea grenzt die Zona columnalis von der Zona alba ab. Hier findet sich mehrschichtiges unverhorntes Plattenepithel, welches unverschieblich mit dem M. sphincter ani internus verbunden ist. Die Zona cutanea zeichnet sich durch mehrschichtiges und unverhorntes Plattenepithel mit Talgdrüsen aus. Zwischen Zona alba und Zona cutanea liegt die Linea anocutanea. Es folgt die Perineale Haut mit verhorntem Plattenepithel und apokrinen Drüsen. Die Öffnung des Darmes nach außen wird als Anus bezeichnet.

Ventral von Rektum und Analkanal liegen bei der Frau Vagina und Uterus, beim Mann die Blase, die Geschlechtsdrüsen Prostata und Glandulae vesiculosae sowie der Ductus deferens, dorsal des Rektums befindet sich das Os sacrum.

Für die Kontinenz entscheidende Muskelzüge sind der Musculus puborectalis, welcher sich wie eine Schlinge um das Rektum legt, der M. levator ani mit seinen kaudalen Anteilen, sowie die Mm. sphincter ani internus und externus. Letzterer soll hier besonders hervorgehoben werden, da seine Kontraktion bei der diagnostischen Sakralnervenstimulation ausgelöst und seine Funktion damit überprüft wird (9). Er teilt sich in drei Teile auf, die Pars profunda, die Pars superficialis und die Pars subcutanea, welche eine funktionelle Einheit bilden. Ihre somatomotorische Innervation wird vom Nervus pudendus geleistet, welcher sich aus Faseranteilen aus S2–S4 zusammensetzt (4,10,11).

### 1.2.3 Der Plexus sacralis

Die aus den frontalen Sakralforamina austretenden somatomotorischen Nervenbündel bilden in einem komplizierten Nervengeflecht die späteren anatomisch abgrenzbaren Nerven des peripheren sakralen Nervensystems. Der Aufbau des Plexus sacralis wird in Abbildung 3 dargestellt.

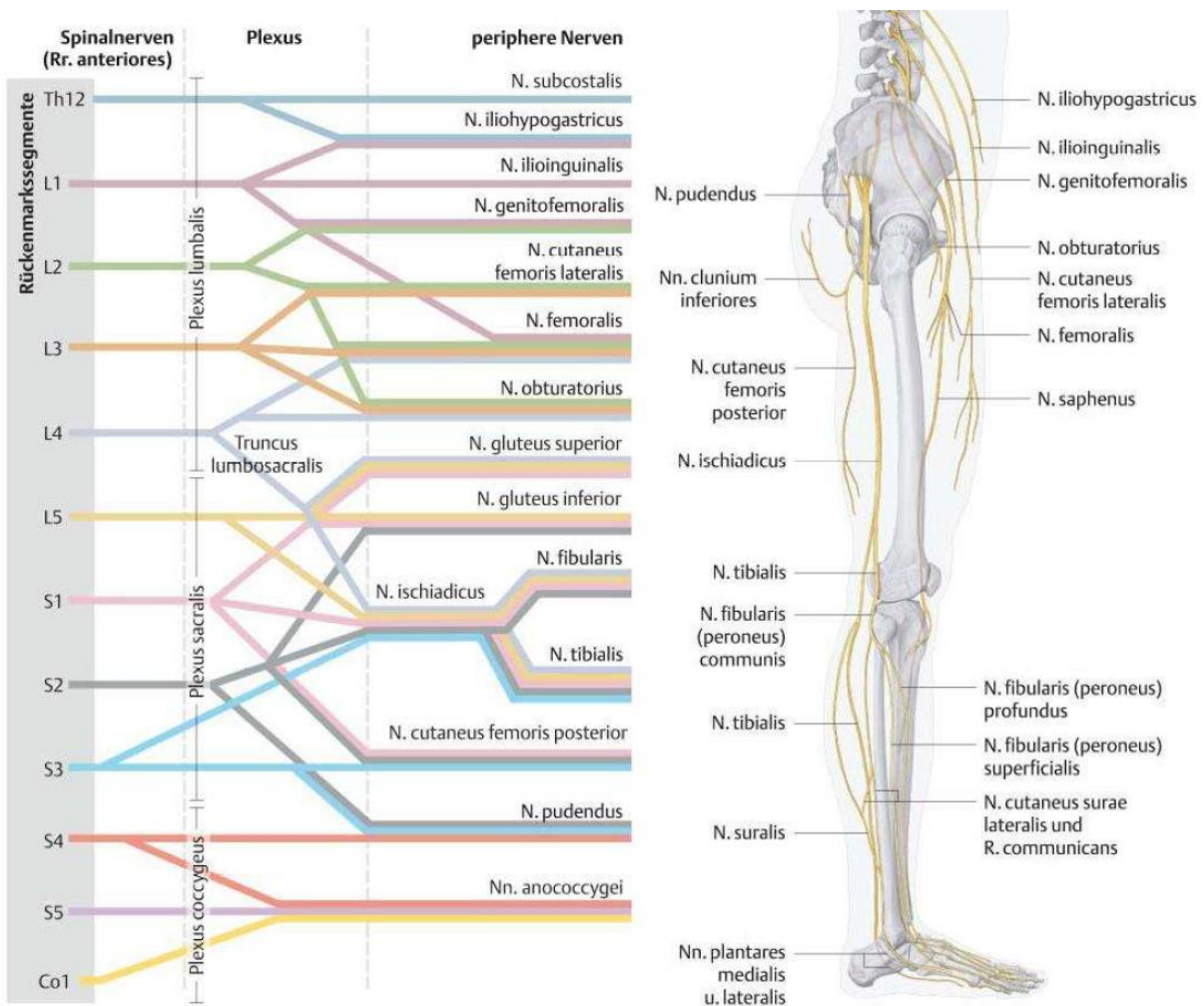


Abbildung 3: Der Plexus sacralis: Schematische Darstellung und anatomischer Verlauf der Strukturen in der Peripherie (4)

Es wird deutlich, dass sich der den äußeren Analsphinkter innervierende Nerv, der Nervus pudendus, aus Faseranteilen der Segmente S2–S4 zusammensetzt. Aus diesen Segmenten setzen sich ebenfalls die für die Innervation der Kennmuskeln verantwortlichen Nerven zusammen (4).

Nervus pudendus	<b>S2–S4</b>	Muskeln des Beckenbodens	Sphincter ani externus
Nervus ischiadicus (Nervus tibialis, Nervus fibularis communis)	<b>L4–S3</b>	Nervus peroneus communis	Musculus tibialis anterior
	<b>L4–S3</b>	Nervus tibialis	Musculus flexor hallucis longus M. flexor digiti minimi

Tabelle 1: Der Zusammenhang zwischen Plexus sacralis und den untersuchten Nervenbahnen (9)

### **1.3 Angeborene Fehlbildungen des Enddarmes**

Die für die vorliegende Arbeit relevanten Fehlbildungen des Enddarmes sollen im Folgenden zusammenfassend dargestellt. Dabei handelt es sich um die Fehlbildungen des Enddarmes, welche man unter dem Begriff Anorektale Malformationen (ARM) zusammenfasst, den Morbus Hirschsprung sowie andere Fehlbildungen.

#### **1.3.1 Anorektale Fehlbildungen**

Der Begriff „anorektale Fehlbildung“ oder ARM (kurz für „anorectal malformation“) fasst eine Gruppe verschiedener angeborener Fehlbildungen des Enddarmes zusammen, welche sich embryologisch im Stadium der primitiven Kloake manifestieren. Betroffen sein können der Analkanal sowie verschieden lange Abschnitte von Rektum und Kolon; sie sind häufig mit Fisteln zum Urogenitaltrakt, Verlagerungen der Analöffnung sowie Fehlbildungen anderer Organe vergesellschaftet. Die häufigsten Formen stellen die Analatresie und perineale Fisteln dar (12).

Die unterschiedlichen Formen der ARM werden nach Wingspread (13) geschlechtsbezogen und nach anatomischer Höhe der Lokalisation der Fehlbildung eingeteilt. Die seit 2005 bestehende Krickenbeck-Klassifikation teilt die ARM nach Häufigkeit ihres Auftretens ein.

♂	♀
<b>Hoch</b>	
Anorektale Agenesie mit urethraler Fistel/ohne Fistel	Anorektale Agenesie mit rektovaginaler Fistel/ohne Fistel
Rektalatresie	Rektalatresie
<b>Mittel</b>	
Rektobulbäre urethrale Fistel	Rektovestibuläre Fistel
Analagenesie ohne Fistel	Rektovaginale Fistel
	Analagenesie ohne Fistel
<b>Tief</b>	
Anokutane (perineale) Fistel	Anovestibuläre Fistel
Analstenose	Anokutane (perineale) Fistel
	Analstenose
	Kloake
<b>Seltene Fehlbildungen</b>	

Tabelle 2: Übersicht über die Wingspread-Klassifikation der anorektalen Fehlbildungen (13)

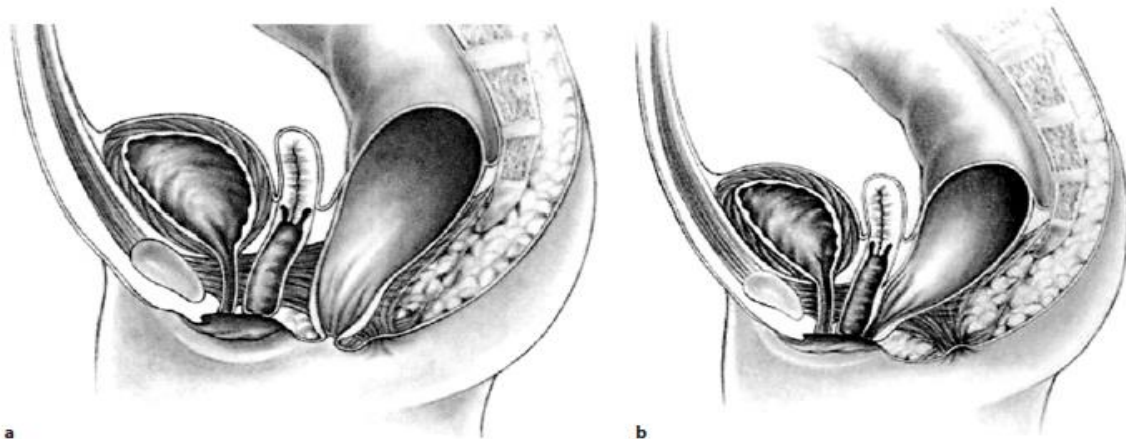
Hauptgruppe	Seltene Fehlbildungen / regionale Besonderheiten
Perineale (kutane) Fistel	Pouch Colon
Rektourethrale Fistel	Rektumatresie
- Rektoprostatische Fistel	Rektumstenose
- Rektobulbäre Fistel	Rektovaginale Fistel
Rektovesikale Fistel	H-Fistel
Vestibuläre Fistel	Andere seltene Formen
Kloakenfehlbildungen	
Keine Fistel	
Analstenose	

Tabelle 3: Krickenbeck-Klassifikation anorektaler Fehlbildungen (14)

Die Diagnose einer anorektalen Fehlbildung wird vorwiegend bei der Erstuntersuchung des Neugeborenen aufgrund des fehlenden Anus bzw. der Fistel gestellt.

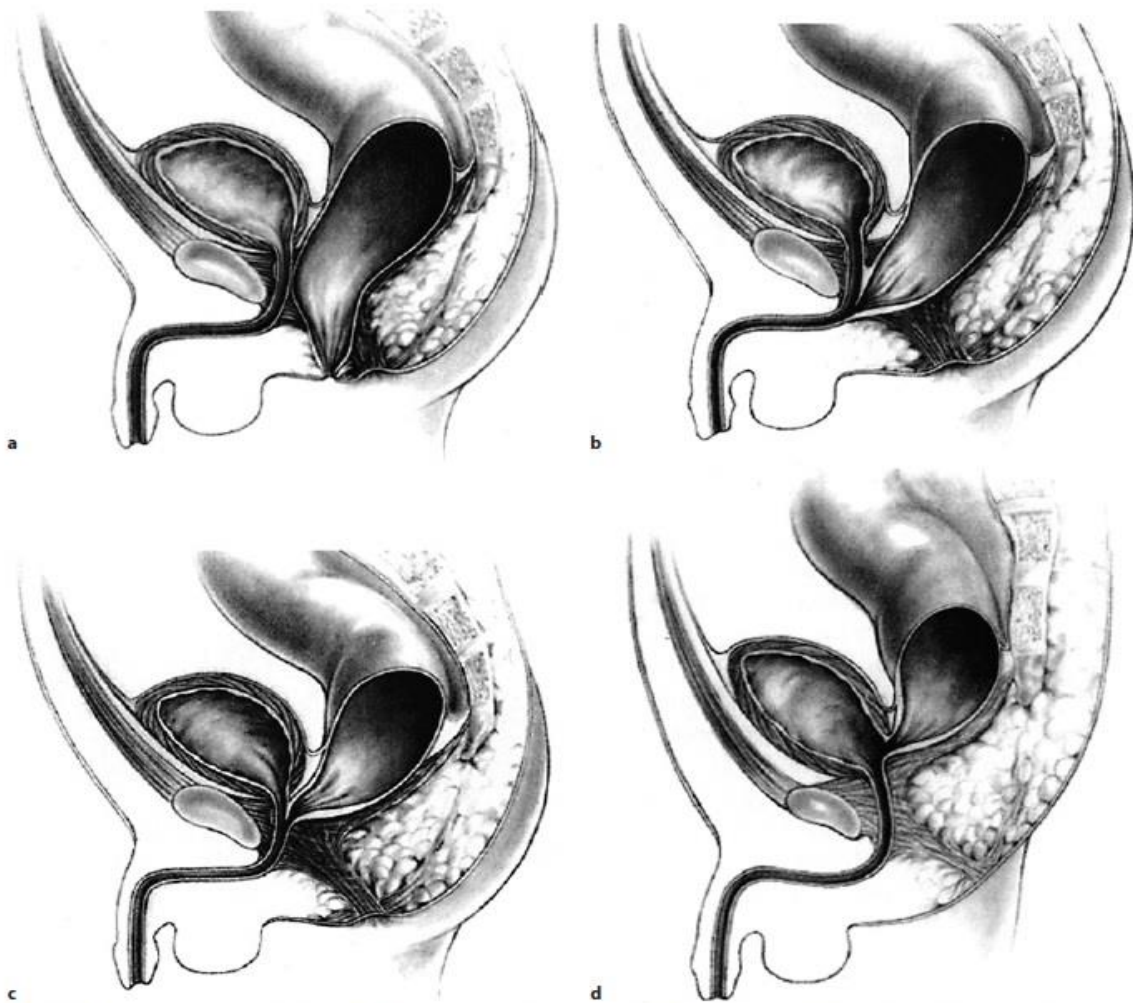
Wird bei der perinealen Inspektion eine Fistel gefunden, sollte diese gegebenenfalls sondiert werden. Wichtige Informationen bringen Urinanalyse, ein perinealer Ultraschall und ein Ausschluss zusätzlicher Fehlbildungen. Zusätzlich können Miktionszysturethrografie, Kloakografie, Zystogenitoskopie, Chromosomenanalyse, Sonografie oder MRT von Abdomen, Wirbelsäule und Spinalkanal sowie eine Untersuchung der Urodynamik erforderlich sein.

In den Abbildungen 4 und 5 werden die häufigsten Fistelformen bei Mädchen und Knaben dargestellt.



**Abb. 30.8a, b.** Die häufigsten Fistelformen bei Mädchen mit Analtresie. **a** Perineale Fistel. **b** Vestibuläre Fistel (Pena 1989; Levitt u. Pena 2006b)

Abbildung 4: Darstellung der häufigsten Fistelformen der Analtresie bei Mädchen (12)



**Abb. 30.6a–d.** Die häufigsten Fistelformen bei Knaben mit Analatresie. **a** Perineale Fistel. **b** Rektourethrobulbäre Fistel. **c** Rektourethroprostatistische Fistel. **d** Rektum-Blasenhals-Fistel (nach Levitt u. Pena 2006a)

Abbildung 5: Darstellung der häufigsten Fistelformen Analatresie bei Knaben (12)

Die Therapie der verschiedenen ARM wird je nach Geschlecht des Patienten anhand unterschiedlicher Algorithmen geplant. Vordringlich ist hierbei die Entscheidung zwischen einer operativen Primärversorgung der ARM oder der Anlage eines Kolostomas, um den definitiven Eingriff zur Korrektur der ARM auf einen späteren Zeitpunkt zu verschieben. Diese kann in der überwiegenden Zahl der Fälle durch eine posteriore sagittale Anorektoplastik (PSARP) (15) oder bei hoher Harnwegsfistel mit laparoskopischem Fistelverschluss als laparoskopisch assistierte Durchzugsoperation (LAARP) erfolgen (16, 12).

Zwei der in der vorliegenden Arbeit erwähnten Patienten hatten eine Blasenektrophie. Hierbei handelt es sich um eine angeborene Missbildung der Harnblase, welche die

häufigste Form der Fehlbildungen des Bladder-Exstrophy-Epispadias-Complex (BEEC) darstellt. Dabei liegt aufgrund von damit einhergehenden Fehlbildungen von Bauchwand und Beckenknochen die Rückwand der Blase frei. Auch wenn es sich hierbei nicht um eine Fehlbildung des Enddarmes handelt, so ist die Maximalform des BEEC in Form einer kloakalen Exstrophie mit einer hohen Analtresie vergesellschaftet (17,18).

### 1.3.2 Morbus Hirschsprung

Der Morbus Hirschsprung ist definiert als eine angeborene Fehlbildung des enterischen Nervensystems, die stets vom Anus ausgehend verschieden lange Darmabschnitte betreffen kann (12). Durch das Fehlen (Aganglionose) von Nervenzellen fehlt in den betroffenen Abschnitten die Fähigkeit, das glatte Muskelgewebe zu entspannen, es kommt durch die eingeschränkte Motilität zu einer funktionellen Stenose.

Klinisch fallen 90% der Patienten bereits als Neugeborene durch klassische Symptome wie verspäteten Mekoniumabgang (später als 24 Stunden nach der Geburt), abdominelle Distension, Erbrechen oder Enterokolitis auf. Bei betroffenen Patienten kann es später, meist nach der Nahrungsumstellung, zu schweren chronischen Obstipationen, Überlaufenkopresis, explosionsartiger Stuhlentleerung nach rektaler Untersuchung oder dem klinischen Bild eines Ileus- bzw. Subileus mit Enterokolitis bis hin zum toxischen Megakolon kommen. Zu den sekundären Symptomen werden Gedeihstörungen, Meteorismus, rezidivierende Enterokolitiden sowie Anorexie und Kachexie mit Hyperproteinämie und Anämie gezählt.

Trotz der ausgeprägten klinischen Symptomatik müssen bei der Diagnosestellung eines Morbus Hirschsprung weitere Verfahren herangezogen werden, wobei der Verdacht auf diese Krankheit mit zwei Methoden erhärtet werden kann: anhand der Anomanometrie und des Kolonkontrasteinlaufs (KE). Bei der Anomanometrie wird über eine durch den Anus in den Analkanal eingeführte Sonde der Sphinkterdruck bestimmt und Auslösbarkeit einer reflektorischen Entspannung des Analsphinkters überprüft. Typischerweise zeigt sich beim M. Hirschsprung das radiologische Bild eines Megakolons; der von der Aganglionose betroffene Abschnitt, dessen Länge im KE gut abgeschätzt werden kann, zeigt sich in diesem eng gestellt; der Übergang ist trichterförmig, da der gesunde Teil des Darmes durch den aus der Stenose resultierenden

Überdruck distendiert wird. Sowohl Anomanometrie als auch Kolonkontrasteinlauf weisen auf einen Morbus Hirschsprung hin; die Diagnose wird mittels histologischer Untersuchung einer Rektumbiopsie gestellt. Die Entnahme dieser erfolgt in Form einer Saug- bzw. Exzisionsbiopsie des Dickdarmes in definierten Abständen zum Anus. Um die Länge des betroffenen Segmentes zu bestimmen, erfolgen weitere Biopsien des Dickdarmes in definierten Abständen zum Anus. Histologisch muss das Fehlen von intramuralen Ganglien im Plexus myentericus sowie im Plexus submucosus, eine Hyperplasie der cholinergen Nervenfasern, eine Hyperplasie der cholinergen Nervenfasern oder histochemisch eine Erhöhung der Acetylcholinesterase nachgewiesen werden, um die Diagnose eines Morbus Hirschsprung zu sichern (12).

Die Therapie des Morbus Hirschsprung erfolgt durch eine operative Entfernung des aganglionären Darmsegmentes, die sogenannte Durchzugs-OP. Die Resektion des betroffenen Darmabschnittes kann mithilfe unterschiedener Techniken erfolgen. Zu nennen sind hier die extraanale Resektion nach Swenson und Bill (19), die End-zu-Seit Anastomose nach Duhamel (20), die tiefe anteriore Resektion nach Rehbein (21), der endorektale Durchzug nach Soave (22), die laparoskopisch assistierte Durchzugsoperation nach Georgeson (23) und der transanale endorektale Durchzug nach De la Torre (24, 12, 25)

### 1.3.3 Andere Fehlbildungen

Sakrokokzygeale Tumoren können in direkter Umgebung des Enddarmes auftreten. Hierbei handelt häufig um Teratome, wobei es sich um Tumoren embryologischer Genese handelt, die sich aus pluripotenten Stammzellen entwickeln. (26, 27). Weitere Differenzialdiagnosen für sakrokokzygeale Tumoren sind Ependymome, Ependymoplastome, Neuroblastome, Rhabdomyosarkome sowie Ovarialtumoren (28, 29, 30).

## **1.4 Der Analsphinkter, Morphologie und Neurologie als Gegenstand aktueller Untersuchungen**

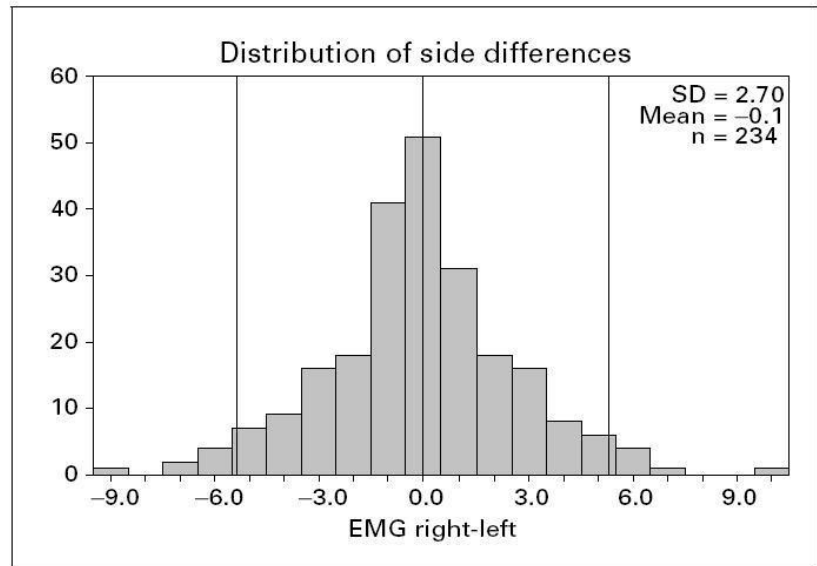
Die genauen Abläufe der Embryonalentwicklung eines gesunden Anorektums und damit auch des äußeren Analsphinkters sind nicht vollständig geklärt und noch immer

Gegenstand zahlreicher Untersuchungen (7, 31, 32). Dabei spielt ebenfalls die Pathogenese bei ARM eine maßgebliche Rolle; sie wurde bei Schweine- (33) und Rattenembryos (34, 35, 36) untersucht. Wang et al. zeigten dabei ein deutlich abnormes Innervationsschema der Rattenembryos mit ARM im Vergleich zu gesunden.

Reginelli et al. wiesen in einer Studie mittels sonographischer Untersuchungen Asymmetrien des Sphinkterkomplexes nach (37).

Das Vorkommen asymmetrischer Sphinkterinnervationen wurde bereits 1999 postuliert, nachdem in einer Studie anhand transkranieller Magnetstimulationen Sphinkterkontraktionen mit einem zweikanaligen Elektromyogramm abgeleitet wurden (38).

Der OASIS-Report (project OASIS, QLRT-2001-00218, Projektnummer QLK6-CT-2001-00218) enthält verschiedene Studien, welche diese Asymmetrien in der Innervation des äußeren Analsphinkters an gesunden Patienten analysieren. Im Rahmen dieses Reports wurde sich mit der Entwicklung einer nicht-invasiven Maßnahme zur Diagnostik der beschriebenen Innervationsmuster in Form einer EMG-Sonde mit 16 zirkulär angeordneten Ableitungskanälen befasst (39, 40, 41, 42).



**Fig. 3.** Distribution of S-EMG amplitude side differences among 234 consecutive patients with fecal incontinence. Note the nearly normal distribution of values.

Abbildung 6: Verteilungsmuster für asymmetrische Innervationen nach Enck et al. (40)

Anhand von Untersuchungen am äußeren Analsphinkter wurde dabei gezeigt, dass das Vorkommen seitenbezogener Dominanzen in der Innervation einer Gauß'schen Verteilungskurve (Abbildung 6) folgt (40).

In einer weiteren Veröffentlichung konnten unterschiedlich dominante Funktionen der beiden Nn. pudendi sowohl über eine direkte Stimulation der Nerven, aber auch über magnetische Stimulationen im Cortex gefunden werden (38).

Bereits durch diese Beispiele wird deutlich, dass die Anatomie des M. sphincter ani externus an sich sowie seine embryonale Entwicklung und dessen Innervation nicht ausreichend geklärt sind. Sicher ist jedoch, dass eine Vielzahl möglicher Abweichungen vom symmetrischen und seitengleich innervierten Sphinkters, wie er laut Lehrbuch postuliert wird (4), existieren.

Als Konsequenz entsteht die Notwendigkeit nach einer prä- und intraoperativen Abklärung des individuellen Innervationsmusters (42). Diese kann durch die diagnostische Sakralnervenstimulation erfolgen (9).

## **1.5 Therapeutische SNS**

Bei der Sakralnervenstimulation (SNS) wird ein Aktionspotenzial ausgelöst, indem der von einem Stimulationsgerät erzeugten Wechselstrom über eine Nadel in das gewünschte Neuroforamen an den entsprechenden Sakralnerven fortgeleitet wird. Die so stimulierten Nervenzellen sollten nun in den zugehörigen Zielorganen, in diesem Fall im Analsphinkter oder dem M. detrusor vesicae, Kontraktionen auslösen und dabei eine Tonuserhöhung bewirken (43).

In der Therapie der Inkontinenz ist die Sakralnervenstimulation sowohl in der Erwachsenen- (44, 45, 43) als auch in der Kinderchirurgie (46) bereits etabliert; sie wird derzeit in mehreren Zentren zur Therapie von sowohl Harn- als auch Stuhlinkontinenz bei Jugendlichen und Erwachsenen eingesetzt.

Dabei wird unter Bildwandlerkontrolle das gewünschte Neuroforamen mit einer Stimulationsnadel aufgesucht und anschließend an einen Schrittmacher angeschlossen, welcher subkutan implantiert wird. Durch eine kontinuierliche, frequentierte Stimulation der Sakralnerven und damit der jeweiligen Kontinenzorgane wird deren Muskulatur aufgebaut bzw. gestärkt (47).

Die SNS als therapeutische Maßnahme hat in verschiedenen Studien in unterschiedlichen Gebieten gute Ergebnisse in Bezug auf eine Verbesserung von Kontinenz und Lebensqualität der Patienten ergeben (43, 48, 49).

In der Therapie der Stuhl- und Harninkontinenz bei Erwachsenen ist die SNS seit zwei Jahrzehnten etabliert und inzwischen auch fester Bestandteil entsprechender Leitlinien (50, 51). Sie ist weiterhin Gegenstand klinischer Forschung. So befassen sich Studien mit der Optimierung ihrer Durchführung, z. B. im Hinblick auf die Elektrodenimplantation (52), wie auch mit der Optimierung der elektrophysiologischen Parameter in den entsprechenden Therapiephasen und -zielen (53, 54).

## **2. Fragestellung und Studienziel**

Bei der Entwicklung der diagnostischen Sakralnervenstimulation wurden die Prinzipien einer in der Therapie von Stuhlinkontinenz bei Erwachsenen etablierten Methode als diagnostisches Instrument in die Kinderchirurgie übertragen.

Im Gegensatz zur therapeutischen Anwendung steht hier die Funktionsprüfung der sakralen Nervenbahnen und die Identifikation der entsprechenden Sphinktermuskulatur bei einer angeborenen Fehlbildung des Anus im Mittelpunkt. Anders als bei der therapeutischen SNS wird bei der Anwendung als diagnostische Methode kein Stimulationsgerät implantiert, sondern eine einmalige Stimulation durchgeführt.

Das Hauptziel der vorliegenden Arbeit ist es, die Machbarkeit der diagnostischen Sakralnervenstimulation bei Säuglingen und Kleinkindern zu belegen. Dies soll exemplarisch an Patienten mit Fehlbildungen im Bereich des Enddarmes und anhand verschiedener Kasuistiken veranschaulicht werden.

Gleichzeitig soll aufgezeigt werden, dass es sich bei der diagnostischen Sakralnervenstimulation um eine im kinderchirurgischen Patientenkollektiv sicher anzuwendende Methode handelt. Dabei wird auf die Modifikationen der Methode im Vergleich zur therapeutischen Sakralnervenstimulation eingegangen.

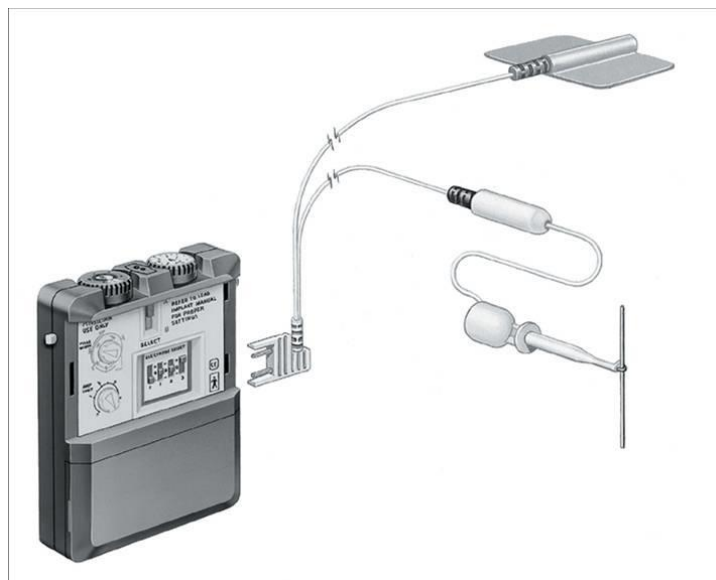
Abschließend soll auch das Potential der Methode dargelegt werden. So könnte die diagnostische SNS auch bei anderen Grunderkrankungen zur Anwendung kommen. Weiterhin könnten die bei der diagnostischen SNS erhobenen Schwellenwerte prognostische Aussagekraft haben.

Ein entsprechender Ethikantrag zur Studie wurde bei der Ethikkommission des Uniklinikums Regensburg unter dem Aktenzeichen 12-101-0020 bewilligt.

### **3. Material und Methoden**

#### **3.1 Material**

Zu den für die diagnostische SNS notwendigen Instrumenten gehören die Foramen-nadeln, mit denen der Kontakt zu den Sakralnerven hergestellt wird, und das Stimulationsgerät, das die elektrischen Stimulationsimpulse erzeugt. Wir benutzen das Stimulationsgerät „Test Stimulator Model 3625“ der Firma Medtronic® (Medtronic®, GmbH, Emanuel-Leutze-Str. 20, 40547 Düsseldorf), Stimulationsnadeln vom Typ „foramen needle #041828, Medtronic®“ und das zugehörige Kabel. Während das Stimulationsgerät wiederverwendbar ist und außerhalb des sterilen Bereiches bedient wird, handelt es sich bei den Stimulationsnadeln und den zugehörigen Kabeln um sterile Einmalprodukte.



Bader

Abbildung 6: Teststimulator mit Kabel und angedeuteter Stimulationsnadel, Medtronic®, GmbH, Emanuel-Leutze-Str. 20, 40547 Düsseldorf

## **3.2 Methoden**

### **3.2.1 Modifikationen der SNS für die diagnostische Anwendung in der Kinderchirurgie**

Für das Vorgehen bei der diagnostischen Sakralnervenstimulation in der Kinderchirurgie sind einige Anpassungen im Vergleich zur therapeutischen Anwendung erforderlich.

Aufgrund der noch nicht abgeschlossenen Ossifikation bei Kindern und Jugendlichen (55) können wir beim Aufsuchen der Neuroforamina am Os sacrum auf die Verwendung von Röntgenaufnahmen verzichten, da wir uns bei der Darstellung des Knochens ausschließlich der nebenwirkungs- und strahlenfreien Sonografie bedienen. Bei der diagnostischen Sakralnervenstimulation erfolgt keine Implantation eines Schrittmachers und die im OP gesetzten Stimulationsnadeln werden am Ende des operativen Eingriffes entfernt (9). Daher entstehen durch die SNS keine Hautschnitte, das Infektionsrisiko wird auf ein Minimum reduziert.

### **3.2.2 Intraoperatives Setting und Vorgehen**

Intraoperativ werden die Patienten in Goetze-Lagerung, also auf dem Bauch liegend gelagert, wobei die unteren Extremitäten frei vom Tisch hängen können. Zusätzlich wird das Becken angehoben, sodass das Perineum gut sichtbar und leicht zugänglich wird. Gesicht, Arme und alle anderen prädestinierten Druckstellen werden im Sinne einer Dekubitusprophylaxe gepolstert.

Nach der üblichen Desinfektion des Operationsgebietes sowie der über dem Os sacrum liegenden Haut erfolgt die sterile Abdeckung mit Einmal-Klebetüchern. Dabei werden Papierklebetücher für die Abdeckung nach kranial, oberhalb der LWS sowie für die Flanken benutzt. Um die Sicht auf die Kontraktionen der bei der SNS wichtigen Kennmuskeln zu erhalten, werden die Beine transparent abgedeckt. Eine mit dem Stimulationsgerät verbundene Neutralelektrode wird außerhalb des Operationsgebietes angebracht, und mit dem Stimulationsgerät verbunden. Um Wechselwirkungen mit der

Hochfrequenzchirurgie und Verbrennungen im Bereich der Sakralnerven zu vermeiden, darf bei liegenden Nadeln ausschließlich ein bipolares Diathermie-System zum Einsatz kommen (56).

Bei der diagnostischen SNS muss auf die Gabe von Muskelrelaxantien sowie auf regional-anästhetische Verfahren verzichtet werden, da die verwendeten Lokalanästhetika Nervenleitung und Muskelkontraktionen beeinflussen.

Vor Beginn der invasiven Maßnahmen muss das Os sacrum inklusive der posterioren Neuroforamina dargestellt werden, was mittels Sonografie und unter Verwendung sterilen Ultraschallgels erfolgt. Hierbei orientiert man sich an der knöchernen Topographie des Sakrums. Nach Darstellung des Os sacrum wird nun die Stimulationsnadel transkutan in das Neuroforamen platziert, aus welchem der zu stimulierende Nerv austritt. Dabei werden stets beide Foramina einer Sakralebene, meistens beide Neuroforamina der Ebenen S3 und S4 aufgesucht. So kann anschließend der dominante Sakralnerv ermittelt werden.

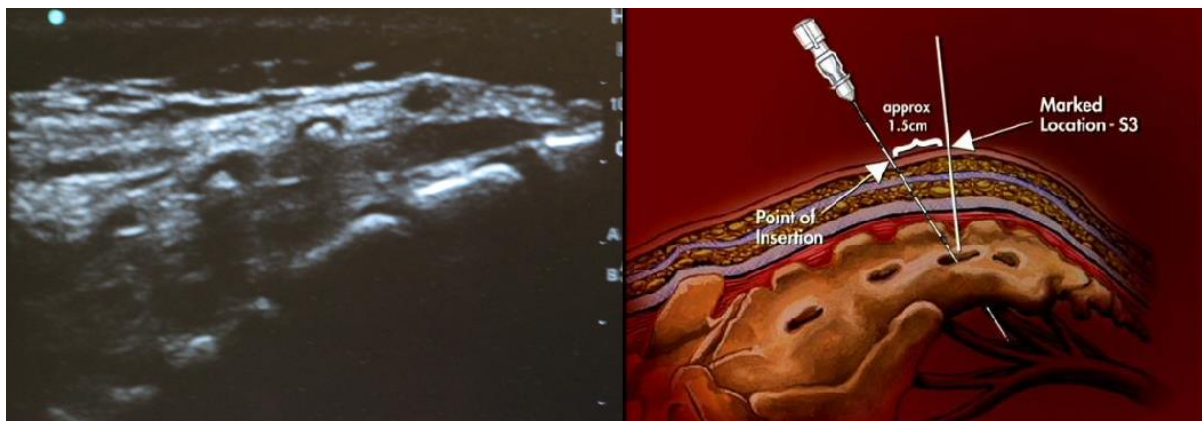


Abbildung 7: Platzierung der Foramennadeln unter Ultraschallkontrolle (9)

Nun kann eine elektrische Verbindung zwischen Foramennadel und Stimulationsgerät durch Kontakt über eine manuell bedienbare Kabelklemme am Ende eines sterilen Kabels hergestellt und somit die Impulse vom Gerät auf den jeweiligen Sakralnerven übertragen werden.

Die empfohlenen Einstellungen des Stimulationsgerätes sind dabei eine Frequenz von 20 Hz bei einer Impulsbreite von Impulsbreite von 120  $\mu$ s sowie eine Stromstärke von

120 mA (9). Bei der initialen Stimulation wird der korrekte Sitz der Nadel durch Stimulation in ansteigender Stromspannung überprüft, bis dabei deutliche Kontraktionen in den jeweiligen Kennmuskeln (in Abhängigkeit der Diagnose am Anus, dem M. sphincter ani externus oder der pedalen Kennmuskulatur) ausgelöst werden. Die optimale Position ist dann erreicht, wenn eine deutlich erkennbare muskuläre Reizantwort mit minimaler Spannung zu erzielen ist.

Befindet sich die Foramenelektrode in der optimalen Position, werden nun die Reizschwellen der einzelnen Kennmuskeln bestimmt. Durch schrittweise Reduktion der Spannung am Stimulationsgerät von jeweils 0,5 V wird die geringste Spannung ermittelt, bei der eine Antwort der jeweiligen Kennmuskeln mit dem Auge des Untersuchers eben noch erkennbar ist. Diese Spannung wird als Schwellenwert definiert. Der beschriebene Ablauf wird aufgrund der individuellen Variabilität hinsichtlich der dominanten Innervation für die beiden Neuroforamina S3 und gegebenenfalls auch für beide S4 eingehalten, wobei für jedes Neuroforamen und den dazugehörigen Sakralnerv eine eigene Nadel verwendet wird. Diese bleibt während des gesamten Eingriffes in loco belassen, um intraoperativ durch Stimulation die gewünschten Kontraktionen auslösen zu können.

### 3.2.3 Dokumentation und Pseudonymisierung der Patienten

Durch das beschriebene Vorgehen werden zahlreiche Parameter erhoben und dokumentiert. Hierfür wurde ein Protokollbogen entworfen, mit dem konsekutiv jede in der Klinik für Kinderchirurgie durchgeführte SNS erfasst wurde. Im Rahmen der Studie wurde dieser Protokollbogen erweitert. Er beinhaltet eine Tabelle, in die die Schwellenwerte für jeden Kennmuskel in Abhängigkeit vom stimulierten Sakralnerven eingetragen werden, Hinweise auf die Standardeinstellungen des Stimulationsgerätes, den Verzicht von Muskelrelaxantien und Kaudalanästhesie sowie Platz für das Patientenetikett. Ebenfalls besteht in der Tabelle die Möglichkeit, individuelle Auffälligkeiten während der SNS in Bezug auf den jeweiligen Sakralnerv zu notieren. Das Protokoll ist unter dem Gliederungspunkt 8. (Dokumentations- und Fragebögen) zu finden.

Im Anschluss an die Eingriffe wurden die Patienten pseudonymisiert und die erhobenen Daten in eine Excel Tabelle eingetragen. Nach Abschluss der Studie wurden die Patienten nach Diagnosen geordnet und nummeriert.

### 3.2.4 Radiologische Auswertung

Zusätzlich zur diagnostischen Sakralnervenstimulation werteten wir das präoperativ aufgenommene radiologische Bildmaterial unserer Patienten, MRT-Aufnahmen und ggf. auch Röntgenbilder in Zusammenarbeit mit der radiologischen Abteilung der Klinik St. Hedwig in Regensburg aus. Hierbei wurde zunächst das Vorhandensein sämtlicher Sakral- und Kokzygealwirbel überprüft, soweit methodisch und altersbedingt möglich. Ferner wurde nach präsakralen Fettmassen gesucht sowie sonstige Auffälligkeiten knöcherner Strukturen oder des Weichteilgewebes, wie beispielsweise Spaltwirbel oder Fisteln, notiert. Ein besonderes Augenmerk wurde bei dieser Analyse auf morphologische Korrelate mit den Ergebnissen aus der SNS, also auf gegebenenfalls die Mittellinie kreuzende Nervenbahnen gelegt.

Des Weiteren wurde für jeden Patienten die „sacral ratio“ (SR) nach Peña (57) bestimmt. Hierbei handelt es sich um einen anhand der knöchernen Strukturen bestimmten Quotienten, der als Maß der kaudalen Regressionshypothese bei anorektalen Malformationen laut der zugehörigen Studie einen prognostischen Parameter für das langfristige Outcome der Patienten darstellt.

Die SR berechnet sich durch den Abstand [BC] zwischen der Verbindung der Unterkanten beider Ileosakral-Gelenke (B) und der Spitze des Os coccygis (C) im Verhältnis zum Abstand [AB], wobei (A) die Verbindung der Oberkanten beider Darmbeinschaukeln ist. Es ergibt sich die Formel  $([BC] / [AB])$  für die SR. Die jeweiligen Abstände werden anhand von AP-Röntgenaufnahmen ermittelt. In der entsprechenden Veröffentlichung gilt eine SR von 0,74 als normwertig; kleinere Werte werden als auffällig bezeichnet und sollen ab einem Wert von  $< 0,500$  im Sinne eines Surrogatparameters die Kontinenzentwicklung des Patienten prognostizieren. Ein direkter Zusammenhang wird jedoch nicht wissenschaftlich begründet (57).

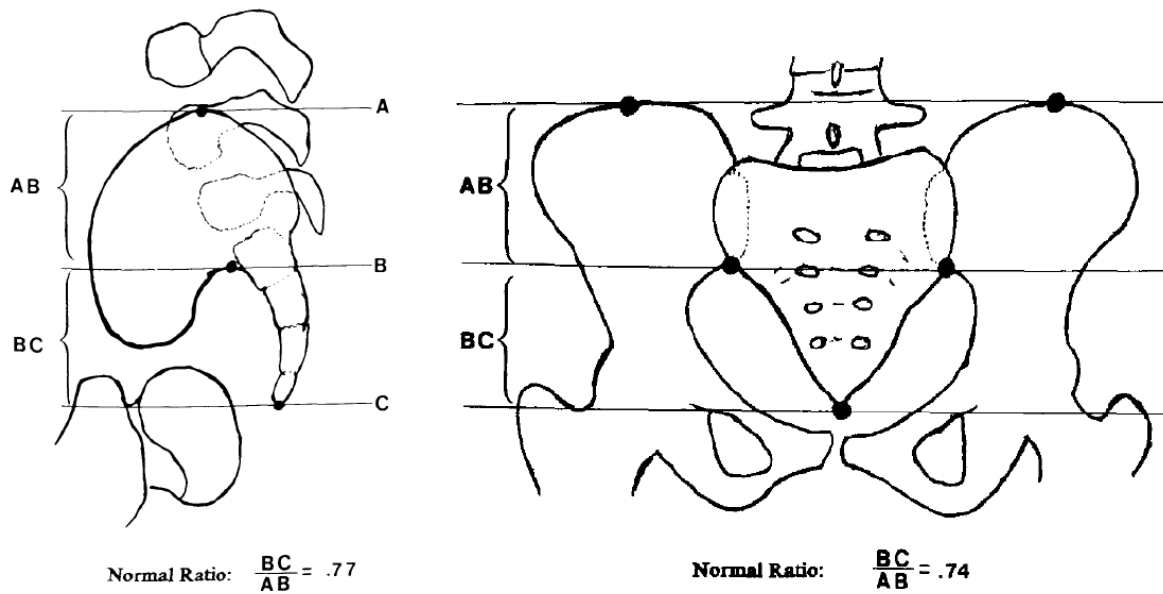


Abbildung 8: Bestimmung der SR, Methode nach Alberto Peña (57)

Anders als im Originalartikel beschrieben, verwendeten wir die bereits vorhandenen MRT Aufnahmen unserer Patienten in der Frontalebene, da sich diese mit AP-Röntgenaufnahmen decken und eine Strahlenbelastung der Patienten vermieden wird.

### 3.2.5 Evaluation der Kontinenz nach der Krickenbeck-Klassifikation

Im Rahmen der vorliegenden Studie wurde den Patienten bzw. stellvertretend deren Eltern/Sorgeberechtigten ein kinderproktologischer Anamnesebogen inklusive des Fragenkatalogs zur Bestimmung der Kontinenz Klassifikation nach Krickenbeck (14) als Teil unserer Follow-up-Betreuung nach den Eingriffen zugesandt. Er ist im Abschnitt 8. (Dokumentations- und Fragebögen) zu finden.

Im ursprünglichen Kontext bezieht sich der Fragebogen zur Evaluation der Kontinenz der Krickenbeck-Klassifikation ausschließlich auf Patienten mit operativ versorgten ARM (58). Im Hinblick auf die Vergleichbarkeit unserer Ergebnisse und aufgrund der Allgemeingültigkeit der Fragestellung wurde das Follow-up aller unserer Patienten anhand dieses Fragebogens evaluiert.

Dabei wurden 20 der 22 untersuchten Patienten kontaktiert, in 2 Fällen waren die aktuellen Adressen nicht mehr zu eruieren.

Die aus den ausgefüllten und an uns zurückgesendeten Bögen gewonnenen Informationen über Kontinenz und individuelle Krickenbeck-Scores konnten wir anschließend im Kontext mit den verschiedenen Diagnosen, den jeweiligen SRs sowie den Ergebnissen aus der Sakralnervenstimulation betrachten und interpretieren. Diese Auswertung erfolgte anonymisiert und ausschließlich nach schriftlicher Einverständniserklärung der Patienten/Eltern/Sorgeberechtigten, auch im Hinblick auf die Veröffentlichung der gewonnenen anonymisierten Ergebnisse.

Zur Vervollständigung der Daten für diese Arbeit wurden zusätzlich Informationen aus den klinikeigenen Verlaufs- und Ambulanznotizen der jeweiligen Patienten entnommen. Dies geschah ebenfalls nach schriftlicher Einverständniserklärung durch die Patienten bzw. die Eltern/Sorgeberechtigten.

## **4. Ergebnisse**

### **4.1 Übersichten**

#### **4.1.1 Patienten**

Tabelle 4 gibt einen Überblick über die Patienten, an denen die diagnostische Sakralnervenstimulation durchgeführt wurde. Das angegebene Alter bezieht sich auf den Zeitpunkt der SNS (J = Jahre, M = Monate).

Um Rückschlüsse auf die Identitäten der Patienten zu vermeiden, wurden die Patienten zunächst anhand ihrer Diagnosen sortiert und anschließend nummeriert. Diese Reihenfolge und Nummerierung wird im Verlauf dieser Arbeit der Übersicht halber beibehalten.

<b>Patient #</b>	<b>Diagnose</b>	<b>Wingspread</b>	<b>Alter</b>
<b>1</b>	ARM – Analstenose	Tief	4 J
<b>2</b>	ARM – Perineale Fistel	Tief	13 J
<b>3</b>	ARM – Perineale Fistel + Myelomeningozele	Tief	3 J
<b>4</b>	ARM – Perineale Fistel	Tief	4 J
<b>5</b>	ARM – Perineale Fistel	Tief	4 J
<b>6</b>	ARM – Perineale Fistel	Tief	3 J
<b>7</b>	ARM – Perineale Fistel	Tief	2 J
<b>8</b>	ARM – Perineale Fistel	Tief	1 J
<b>9</b>	ARM – Rektoskrotale Fistel	Mittel	1 J
<b>10</b>	ARM – Rektobuläre Fistel	Mittel	6 J
<b>11</b>	ARM – Rektovestibuläre Fistel	Mittel	6 J

<b>12</b>	ARM – Rektovestibuläre Fistel	Mittel	1 J
<b>13</b>	ARM – Sinus urogenitalis	Hoch	7 J
<b>14</b>	ARM – Anal Atresie ohne Fistel	Hoch	8 J
<b>15</b>	ARM – Rektoprostato-urethrale Fistel	Hoch	3 J
<b>16</b>	ARM – Urethrale Fistel	Hoch	8 J
<b>17</b>	ARM – Rektovesikale Fistel	Hoch	1 J
<b>18</b>	Blasenekstrophie	-	15 J
<b>19</b>	Blasenekstrophie	-	7 J
<b>20</b>	Morbus Hirschsprung	-	11 J
<b>21</b>	Morbus Hirschsprung	-	9 J
<b>22</b>	Morbus Hirschsprung	-	9 J

Tabelle 4: Übersicht über die mit diagnostischer SNS versorgten Patienten

Eine diagnostische SNS wurde zusätzlich bei drei Tumorexzisionen im kleinen Becken in Form eines Neuromappings durchgeführt. Da diese Eingriffe methodisch abweichen, fließen deren Ergebnisse in die Evaluation nicht ein.

#### 4.1.2 Indikationen zur Durchführung einer SNS

Folgende Tabelle zeigt einen Überblick über die Details der Operationen, während derer die diagnostische SNS an den Patienten durchgeführt wurde. Aufgelistet sind die patientenspezifischen OP-Indikationen sowie die Prozeduren, welche gegebenenfalls der SNS folgten. Es wird aus den OP-Berichten zitiert.

<b>Patient #</b>	<b>OP Indikation/Diagnose</b>	<b>Prozedur/-en</b>
<b>1</b>	Therapierefraktäre Stuhlinkontinenz	Bougierung, SNS
<b>2</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>3</b>	Phimose, Folgeeingriff nach PSARP	Zirkumzision, Diagnostische Rektoskopie, Bougierung, SNS

<b>4</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>5</b>	ARM	Proktoperineoplastik, SNS
<b>6</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>7</b>	ARM	PSARP, diagnostische Vaginoskopie, SNS
<b>8</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>9</b>	ARM	PSARP
<b>10</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>11</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>12</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>13</b>	Kontaktblutendes polypoides anales Ektropium, anokutane mit dem Finger nicht passierbare Anastomosensstenose	Exzision des Analpolypen, Bougierung, SNS
<b>14</b>	Analprolaps	Abtragung des Analprolaps, SNS
<b>15</b>	ARM	PSARP, SNS
<b>16</b>	Zunehmende Inkontinenz, Evaluation einer radiologisch erkennbaren Sphinkterlücke	SNS
<b>17</b>	ARM, Meckel Divertikel	PSARP, Meckel-Resektion, SNS
<b>18</b>	Indikationsstellung für therapeut. SNS	SNS
<b>19</b>	ARM, (Urologische Indikation)	Bougierung, Indikationsstellung für PSARP, (Urethro-Cysto-Neostomie)
<b>20</b>	Therapieresistente Stuhlinkontinenz	SNS
<b>21</b>	Therapieresistente Stuhlinkontinenz	Diagnostische Rektoskopie, SNS

Tabelle 5: Übersicht über die an den Patienten durchgeführten Prozeduren und deren Indikationen

Die diagnostische Sakralnervenstimulation kam demnach nicht nur zur Identifizierung des Sphinkters bei Anorektoplastiken, sondern auch beim Ausschluss neuromuskulärer Störungen und postoperativer Folgezustände als Ergänzung der üblichen Diagnostik bei verschiedenen Problematiken des Kontinenzorgans zum Einsatz.

#### 4.1.3 Reizschwellen und Beobachtungen

Die beiden nachstehenden Tabellen zeigen die jeweiligen Ergebnisse der diagnostischen Sakralnervenstimulation. Es wird hierbei auf die makroskopischen Beobachtungen und die Reizschwellen (Volt-Werte, soweit evaluiert und dokumentiert) eingegangen. Dabei sind die Sakralnerven der Ebenen S3 und S4 jeweils im Seitenvergleich aufgeführt.

Bei 20 von 22 Patienten konnten sichtbare Reaktionen evoziert werden. Einer der beiden Patienten mit frustriertem Stimulationsversuch hatte eine Kaudalanästhesie erhalten. Es wurden bei 7 von 22 untersuchten Patienten die Sakralnerven S4, davon bei einem Patienten ausschließlich S4 stimuliert. In einem Fall wurde die S2 Nervenwurzel der linken Seite stimuliert.

Die dokumentierten Reaktionen sind Kontraktionen des Beckenbodens, des äußeren Analsphinkters, der Plantarflexoren und im Analgrübchen sowie Glutealkontraktionen (nicht durch die Nervenfasern von S3 oder S4 innerviert(4)) und eine Levatorkontraktion. Insgesamt konnte bei allen Patienten, die Muskelreaktionen zeigten, die gewünschte Kontraktion im Kontinenzorgan (Beckenboden, äußerer Analsphinkter, Analgrübchen) (4) ausgelöst werden. Die gemessenen Reizschwellen liegen im Bereich von 0,2 bis 10 V, wobei mit 10 V die durch das Gerät limitierte Maximalspannung erreicht ist.

Bei 10 von 22 Patienten konnte nach Stimulation der Sakralnervenwurzel auf einer Seite eine kontralaterale Muskelkontraktion ausgelöst werden (45 % der Patienten). Diese Beobachtung machten wir an 4 Patienten bei Stimulation von S3 links und an zwei Patienten bei Stimulation von S3 rechts; ein Patient zeigte ein strikt kontralaterales Innervationsmuster der beiden Sakralnerven S3; zwei Patienten zeigten an S4 links eine kontralaterale Innervation, ein Patient bei Stimulation von S4 rechts.

Diese Beobachtungen werden in der Diskussion erörtert. Eine genauere Systematik dieser kreuzenden Innervationen wird im Kapitel „5.2.5 Vorschlag zur Systematik kreuzender Innervationsmuster“ präsentiert werden.

Ergebnisse bei Stimulation der Neuroforamina S3

Patient #	S3 links	S3 rechts
1	Ipsi: BB + EAS; <b>Kontra:</b> Plantarflexion 1 V	Ipsi: BB und Sphinkter 5 V, Plantarflexion 8 V
2	Kontraktion im Analgrübchen 1,5 V	ab 0,4 V
3	Keine Kontraktion	Keine Kontraktion
4	7 V	3 V
5	Ipsi: EAS und Plantarflexion	Ipsi: Sphinkterkontraktion, Plantarflexion
6	Ipsi: BB 0,5 V; <b>Kontra:</b> Plantarflexion 0,5 V	Ipsi: Plantarflexion 1 V
7	Ipsi: BB: 1,5 V; Fuß: 1 V	Ipsi: BB 1V, Plantarflexion: 1 V
8	Ipsi: EAS 0,8 V, Plantarflexion: 0,7 V	Ipsi: EAS + Plantarflexion 0,9 V
9	Keine Dokumentation	Keine Dokumentation
10	<b>Kontra:</b> Globale Muskelkontraktion 10 V	<b>Kontra:</b> Globale Muskelkontraktion 10 V
11	Levator-Kontraktion (S2: BB Kontraktion)	Levator-Kontraktion (S2: BB Kontraktion)
12	Ipsi: BB 2 V, 1,5 V Plantarflexion	Ipsi: BB + Plantarflexion 1,5 V
13	Keine Kontraktion, aber Kaudale	Keine Kontraktion, aber Kaudale!

<b>14</b>	Ipsi: BB 2 V, Plantarflexion 1 V	Ipsi: BB 4 V, Großzehe 6 V; <b>Kontra:</b> BB 4 V
<b>15</b>	Ipsi: BB 3,5 V; Plantarflexion 2 V	Ipsi: BB 2,5 V; Plantarflexion 2 V
<b>16</b>	Ipsi: BB 0,2 V, EAS 0,5 V; <b>Kontra:</b> EAS 0,5 V	Ipsi: BB 0,7 V, Fuß 1,0
<b>17</b>	Ipsi: BB 1V, Plantarflexion 2,5 V	Ipsi: BB 1,5 V, Plantarflexion 6 V
<b>18</b>	Nicht auffindbar	Ipsi: Fuß 4 V, Beckenboden 4 V; <b>Kontra:</b> Fuß 5 V, Beckenboden 5 V
<b>19</b>	Ipsi: Zehenbeugung 6 V	Ipsi: Zehenbeugung bei 10 V
<b>20</b>		
<b>21</b>	<b>Kontra:</b> EAS und Plantarflexion 7 V	Ipsi: Glutealreaktion 7 V
<b>22</b>	Ipsi: nur Plantarflexion	Ipsi: BB Kontraktion, Plantarflexion

Tabelle 6: Ergebnisse der Stimulation von S3

## Ergebnisse bei Stimulation der Neuroforamina S4

Patient #	S4 links	S4 rechts
3	Keine Kontraktion	Keine Kontraktion
8	<b>Kontra: Plantarflexion bei 0,9 V</b>	
13	keine Kontraktion, aber Kaudale!	Keine Kontraktion, aber Kaudale!
18	nicht auffindbar	
19	<b>BB beidseits</b> bei 10 V	BB ipsi bei 8 V
20	Ipsi: Plantarflexion, Sphinkterkontraktion	Ipsi: Plantarflexion; <b>Sphinkter beidseits</b>
21	Ipsi: EAS, keine Plantarflexion	EAS 7Volt, Plantarflexion 2 V

Tabelle 7: Ergebnisse der Stimulation von S4

Die Abkürzungen in den Tabellen zu Beobachtungen und Reizschwellen bei SNS erklären sich folgendermaßen:

Ipsi: Ipsilaterale Kontraktion

**Kontra: Kontralaterale Kontraktion**

BB: Beckenbodenmuskulatur

EAS: Äußerer Analsphinkter (external anal sphincter)

Erst im Verlauf der Studienreihe konnte das intraoperative Vorgehen optimiert und an die Beobachtungen angepasst werden.

Auch, weil erst zu einem späteren Zeitpunkt das Protokoll für die diagnostische SNS erarbeitet wurde, konnten nicht für jeden Patienten vergleichbare Datensätze erhoben werden.

#### 4.1.4 Radiologische Auswertung

##### Morphologie

<b>Patient #</b>	<b>Radiologie</b>
<b>Patient 1</b>	Segmentationsstörung, Neuroforamina versetzt, alle Sakralwirbel vorhanden, Spaltwirbel; Nervenaustrittspunkte asymmetrisch. Auffällige, die Mittellinie überschreitende Struktur mit nervenfaserähnlichem Signal; Os coccygis vorhanden, kein präsakrales Fett
<b>Patient 2</b>	Alle Wirbel vorhanden und geordnet. Keine Segmentationsstörung, kein Hinweis auf kreuzende Bahnen
<b>Patient 3</b>	Alle Sakralwirbel vorhanden, Os coccygis vorhanden, keine präsakrale Masse, Intradurales Lipom, bei S2 Bogenschlussanomalie, teathering
<b>Patient 4</b>	Alle Sakralwirbel vorhanden, extrem langes Os coccygis, keine Fettmasse, keine Fehlbildung
<b>Patient 5</b>	Nur Röntgenaufnahme vorhanden, keine Auffälligkeiten
<b>Patient 6</b>	Fett in der Fossa ischiorektalis, Sakrum und Os coccygis angelegt, kein Korrelat für gekreuzte Nerven
<b>Patient 7</b>	<b>Keine Bildgebung vorhanden</b>
<b>Patient 8</b>	Sakralwirbel vorhanden und unauffällig, angedeuteter M. levator ani, prominenter Rektum-Cervix-Kontakt, dezenter präsakraler Fettkörper
<b>Patient 9</b>	<b>Keine Bildgebung vorhanden</b>
<b>Patient 10</b>	Alle Sakralwirbel vorhanden, dysgenetisches Os coccygis, rektobulbäre Fistel, Fettvermehrung in der Fossa ischiorektalis, kein Korrelat für gekreuzte Innervationen zu finden

<b>Patient 11</b>	Ischiorektale Fettmasse, Sakrum und Os coccygis regelrecht angelegt, dicke vestibuläre Fistel
<b>Patient 12</b>	<b>Keine Bildgebung vorhanden</b>
<b>Patient 13</b>	Alle Sakralwirbel vorhanden, Os coccygis nur rudimentär vorhanden, Hemisakrum, Dysgenisie des Steißbeins und Kreuzbeins, steil nach hinten abfallendes Sakrum
<b>Patient 14</b>	3,5 Sakralwirbel, präsakrale Fettmasse, tiefe perineale dicke Fistel (= z. N. PSARP!) kein Sphinkter
<b>Patient 15</b>	Nerven deutlich sichtbar, alle Wirbel vorhanden, Os coccygis vorhanden, keine Fettmasse, tiefe Fistel
<b>Patient 16</b>	Sakralwirbel sind vorhanden, das Os coccygis fehlt. Dorsal findet sich ein verhältnismäßig stärker ausgebildeter Sphinkter
<b>Patient 17</b>	Sakralwirbel sind vorhanden, Os coccygis vorhanden, Knöcherne Strukturen unauffällig. Dezentere präsakrale Fettkörper, angedeuteter M. levator ani
<b>Patient 18</b>	Synostose der Wirbel S2-S4, Fusionswirbel
<b>Patient 19</b>	Nur 3 Sakralwirbel, viel Fett in der Fossa ischiorektalis, kein Sphinkter erkennbar, keine Fistel, kein Korrelat für gekreuzte Bahnen
<b>Patient 20</b>	<b>Keine Bildgebung vorhanden</b>
<b>Patient 21</b>	Sakralwirbel und Os coccygis vorhanden, Sphinkter dorsal stärker ausgeprägt, kein Korrelat für gekreuzte Nerven
<b>Patient 22</b>	Alle Sakral- und Koccygealwirbel vorhanden, keine sonstigen Auffälligkeiten

Tabelle 8: Übersicht über die individuellen Morphologien im Bereich des kleinen Beckens

Es sind hier die radiologisch gefundenen Auffälligkeiten und Beobachtungen an Patienten, bei welchen eine diagnostische Sakralnervenstimulation durchgeführt wurde, tabellarisch und in Stichpunkten aufgezeigt. Hierbei wurden anhand bereits vorhandener MRT-Aufnahmen sowohl die knöchernen Strukturen als auch die morphologischen Besonderheiten von Organen und Bindegewebe sorgfältig in Hinsicht auf diese Arbeit gemeinsam mit einem Facharzt für Radiologie nachuntersucht und dokumentiert. Es handelt sich um Notizen in freier Form. Für vier der Studienteilnehmer ist keine Bildgebung vorhanden.

Ein besonderes Augenmerk wurde bei dieser Auswertung auf eventuelle morphologische Korrelate der bei der SNS aufgetretenen kontralateralen Kontraktionen gelegt. Im Rahmen dessen wurde auf den MRT-Aufnahmen des Patienten #1 eine Struktur identifiziert, welche die Mittellinie vor dem Os sacrum kreuzt. Das Signal dieser Struktur ist mit dem der Nerven identisch.

„Sacral Ratio“

<b>Patient #</b>	<b>[BC]</b>	<b>[AB]</b>	<b>SR</b>
<b>1</b>	2,65	4,15	0,63
<b>2</b>	3,75	7,3	0,51
<b>3</b>	2,43	3,29	0,74
<b>4</b>	2,75	4,04	0,68
<b>5</b>	4,61	3,05	0,66
<b>6</b>	2,6	4,5	0,57
<b>7</b>	Keine Bildgebung		
<b>8</b>	2,94	3,01	0,87
<b>9</b>	Keine Bildgebung		
<b>10</b>	2,76	3,37	0,81
<b>11</b>	3,8	5,63	0,67
<b>12</b>	Keine Bildgebung		
<b>13</b>	2,79	4,43	0,63
<b>14</b>	2,84	3,91	0,73
<b>15</b>	3,16	4,18	0,76
<b>16</b>	4,63	9,22	0,52
<b>17</b>	1,98	2,96	0,73
<b>18</b>	2,87	8,15	0,35
<b>19</b>	2,38	3,8	0,62
<b>20</b>	Keine Bildgebung		
<b>21</b>	3,05	4,61	0,66
<b>22</b>	2,17	2,56	0,84

Tabelle 9: Übersicht über die bei der Ermittlung der SR gemessenen Werte und die daraus errechneten SR. Die SR ermittelten wir anhand von MRT-Aufnahmen in der Frontalebene, um die Werte mit aus AP-Aufnahmen ermittelten SRs vergleichen zu können.

Notiert wurden die Abstände [BC] und [AB] zwischen den beschriebenen anatomischen Landmarken in cm. Aus diesen Werten wurden entsprechend der Originalvorgaben (57) die SR errechnet. Die kleinste ermittelte SR liegt hierbei bei 0,35, die größte beträgt 0,81. Laut Erstliteratur (57) stellt dies einen überdurchschnittlich guten Wert da, dessen Interpretation in der Arbeit nicht berücksichtigt wird.

#### 4.1.5 SR, Kontinenz, Schwellenwerte des Beckenbodens

Patient #	Alter	Diagnose	WE	SW BB	Kontinenz	SR
1	4 J	ARM - Analstenose	Tief	1 V	inkontinent	0.63
2	13 J	ARM – Perineale Fistel	Tief	0,4 V	Keine Daten	0.51
3	3 J	ARM – Perineale Fistel + Myelomeningozele	Tief	Kein Wert	kontinent	0.74
4	4 J	ARM – Perineale Fistel	Tief	3 V	kontinent	0.68
5	4 J	ARM – Perineale Fistel	Tief	0,2 V	inkontinent	0.66
6	3 J	ARM – Perineale Fistel	Tief	0,5 V	Keine Daten	0.57
7	2 J	ARM – Perineale Fistel	Tief	1 V	inkontinent	0.71
8	1 J	ARM – Perineale Fistel	Tief	0,9 V	inkontinent	0.87
9	1 J	ARM – Rektoskrotale Fistel	Mittel	1 V	inkontinent	-
10	6 J	ARM – Rektobuläre Fistel	Mittel	10 V	kontinent	0.81
11	6 J	ARM – Rektovestibuläre Fistel	Mittel	Kein Wert	Keine Daten	0.67
12	1 J	ARM – Rektovestibuläre Fistel	Mittel	0,4 V	inkontinent	-
13	7 J	ARM – Sinus urogenitalis	Hoch	Kein Wert	Keine Daten	0.63
14	8 J	ARM – Anal Atresie ohne Fistel	Hoch	2 V	Keine Daten	0.73
15	3 J	ARM – Rektoprostato-urethrale Fistel	Hoch	2,5 V	inkontinent	0.76
16	8 J	ARM – Urethrale Fistel	Hoch	0,2 V	inkontinent	0.52
17	1 J	ARM – Rektovesikale Fistel	Hoch	1 V	inkontinent	0.73
18	15 J	Blasenekstrophie	Hoch	4 V	Stomaträger	0.35
19	7 J	Blasenekstrophie	Hoch	10 V	inkontinent	0.62
20	11 J	Morbus Hirschsprung	-	Kein Wert	kontinent	-
21	9 J	Morbus Hirschsprung	-	7 V	kontinent	0.66
22	9 J	Morbus Hirschsprung	-	Kein Wert	kontinent	0.84

Tabelle 10: Patientendarstellung mit Querübersicht aller wichtigen erhobenen Parameter

Tabelle 10 gibt einen Gesamtüberblick über die 22 im Rahmen der vorliegenden Studie mit SNS untersuchten Patienten. Hierbei wird auf die verschiedenen erhobenen Parameter eingegangen. Es wird möglich, Patientenalter, Diagnose, Wingspread-Einteilung (WE), den gemessenen Schwellenwert des Beckenbodens (SWBB), die aktuelle Kontinenz sowie die ermittelte SR der Patienten im direkten Zusammenhang zu betrachten. Die genauen Daten der Patientenbefragung sind in einer Tabelle im Anhang zu finden.

#### 4.1.6 Ergebnisse der Nachuntersuchungen in Bezug auf die Sicherheit der Methode

Wir führten eine lückenlose Nachsorge im Rahmen von postoperativen klinischen Untersuchungen durch und erfragten aktiv möglicher Nebenwirkungen der Patienten. Hierbei wurde besonders auf das Auftreten von Hautreizungen, Blutungen und Infektionen an den Einstichstellen, so wie auf Veränderungen in der Körperhaltung geachtet. Es traten keine Nebenwirkungen im Zusammenhang mit der diagnostischen SNS auf.

## **4.2 Kasuistiken**

Anhand der folgenden Patientendarstellungen wird ein ausführlicherer Überblick über einige der bereits erwähnten Patienten gegeben werden. Hierbei beschränken wir uns auf diejenigen Kinder, bei denen die Mittellinie kreuzende Innervationen gefunden wurden. Es handelt sich um Patienten mit verschiedenen Diagnosen und Altersstufen. Bei den schematischen Darstellungen sind die durch Stimulation der linken Sakralnerven ausgelösten Kontraktionen rot, die durch Stimulation der rechten Sakralnerven ausgelösten Kontraktionen blau markiert

### **4.2.1 Patient #10: Vollständig gekreuzte Innervation der Sakralnerven**

Patient #10 war zum Zeitpunkt der SNS ein 5-jähriger Junge mit rektourethraler Fistel bei einem zugrunde liegenden VATER-Syndrom. Der Junge war am zweiten Lebenstag mit einem Überlauf-Kolostoma versorgt worden. Nach 9 Monaten wurde die PSARP unter Zuhilfenahme der diagnostischen SNS durchgeführt, wobei eine vollständige Kreuzung der Sakralnerven festgestellt wurde.

Die Stimulation der beiden S3-Nervenwurzeln löste bei einer Reizschwelle von 10 V jeweils kontralaterale Kontraktionen sowohl des äußeren Analen Sphinkters als auch in den Unterschenkeln aus. Ipsilaterale Kontraktionen konnten hierbei nicht festgestellt werden.

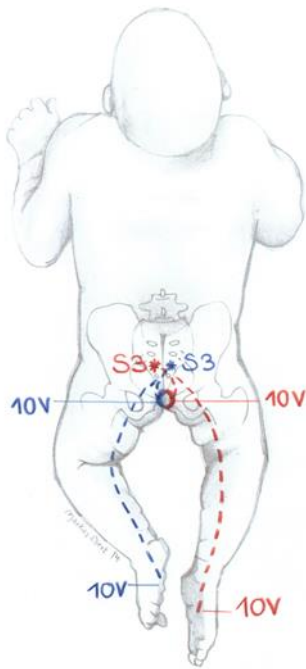


Abbildung 9: Schematische Darstellung des Sakralen Innervationsmusters von Patient #10

Die MRT-Untersuchung des Patienten zeigte ein unauffälliges Sakrum, ein fehlendes Os coccygis, die rektourethrale Fistel sowie vermehrtes Fettgewebe in der Fossa ischioirectalis. Die SR des Patienten wurde bei einem Wert von 0,81 ermittelt. Anhand der Bildgebung konnten bei diesem Patienten keine anatomischen Korrelate für die kreuzenden Innervationen gefunden werden.

Nach einem Follow-up von fünf Jahren und elf Monaten war der Patient 6 Jahre alt und kontinent.

#### 4.2.2 Patient #1: Korrelat für kreuzende Innervation der Sakralnerven im MRT

Bei Patient #1 handelte es sich zum Zeitpunkt der SNS um einen einjährigen Jungen mit Analstenose im Zusammenhang mit einem Okihiro-Syndrom. Die diagnostische Sakralnervenstimulation wurde bei ihm unter Vollnarkose im Rahmen einer elektiven Sphinkter-Dilatation durchgeführt.

Bei Stimulation der linken S3-Sakralnervenzwurzel konnte eine Kontraktion des gesamten äußeren Analsphinkters, also sowohl ipsi- und kontralateral, und zusätzlich eine kontralaterale Kontraktion im rechten Fuß beobachtet werden; der Schwellenwert lag hierbei bei 1 V.

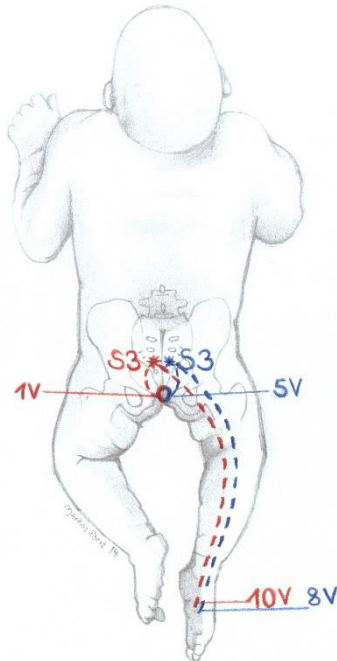


Abbildung 10: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #1

Die Berechnung der SR dieses Patienten ergab einen Wert von 0,63. MRT-Aufnahmen des Patienten zeigten segmentale Abnormitäten der sakralen Wirbel sowie asymmetrische und versetzte Sakralnerven-Austrittspunkte. Ein regelrecht ausgebildetes Os coccygis ist vorhanden. Auffällig ist in der T2-Sequenz eine die Mittellinie überschreitende hyperintense Struktur, welche durch einen Facharzt für Radiologie als Nervenbündel gedeutet wurde. Hierbei handelt es sich um das einzige im Rahmen unserer Studie gefundene morphologische Korrelat für die von uns festgestellten kreuzenden Innervationen im Versorgungsgebiet der Sakralnerven (Abb. 12: Der rote Pfeil markiert die beschriebene Struktur).

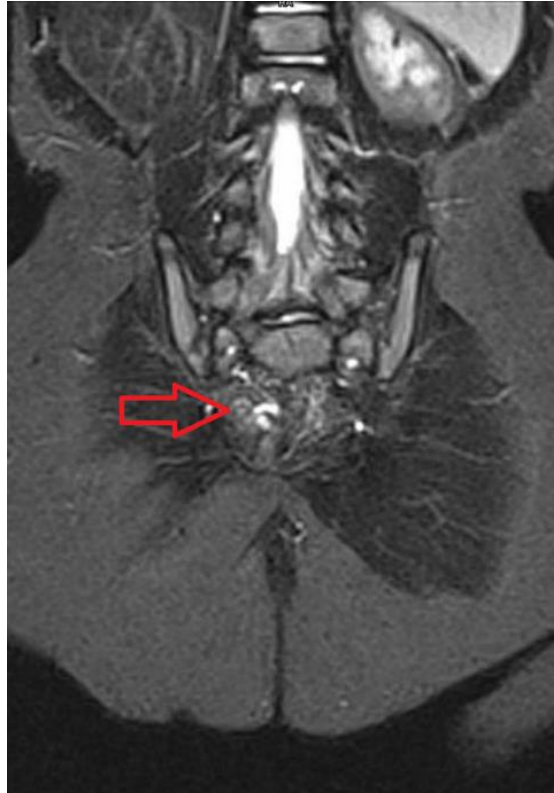


Abbildung 11: MRT Aufnahme von Patient #1.

Bei einem Follow-up von 3 Jahren und 3 Monaten war der Patient 4 Jahre alt und inkontinent.

#### 4.2.3 Patient #21: Partiiell kreuzende Innervation der Sakralnerven bei M. Hirschsprung

Patient #21 ist ein Patient mit M. Hirschsprung. An ihm wurde im Alter von einem Monat eine Durchzugsoperation durchgeführt; ein angelegtes protektives Stoma wurde mit 6 Monaten zurückverlegt. Im Alter von 6 Jahren wurde bei ihm eine Rektoskopie unter Vollnarkose durchgeführt, um die Gründe für seine therapieresistente Inkontinenz zu evaluieren. Zeitgleich wurde auch eine diagnostische Sakralnervenstimulation durchgeführt, um eine intakte neuromuskuläre Versorgung des äußeren Analsphinkters aufzuzeigen.

Durch Stimulation der linken S3-Nervenwurzel konnte eine Kontraktion im rechten Fuß sowie im rechten Hemisphinkter ab einem Schwellenwert von 7 V beobachtet werden. Gleichzeitig konnte keine Kontraktion im linken Hemisphinkter ausgelöst werden.

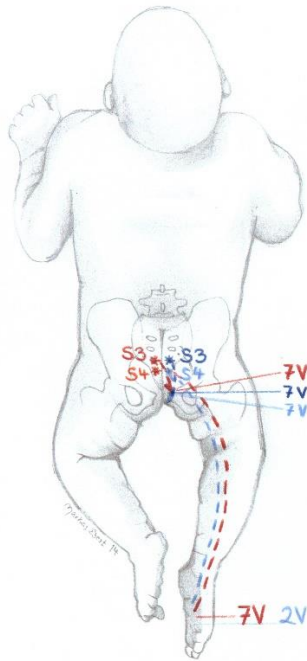


Abbildung 12: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #21

Bei der Auswertung der MRT-Aufnahmen wurde ein Wert von 0,81 für diesen Patienten ermittelt, bis auf einen dorsal verdickten analen Sphinkter wurden keine Auffälligkeiten gefunden. Nach einem Follow-up von 3 Jahren und 9 Monaten ist Patient #21 neun Jahre alt und kontinent.

#### 4.2.4 Patient #6: Partiiell kreuzende Innervation der Sakralnerven bei perinealer Fistel

Bei Patient #6 war im Alter von 6 Monaten ein durch diagnostische SNS unterstützter PSARP zur Therapie seiner perinealen Fistel durchgeführt worden. Hierbei konnten durch Stimulation der linken S3-Nervenwurzel Kontraktionen des rechten Fußes bei 0,5 V provoziert werden.

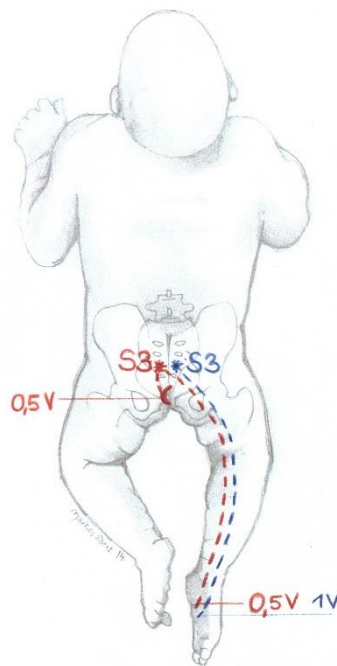


Abbildung 13: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #6

Neben einer Fettgewebsansammlung in der Fossa ischiorektalis zeigte sein MRT keine Auffälligkeiten; seine SR wurde bei einem Wert von 0,57 ermittelt. Nach einem Follow-up von 2 Jahren und 7 Monaten war der Patient 3 Jahre alt und inkontinent.

#### 4.2.5 Patient #18: Partiiell kreuzende Innervation der Sakralnerven bei Blasenektrophie

Es handelte sich bei Patient #18 zum Zeitpunkt der diagnostischen SNS um ein 13-jähriges Mädchen, das sich in unserer Klinik zur Besprechung und Evaluation der Möglichkeit einer Neo-Anus-Anlage vorstellte. Die bis dahin durchgeführte operative Versorgung war an einer anderen Klinik durchgeführt worden (Blasenverschluss, Rekonstruktion des Urogenitaltraktes, Geschlechtsanpassung, Kolostoma).

Im Zusammenhang mit einer Zystoskopie wurde bei der Patientin eine diagnostische SNS durchgeführt, um die neuromuskuläre Versorgung der Perinealregion zu klären. Dabei lag der Fokus auf der Sinnhaftigkeit eines operativen Durchzugs bei fraglich innervertem Muskelgewebe. Bei der SNS zeigten sich Kontraktionen des linken Fußes nach Stimulation der rechten S3-Nervenwurzel mit einem Schwellenwert von 5 V. Ab Stimulation von 4 V der gleichen Nervenwurzel zeigte sich eine Kontraktion des gesamten perinealen Muskelkomplexes.

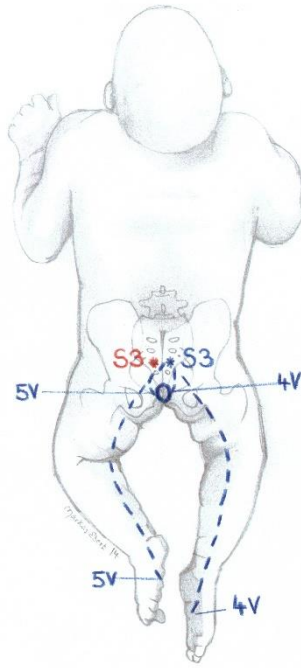


Abbildung 14: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #18

Die Analyse der MRT Aufnahmen zeigte eine Synostose der Wirbel S2–S4 sowie ein verkürztes Kolon; die SR lag bei 0,35. Bis heute ist die Patientin mit dem Kolostoma versorgt.

## **5. Diskussion**

### **5.1. Durchführbarkeit der diagnostischen SNS in der Kinderchirurgie**

Die Ergebnisse der vorliegenden Studie zeigen die Durchführbarkeit der diagnostischen SNS (9).

Im Rahmen der vorliegenden Studie konnten bei 20 von 22 Patienten Muskelreaktionen ausgelöst werden; dabei zeigten alle 20 Patienten die gewünschten Reaktionen im Kontinenzorgan. Die SNS kann also über die direkte Muskelstimulation nach Peña hinaus die Identifikation von Muskelpartien durch eine funktionelle Diagnostik ergänzen. Damit wird die Fragestellung der vorliegenden Studie nach der Durchführbarkeit einer diagnostischen SNS in der Kinderchirurgie beantwortet.

Wir führten eine lückenlose Nachsorge im Rahmen von postoperativen klinischen Untersuchungen durch und erfragten aktiv möglicher Nebenwirkungen der Patienten. Es traten keine Nebenwirkungen im Zusammenhang mit der diagnostischen SNS auf.

### **5.2 Diskussion der Methodik**

#### **5.2.1 Modifikationen der SNS als diagnostisches Verfahren in der Kinderchirurgie**

Bei jungen Patienten ist die skelettale Ossifikation noch nicht vollständig abgeschlossen, dies erfolgt je nach Knochen erst Monate bis Jahre nach der Geburt (55). Daher können wir beim Aufsuchen der Neuroforamina auf die Verwendung von Röntgenstrahlen verzichten und orientieren uns beim Setzen der Nadeln anhand des nebenwirkungsfreien Ultraschalls (9).

Hierbei werden keine Flüssigkeiten injiziert, es entstehen also auch keine Paravasate.

Prinzipiell ist eine Verletzung der Sakralnerven durch die Nadeln zwar denkbar, ist aufgrund der mit Bindegewebe und Flüssigkeit gefüllten Sakralkanäle aber trotzdem unwahrscheinlich; bisher konnten keine klinisch relevanten Verletzungen der Sakralnerven festgestellt werden.

### 5.2.2 Sicherheit der Methode

Häufige Komplikationen bei der therapeutischen SNS sind Schmerzen, Wundinfektionen, Wundheilungsstörungen oder fehlerhaft liegende Nadeln bzw. Stimulatoren (59), sowie Brüche der Nadeln und Erosionen (60), was sich auch in Schmerzen äußern kann (61).

In der Literatur wird der Fall einer jungen Frau beschrieben, die während zweier Schwangerschaften eine therapeutische SNS erhalten hatte; eines der Kinder wurde mit einem motorischen Tick, das andere mit einem Sinus pilonidalis geboren. Ein Zusammenhang zur therapeutischen SNS kann lediglich vermutet werden (62).

Die in der Literatur genannten Nebenwirkungen wurden fast ausschließlich im Zusammenhang mit dauerhaft implantierten Stimulationsnadeln und –geräten erhoben.

In der diagnostischen Sakralnervenstimulation besteht jedoch die einzig invasive Maßnahme aus dem Setzen der Stimulationsnadeln unter sterilen Bedingungen. Das Stimulationsgerät wird von extern bedient und ist über ein steriles Kabel mit dem Operationsbereich verbunden; es wird nicht implantiert (9).

Bei der diagnostischen Sakralnervenstimulation sind Komplikationen wie Hautreizung, Blutungen, Wundinfektion oder Nadelbruch denkbar. Im Rahmen der vorliegenden Studie und der engmaschigen Nachuntersuchungen unserer Patienten sind jedoch keine Nebenwirkungen oder Komplikationen der diagnostischen SNS aufgetreten.

### 5.2.3 Fehlerquellen bei Gerät und Anwender

In Bezug auf die therapeutische Sakralnervenstimulation konnte gezeigt werden, dass individuelle Anpassungen Geräteeinstellungen zur Optimierung der Therapieergebnisse erforderlich sein können (63, 64).

Aufgrund der Tatsache, dass die vorliegende Studie derzeit die einzige auf dem Gebiet der diagnostischen Sakralnervenstimulation ist, können wir nicht davon ausgehen, dass wir optimale Einstellungen am Stimulationsgerät verwenden.

Unter den Patienten ohne mittels diagnostischer SNS hervorrufbaren Kontraktionen konnten wir in einem Falle eine Fehlerquelle finden, auf die sich dieses Fehlen zurückführen lässt. Dieser Patient erhielt eine Kaudalanästhesie, die eine nachweisliche Beeinträchtigung der SNS darstellt.

Bei der Evaluation der Schwellenwerte müssen sowohl in der Bedienung des Stimulationsgerätes als auch in der Beobachtung der bei der Bestimmung der Schwellenwerte teils sehr schwachen Kontraktionen ein gewisser Untersucher-Bias berücksichtigt werden. Diese sind aufgrund variierender Operationsteams kaum nachzuvollziehen, außerdem wurde deren Besetzung nicht dokumentiert. Dies sollte in Zukunft ergänzend erfolgen.

Natürlich kann auch bei der Ermittlung der SR eine gewisse untersucherabhängige Variabilität nicht ausgeschlossen werden; diese wird auch in der Literatur zur Methode kritisch erwähnt (57). Da wir sämtliche unserer Werte jedoch ausschließlich vom gleichen Untersucher ermitteln ließen, wurden diese mit einer konstanten Qualität ermittelt.

#### 5.2.4 Die SR als Prognosefaktor

Die Literatur zur SR (57) lässt offen, warum das Größenverhältnis knöcherner Strukturen zueinander Aussagekraft in Bezug auf die Kontinenz der Patienten haben soll.

Torre et al.(65) reevaluierten bereits den von Peña ermittelten Normwert und forderten aufgrund ihrer Studien eine SR im Bereich von 0,52 bis 1,12 als normwertig. Darunterliegende SR Werte korrelierten in dieser Studie mit einer ungünstigen Kontinenzprognose. Kritisch wird in dieser Arbeit angemerkt, dass auch in einem gesunden Patientenkollektiv starke Abweichungen von einer „normalen“ SR zu finden, also als physiologisch zu bezeichnen sind und dass die Werte auch deutlichen altersabhängigen Schwankungen unterliegen, da sich die Größenverhältnisse des Beckens im Rahmen des Wachstums verändern.

Auch die Ergebnisse weiterer Forschergruppen lassen an der Validität der SR als adäquatem Prognosefaktor zweifeln und verlangen nach alternativen Anhaltspunkten, um verlässlichere Vorhersagen treffen zu können. Als Vorschläge hierfür werden eine zugrunde liegende Fehlbildung oder morphologische Variationen des Weichteilgewebes genannt (66, 67).

### 5.2.5 Verwendung der Krickenbeck-Klassifikation für die postoperative Kontinenzevaluation

Es sind verschiedene Fragenprotokolle und Klassifikationen für die Ermittlung und Einteilung von Inkontinenz etabliert. Ein Vergleich ihrer Ergebnisse ist in Bezug auf die unterschiedlichen Fragenaspekte und Schwerpunkte kaum möglich (68).

Im Rahmen der Krickenbeck Konferenz 2005 erfolgte die Erarbeitung einer vereinheitlichten Klassifikation der ARM sowie deren Behandlungsmethoden und eines standardisierten Kontinenzfragebogens. Streng genommen bezieht sich die dabei entwickelte Kontinenzerteilung ausschließlich auf Patienten mit ARM (14).

Eine Veröffentlichung zur Anwendung des Krickenbeck-Kontinenzscores zeigt diesen in einem Patientengut mit 10 Jahren Follow-up als gut durchführbar und betont die Vergleichbarkeit der erhobenen Daten (58).

Aufgrund der Einfachheit der Datenerhebung (Der Bogen kann ohne Erklärungen oder Hilfestellungen durch einen Arzt ausgefüllt werden) und der guten Vergleichbarkeit der Ergebnisse verwendeten wir dieses Protokoll bei allen Studienteilnehmern, unabhängig von deren Grunderkrankung.

### 5.2.6 Vergleich der diagnostischen SNS mit direkter Muskelstimulation, SR und „percutaneous tibial nerve stimulation“

Der Vergleich der diagnostischen SNS zur direkten Muskelstimulation bzw. Die Überlegenheit der diagnostischen SNS in funktioneller Hinsicht werden in dieser Arbeit mehrfach betont. Die vorliegende Arbeit zeigt, dass die diagnostische SNS die direkte Muskelstimulation nicht nur ersetzen kann, sondern auch gleichzeitig die neuromuskuläre Integrität der Sphinktermuskulatur aufzeigt. Ergänzend können die Schwellenwerte verschiedener, durch die Sakralnerven innervierten Organe bestimmt werden.

Auch die Bestimmung eines Parameters anhand knöcherner Strukturen in Form der SR wurde bereits kritisch erörtert. Es soll jedoch auch nicht in Abrede gestellt werden, dass die Bestimmung der SR als präoperative Auswertung der jeweiligen Morphologien durchaus einen gewissen Beitrag zur Einschätzung der individuellen Verhältnisse und somit

eine sinnvolle Ergänzung des diagnostischen Prozederes darstellt. Aufgrund der eingeschränkte Aussagekraft dieser Methode (65, 67) rechtfertigt die Ermittlung der SR jedoch nicht die Strahlenbelastung bei jungen Patienten.

Hier bisher noch unerwähnt ist die „percutaneous tibial nerve stimulation“ (PNTS). Das postulierte Prinzip der PTNS ist eine transkutane elektrische Stimulation eines peripheren motorischen Nerven und damit auch der entsprechenden Sakralnervenwurzeln; es handelt sich hierbei um die Sakralnervenwurzeln, welche bei der SNS stimuliert werden (4). Die PTNS ist eine wenig erprobte therapeutische Methode, welche in der Behandlung von Obstipation (69), Inkontinenz (70, 71) und chronischen Schmerzen im Becken (72) erprobt wird. Der genaue Mechanismus der PNTS ist derzeit jedoch nicht geklärt (73).

Während die Methode in einigen Studien – eine Ausnahme stellen Patienten mit passiver Kontinenz dar (70) – statistisch signifikante Besserungen der verschiedenen Symptomaten (74, 72, 69, 70) zeigt, ist die Studienlage zum Erfolg der Methode noch nicht eindeutig (75).

Die PNTS stellt zwar in Bezug auf die therapeutische SNS eine interessante, nicht invasive Alternative dar, ist aber für diagnostische Zwecke nicht anwendbar. Sie löst ebenfalls Kontraktionen im Bewegungsapparat aus, jedoch sind sichtbare Kontraktionen in den Erfolgsorganen und besonders im äußeren Analsphinkter bisher nicht beschrieben.

## **5.3 Diskussion der Ergebnisse**

### **5.3.1 Beurteilung der Schwellenwerte**

Nur wenige Veröffentlichungen befassen sich mit den bei der SNS ermittelten Schwellenwerten; da die SNS bisher nur als therapeutisches Verfahren zum Einsatz kam, werden hier die elektrischen Parameter auch unter therapeutischen Aspekten diskutiert. Während einerseits auf den Therapieerfolg bei Stimulationswerten unterhalb der sensorischen Obergrenze eingegangen wird (76, 64), konnten Dudding et al. zeigen, dass niedrigere motorische Schwellenwerte mit einem niedrigeren sensorischen Schwellenwert und einem gesteigerten Therapieerfolg korrelieren (77). Die Werte dieser Studie wurden an 61 stuhlinkontinenten Patienten zwischen 33 und 73 Jahren erhoben.

Im Umkehrschluss würde dies bedeuten, dass ein hoher Schwellenwert mit einer schwerer zu erreichenden Inkontinenz im Zusammenhang steht. Es stellt sich hier jedoch die Frage, ob ein Vergleich zwischen den Werten von erwachsenen Patienten, welche bereits kontinent waren (und somit ein gewissermaßen präkonditioniertes Kontinenzorgan haben), und sehr jungen Patienten, die den Umgang mit ihrem Schließmuskel noch erlernen müssen, zulässig ist.

Es konnte demonstriert werden, dass eine Erhebung dieser Werte möglich ist. Eine prognostische Bedeutung dieser Daten ist in Zusammenschau mit den Ergebnissen von Dudding et al. (77). denkbar.

Aufgrund der insgesamt geringen Patientenzahl, der zum Teil unvollständig erhobenen Werte und einer fehlenden Vergleichsgruppe gesunder Personen ist die Ermittlung statistisch signifikanter Durchschnittswerte derzeit nicht möglich.

### 5.3.2 Auswertung der MRT-Aufnahmen

Bei der Auswertung der präoperativen MRT-Aufnahmen unserer Patienten fielen verschiedene Fehlbildungen und Variationen sowohl des Bindegewebes als auch der knöchernen Strukturen im Bereich des kleinen Beckens auf. Angesichts unterschiedlichen zugrunde liegenden Grunderkrankungen und Fehlbildungen der Patienten war diese Feststellung zu erwarten.

Festzuhalten ist die Heterogenität dieser gefundenen Morphologien sowohl der knöchernen Strukturen im kleinen Becken sowie auch des Bindegewebes; Sie betont insgesamt die Individualität eines jeden Patienten, die auch im Hinblick auf die jeweilige Therapie berücksichtigt werden sollte.

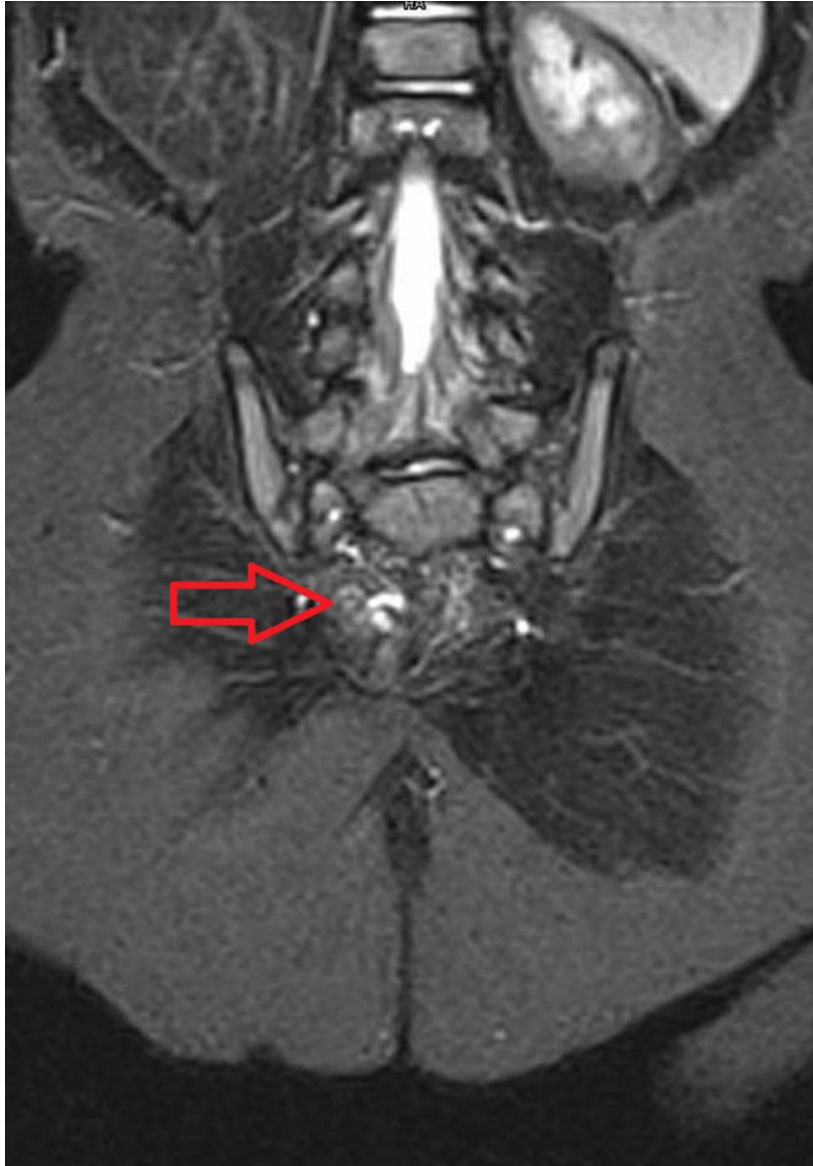


Abbildung 15: MRT-Aufnahme von Patient #1. Der rote Pfeil markiert die unten beschriebene Struktur.

Gesondert soll hier das MRT des Patienten #1 aufgrund der besonderen gefundenen Strukturen dargestellt werden.

Während unserer Nachuntersuchung ist bei diesen Bildern die in Abbildung 15 mit einem roten Pfeil markierte Struktur aufgefallen, da sie in Signal und Position den Nerven des Plexus sacralis entspricht, jedoch einen untypischen Verlauf nimmt. Anstatt sich nach lateral oder distal in die Peripherie auszudehnen, erstreckt sich diese vor dem Os sacrum liegende Formation vom Sakralforamen aus nach proximal und läuft zur Mittellinie hin.

Nach gezielter Rücksprache im Bezug auf beschriebene Struktur mit dem Oberarzt der Abteilung für Kinderradiologie, Herrn Dr. med. Markus Ebert, handelt es sich hierbei um eine die Mittellinie kreuzende Nervenbahn.

### 5.3.3 Ergebnisse der SR in Bezug auf die Kontinenzbefragung

Es liegen ausgefüllte Evaluationsbögen mit Einverständniserklärungen über die Veröffentlichung der Werte von 14 der insgesamt 20 kontaktierten Patienten vor. Aufgrund der zu kurzen Nachbeobachtungsdauer ist eine Auswertung der Kontinenz in Bezug auf die SR nicht möglich, da die Kontinenzleistung erst ab dem 4. Lebensjahr zu bewerten ist. Zudem ergibt sich durch die unterschiedlichen Diagnosen (Wingspread-/Krickenbeck-Einteilungen und Morbus Hirschsprung) sowie die Altersunterschiede der untersuchten Patienten ist ein zu heterogenes Patientengut, weshalb eine statistische Auswertung derzeit nicht sinnvoll ist.

### 5.3.4 Beobachtungen bei der SNS: Erstbeschreibung kreuzender Innervationen der Sakralnerven

Bei 10 von 22 unserer Patienten wurden durch die diagnostische SNS reproduzierbar kontralaterale Innervationsmuster nachgewiesen. Diese bezogen sich nicht nur auf den Sphinkterapparat, sondern auch auf Kontraktionen in den unteren Gliedmaßen. Globale oder kontralaterale Kontraktionen des Schließmuskels, welche bei 4 Patienten provoziert werden konnten, sind hierbei kritisch zu betrachten, da es durch den zirkulären Muskelaufbau schwer fällt, mit bloßem Auge ein Kontraktionszentrum auszumachen. Diese Beobachtungen waren jedoch eindeutig und reproduzierbar, während unterschiedlicher Abschnitte der OP.

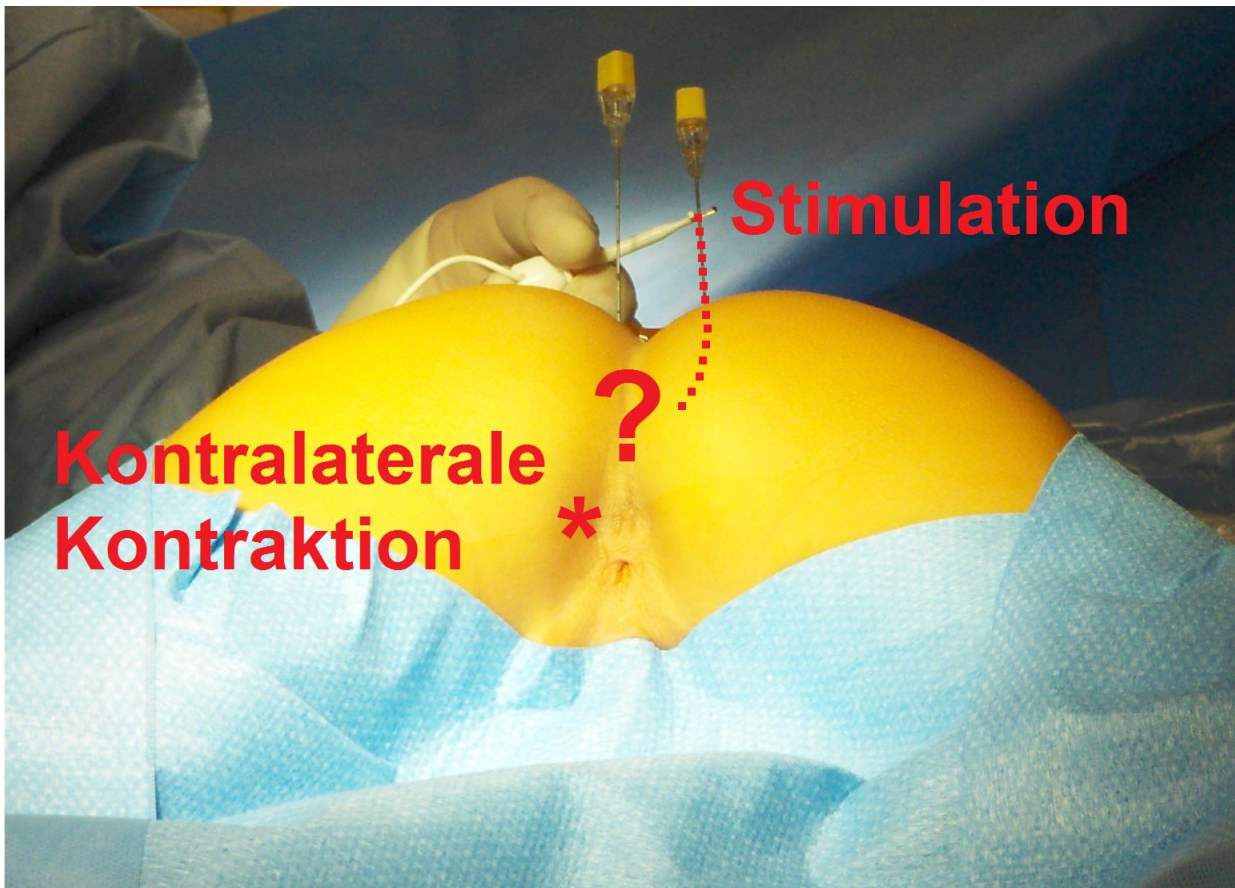


Abbildung 16: Auslösen einer kontralateralen Kontraktion (Stimulation rechts, Reaktion links)

Im Falle der kontralateral innervierten Muskeln des Bewegungsapparates, welche wir bei 6 von 22 Patienten in verschiedenen Ausprägungen beobachteten, gehen wir davon aus, dass im Innervationsgebiet der Sakralnerven die Mittellinie kreuzende Nervenfasern existieren. Von den 6 beschriebenen Patienten hatten 5 eine ARM (1 x hoch, 1 x mittel, 3 x tief) und ein Patient die Diagnose Morbus Hirschsprung. Unter jenen Patienten, welche lediglich eine kontralaterale Sphinkter- oder Beckenbodenkontraktion zeigten, sind 2 mit ARM (2 x hoch), ein Patient mit der Diagnose Blasenektrophie und ein weiterer Patient mit M. Hirschsprung. Es handelt sich hierbei zwar um Erkrankungen mit Beteiligung des Anorektums; ihre Pathophysiologie ist jedoch grundsätzlich verschieden.

Daher ist die Frage, ob diese Variation der Innervation auch eine bei gesunden Individuen vorkommende Abweichung ist, aufgrund der fehlenden Untersuchungen zunächst noch ungeklärt.

Zumindest ist dieses oder ein ähnliches Phänomen mit kreuzenden oder kontralateralen Innervationen bisher weder bei gesunden noch in anderen definierten Patientenkollektiven vorbeschrieben.

Während im zentralen Nervensystem diverse Leitungsbahnen die Mittellinie kreuzen (4), ist dieses Phänomen für das periphere Nervensystem bisher unbekannt. Da es sich bei der hier beschriebenen Sakralnervenstimulation um ein diagnostisches Verfahren auf funktioneller Basis handelt, können durch die NS aber keine Aussagen getroffen werden, auf welcher Ebene die verantwortlichen Nervenfasern die Mittellinie kreuzen. Feindiagnostische bildgebende Verfahren könnten weitere Aufschlüsse über die Ursache dieser bislang unbeschriebenen Beobachtungen und Lokalisation der verantwortlichen Bahnen bringen.

#### 5.3.5 Vorschlag zur Systematik kreuzender Innervationsmuster

Im Laufe der Studie zur diagnostischen Sakralnervenstimulation wurden verschiedene Varianten von kreuzenden Innervationen aufgefunden. Der Übersicht halber entwarfen wir eine Systematik, um die unterschiedlichen Innervationen in Gruppen einteilen zu können. Die beigefügten Illustrationen sollen exemplarisch für den jeweiligen Innervationstyp stehen, wobei die linke Nervenwurzel und die durch ihre Stimulation provozierten Kontraktionen rot und die der rechten Nervenwurzel blau markiert sind. Die Systematik beinhaltet eine Unterscheidung der Innervationsmuster in drei Typen, die im Folgenden näher beschrieben werden.

Typ I: Die beobachteten, zum stimulierten Sakralnerven kontralateralen Kontraktionen beschränken sich ausschließlich auf den äußeren Analsphinkter. Kontraktionen in den unteren Extremitäten traten ausschließlich ipsilateral auf. Eine kontralaterale Innervation vom Typ I wurde an 6 von 22 Patienten, also bei 18 % der untersuchten Kinder festgestellt.

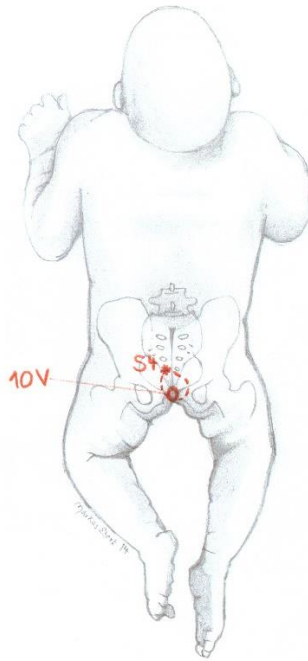


Abbildung 17: Skizze eines Patienten mit Typ I kontralateralen Kontraktion: Patient #19

Typ II: Kontralaterale Kontraktionen im äußeren Analsphinkter sind optional, jedoch kontrahieren hier immer auch Muskeln des zur stimulierten Nervenwurzel kontralateralen Beines. Das Innervationsmuster vom Typ II konnte bei 5 von 22 Patienten, also in 23 % der untersuchten Patienten gezeigt werden.

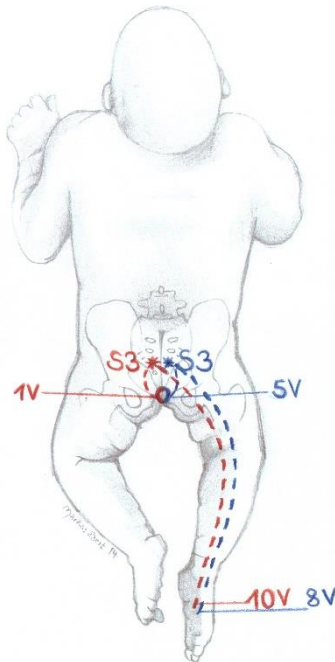


Abbildung 18: Skizze eines Patienten mit Typ II kontralateralen Kontraktion: Patient #1

Typ III: Es werden durch die Sakralnervenstimulation ausschließlich kontralaterale Kontraktionen ausgelöst. Diese Art der Innervation wurde bei einem von 22 mit diagnostischer SNS untersuchten Patienten gezeigt, dies entspricht 4,5 %.

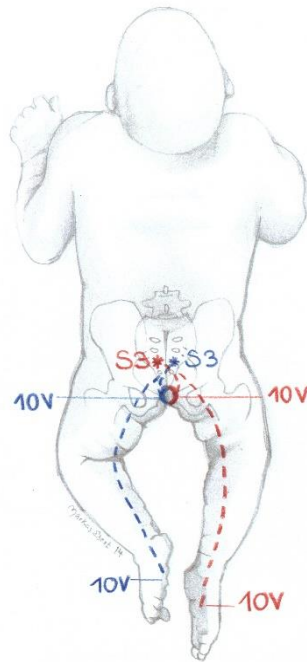


Abbildung 19: Skizze eines Patienten mit Typ III kontralateralen Kontraktion: Patient #1

Während wir, anders als Luigi Galvani, mit den von uns erzeugten Kontraktionen unserer Patienten gerechnet hatten, machten auch wir bei unserer Studie eine unerwartete Entdeckung: Durch die diagnostische SNS konnten erstmals kreuzende Innervationen im Bereich des Plexus sacralis gezeigt werden, was Anlass für weitere Forschungen gibt.

## **6. Ausblick**

### **6.1 Anwendbarkeit der SNS als Neuromapping**

Bei Operationen an der Schilddrüse ist ein Neuromapping des N. laryngeus recurrens, wobei dessen Funktion und somit Unversehrtheit über elektrische Parameter überprüft wird, bereits seit längerem etabliert (78).

Die Schonung von Nerven wird bei Operationen am Beckenboden dringend empfohlen, da eine intraoperative Verletzung der autonomen Nerven zu fehlender oder verschlechterter anorektaler und urogenitaler Funktion führen können (79). Ein Neuromapping über die Sakralnerven ist also auch bei Operationen im Bereich des Beckenbodens indiziert.

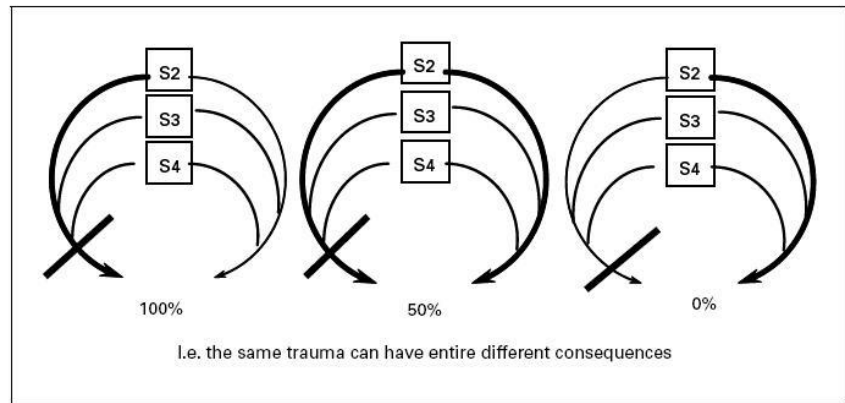
Während eine indische Gruppe im Rahmen verschiedener Operationen an Myelomeningozelen und Tumoren in der Sakralregion Fasern der Cauda equina stimulierte, um gezielt wichtige funktionelle Einheiten schonen zu können (80), führten wir in 3 Fällen von Tumorsektionen am Universitätsklinikum Regensburg eine intraoperative Sakralnervenstimulation als Neuromapping durch.

Auch bei dieser weiteren Indikation konnte die Machbarkeit der diagnostischen SNS an kinderchirurgischen Patienten ohne Komplikationen oder Nebenwirkungen gezeigt werden.

### **6.2 Entwicklung eines standardisierten diagnostischen Procederes auf funktioneller Ebene**

Im Rahmen der OASIS-Studie (39) wurden nicht nur asymmetrische Sphinkterinnervationen genauer evaluiert; für die betroffenen Patienten konnte auch bei direkten Eingriffen am Sphinkter, wie z. B. Dammschnitten, ein erhöhtes Risiko für die Entwicklung einer Inkontinenz nachgewiesen werden (41). Die gleiche Studiengruppe veröffentlichte ähnliche Untersuchungsergebnisse im Zusammenhang mit Geburtstraumen bereits vor dem OASIS Projekt (81, 42).

Die Hypothese besteht in einer Verletzung der Innervation der dominanten Sphinkterseite z.B. im Rahmen der Geburtshilfe. Folgende Abbildung soll zur Veranschaulichung für diese Annahme dienen (42).



**Fig. 1.** A research hypothesis of the clinical relevance of functional pudendal nerve asymmetry in case of unilateral trauma.

Abbildung 20: Grafik zur Hypothese zur Erklärung der verschiedenen Inkontinenzrisiken bei einseitigem Beckenbodentrauma (40)

Aus den Beobachtungen der hier angeführten Studie lassen sich asymmetrische Innervationsmuster bei primär gesunden Erwachsenen ableiten. Es liegt daher nahe, dass auch bei Kindern mit Fehlbildungen im Bereich des Anorektums kreuzende Innervationen des M. sphincter ani angelegt sind. Diese Beobachtungen konnten wir durch unsere Messungen nicht nur bei ARM-Patienten, sondern auch beim M. Hirschsprung nachweisen.

Ob diese asymmetrischen Innervationsmuster bei den hier untersuchten Patientengruppen, speziell der angeborenen Fehlbildungen, überproportional häufig anzutreffen sind, wäre nur durch Untersuchungen an einer gesunden Vergleichspopulation möglich.

In morphologischer Hinsicht lassen sich die kreuzenden Nervenbahnen an sich mit den uns zur Verfügung stehenden bildgebenden Verfahren derzeit nicht klar darstellen; insbesondere ist der Verlauf, den die Nervenbahnen bei der Kreuzung die Mittellinie nehmen, nicht bekannt.

Folglich nimmt man bei der Präparation entlang der Mittellinie des Beckenbodens die iatrogene Verletzung einer (primär angelegten) Innervation und damit eine Beeinträchtigung der Kontinenzentwicklung zusätzlich zu den fehlbildungsbedingten Störungen in Kauf.

Aufgrund der Häufigkeit von Asymmetrien in unseren Messungen bestünde dieses Risiko für 45 % in einer vergleichbaren Studienpopulation.

Konsequenz dieser Erkenntnisse ist die Etablierung eines diagnostischen Procedere, welches vor operativen Eingriffen in der Analregion nicht nur die Morphologie der Fehlbildung erfasst, sondern auch das Innervationsmuster der muskulären Komponenten des Beckenbodens abklärt.

### 6.2.1 Das Potenzial der diagnostischen SNS in Diagnostik und Prognoseabschätzung

Bei der Standardtechnik der posterioren sagitalen Anorektoplastik wird der sog. „Sphinkterkomplex“ neben der chirurgischen Freilegung durch eine direkte elektrische Muskelstimulation zusätzlich in funktioneller Hinsicht identifiziert (57, 15). Hierbei wird mit einem elektrischen Stimulationsgerät das in Sphinkterposition identifizierte Muskelgewebe transkutan oder nach Inzision der Haut in der Mittellinie stimuliert und die kontraktile Gewebeportionen dargestellt, welches bei der späteren Anorektoplastik als Sphinkter angelegt werden soll (12).

Bei der Sakralnervenstimulation können intraoperativ ebenfalls Muskelanteile sicher von anderem Gewebe differenziert werden. Ein entscheidender Vorteil gegenüber der direkten Muskelstimulation besteht jedoch in der zusätzlichen Beurteilung der neuro-muskulären Achse. Bei dieser kann die spätere Willkürfunktion des M. sphincter ani externus überprüft werden.

Somit erfüllt die diagnostische SNS nicht nur den Zweck der Erkennung muskulären Gewebes, sondern erlaubt eine Aussage über die funktionelle Integrität der analen Willkürmotorik zu einem Zeitpunkt, wo die motorische Entwicklung des Säuglings dieses in der klinischen Überprüfung üblicherweise noch nicht zulassen würde.

Denkbar wäre in Zukunft auch eine Berücksichtigung der bei der diagnostischen SNS erhobenen Schwellenwerte als prognostischer Faktor für die spätere Kontinenzentwicklung. Da es sich bei der diagnostischen SNS um eine funktionelle Prüfung unter anderem des M. sphincter ani externus handelt, besteht Anlass zur Vermutung, dass sie die lediglich aufgrund der Längenverhältnisse knöcherner Strukturen erhobene „Sacral Ratio“ als prognostische Größe ersetzen kann.

### 6.2.2 Ergänzung der diagnostischen SNS durch das Sphinkter-EMG

Die bisher bei der diagnostischen SNS erhobenen Werte beschränken sich auf ein kleines, inhomogenes Patientenkollektiv. Außerdem ist die Nachbehandlungsdauer und eine angemessene Zeitspanne zur Kontinenzbeurteilung in den meisten Fällen nicht gegeben. Dazu kommt, dass derzeit keine qualitativen Messungen, er bei der diagnostischen SNS hervorgerufenen Kontraktionen möglich ist. Daher ist eine zuverlässige prognostische Aussagekraft der bei der diagnostischen SNS erhobenen Werte und Beobachtungen bisher nicht möglich

Ein zusätzlich durgeführtes Sphinkter-EMG würde weitere Parameter und Erkenntnisse erbringen. Bei dieser Methode werden über eine zirkuläre Sonde die Spannungsunterschiede, welche bei einer Kontraktion im Muskelgewebe zustande kommen, für definierte Portionen des ringförmigen Muskels einzeln abgeleitet. Die Peaks in den Ableitungen des EMG lassen auch Rückschlüsse auf die Stelle zu, an der die innervierenden Strukturen auf den Sphinkter treffen (41).

Durch SNS erzeugte Nervenimpulse können so über eine myografische Ableitung präzise und objektiv evaluiert und dokumentiert werden. Somit sind wertvolle Aussagen zum Innervationsgebiet und der Innervationsqualität für jeden einzelnen Sakralnerv möglich. Eine Prognoseeinschätzung sollte mit dieser Kombination noch weit zuverlässiger erfolgen können als bisher. Ein solches Gerät wird derzeit zwar in Studien verwendet (41, 82), ein marktfähiges Produkt existiert derzeit jedoch nicht.

### **6.3 Anpassung des operativen Vorgehens an die individuelle Neurophysiologie**

Die Kombination von diagnostischer SNS und Sphinkter-EMG kann also potenziell kontraktiles Gewebe identifizieren, dessen intakte Innervation vor und während der gesamten Operation überprüfen, die Qualität der Kontraktionen bestimmen und detaillierte Aussagen über Innervationsdominanzen sowohl qualitativ als auch räumlich treffen. Zusätzliche Informationen könnte eine auf Nervenbahnen fokussierte Bildgebung bringen.

Durch diese umfassende Information könnte das Operationsvorgehen an die genauen topografischen und funktionellen Eigenschaften eines jeden Patienten angepasst werden, indem die funktionell bedeutenden Bereiche erkannt und geschont werden könnten.

Einem Patienten, dem die ausgedehnte Diagnostik zukommt, kann also eine optimierte operative Versorgung und damit auch verbesserte Grundlagen für eine erfolgreiche Kontinenzentwicklung mit Aussicht auf eine hohe Lebensqualität gegeben werden.

Diese Erkenntnis überschreitet spätestens im Kontext mit den Ergebnissen der OASIS-Studie den Altersbereich der Kinderchirurgie und stellt auch für die Erwachsenen-Proktologie eine sinnvolle diagnostische Ergänzung dar.

## **7. Zusammenfassung**

### **Hintergrund und Ziele**

Der Goldstandard bei der Korrektur anorektaler Malformationen ist die Methode nach Peña/de Vries (15). Sie beinhaltet die direkte intraoperative Muskelstimulation zur Identifizierung kontraktiven Muskelgewebes im Bereich des Beckenbodens. Dies zielt darauf ab, die physiologisch günstigste Position des Neoanus innerhalb des analen Sphinkterkomplexes (83) zu definieren. Bei dieser Methode kann zwar kontraktiles Gewebe eindeutig identifiziert werden (12), eine regelrechte somatische Innervation und somit eine spätere willkürliche Funktion dieser Muskelfasern kann durch diese Methode jedoch nicht überprüft werden (9).

Bei der therapeutischen Sakralnervenstimulation (SNS) werden die Sakralnerven an ihren Austrittsstellen aus dem Os sacrum über einen dauerhaft implantierten Schrittmacher stimuliert, um die Muskulatur verschiedener Zielorgane im kleinen Becken, des M. detrusor vesicae (59) und des M. sphincter ani (49), zu stärken.

Die Methode der Sakralnervenstimulation wird im Rahmen der vorliegenden Studie in Kinderchirurgie als diagnostische Maßnahme eingesetzt. Hiermit kann in einem Schritt zusätzlich zur alleinigen Kontraktilität des Muskelgewebes auch dessen angelegte Innervation intraoperativ dargestellt werden. Zusätzlich dient sie der Orientierung bei der Anoplastik oder bei anderen Eingriffen zur Schonung der Schließmuskelfunktion.

Diese Arbeit soll zum einen die Eignung bei gleichzeitiger Sicherheit dieser Methode aufzeigen und zum anderen einen Ausblick auf ihre weiteren Möglichkeiten zum Beispiel bei der Verwendung als Prognosefaktor im Hinblick auf die spätere Kontinenzleistung der Patienten geben.

### **Material und Methoden**

Die diagnostische SNS führten wir bei 22 Patienten mit zugrunde liegenden anorektalen Malformationen (ARM; n = 17), Morbus Hirschsprung (n = 3) sowie bei zwei Patienten mit zugrunde liegender Blasenektrophie durch. Der Eingriff erfolgte entweder bei der Primärversorgung der jeweiligen angeborenen Fehlbildung oder bei verschiedenen Folgeeingriffen.

Intraoperativ wurden hierbei zunächst unter Ultraschallkontrolle perkutan Foramennadeln in die Sakralforamina S3 und/oder S4 eingesetzt. Bei der initialen Stimulation wurde zunächst der korrekte Nadelsitz durch Beobachtung der Kontraktion der entsprechenden Kennmuskeln der Sakralnerven überprüft; sie erfolgte mit den Geräteeinstellungen von 20 Hz bei einer Impulsbreite von 120µs, 120 mA Stromstärke und 10 V Stromspannung mit dem Stimulationsgerät. Zur Bestimmung der Reizschwellen von Kennmuskeln und Sphinkter-/Beckenbodenmuskulatur wurde stufenweise die Spannung am Stimulationsgerät in 0,5-V-Schritten verringert.

Anschließend werteten wir in Zusammenarbeit mit der Radiologischen Abteilung an unserer Klinik die MRT-Aufnahmen unserer Patienten im Hinblick auf morphologische Besonderheiten und zur Bestimmung der SR aus.

Zusätzlich wurde unser kinderproktologischer Anamnesebogen inklusive des Fragebogens zur Beurteilung der Kontinenzleistung nach der Krickenbeck-Klassifikation (14) von unseren Patienten oder deren Sorgeberechtigten ausgefüllt und von uns ausgewertet.

## **Ergebnisse**

Bei 20 von 22 Patienten ließen sich durch die Sakralnervenstimulation Muskelkontraktionen auslösen. Einer der beiden frustranen Stimulationsversuche lässt sich auf eine präoperativ durchgeführte Kaudal-Anästhesie zurückführen; beim zweiten Patienten ist die Ursache ungeklärt. Zu den hauptsächlich durch SNS der Sakralnerven S3-S4 kontrahierenden Muskeln gehören die Beckenbodenmuskulatur – besonders der äußere Analsphinkter – und Plantarflektoren. Die gemessenen Schwellenwerte liegen zwischen 0,2 und 10 V.

Bei 8 von 22 Patienten wurden Kontraktionen der stimulierten Nerven auch kontralateral ausgelöst.

Die Auswertung der MR-Tomografien der Patienten ergab unterschiedliche knöcherne und muskuläre Dysmorphien, was sich nicht zuletzt durch eine große Anzahl unterschiedlicher Grunderkrankungen erklären lässt. Lediglich bei einem Patienten konnte hierbei eine Struktur gefunden werden, welche sich als eine die Mittellinie kreuzende Nervenbahn interpretieren lässt.

Intra- und postoperativ traten keine unerwünschten Nebenwirkungen oder Komplikationen auf, die als Folge oder im Zusammenhang mit der SNS zu bewerten sind.

Die postoperative Befragung mit Bezug auf die Kontinenz wurde von 14 der 20 kontaktierten Patienten innerhalb eines Jahres zurückgesendet. Aufgrund der geringen Patientenzahl und hohen Heterogenität bezüglich Alter und Grunderkrankungen sind die hierbei erhobenen Werte jedoch statistisch nicht aussagekräftig.

### **Schlussfolgerung**

Die vorliegende Studie zeigt, dass es sich bei der Sakralnervenstimulation um eine sichere Methode zur intraoperativen Überprüfung der Lokalisation und Funktion des analen Schließmuskels an Säuglingen und Kleinkindern handelt und sie sich als diagnostische Methode in der Kinderchirurgie eignet. Sie ist auch in der Routinetherapie sicher und standardisiert durchführbar.

Weiterhin wurden die theoretischen Vorteile einer systematischen Überprüfung der neuromuskulären Verschaltung auch in der Praxis dargestellt.

Im Rahmen dieser Arbeit konnte durch die diagnostische SNS auch der Nachweis häufig bestehender kreuzender Innervationsmuster für den analen Schließmuskel erbracht werden. Dies gibt Anstoß für weitere Untersuchungen und legt nahe, dass eine intraoperative Präparation des Rektums und des präsakralen Bindegewebes im Bereich der Mittellinie die Integrität dieser neuralen Leitungsbahnen gefährden und damit die zukünftige Kontinenz zusätzlich beeinträchtigen könnte.

In Zukunft könnte der diagnostischen SNS und den hierbei erhobenen neurophysiologischen Messwerten eine weitere Bedeutung als prognostische Parameter für die spätere Kontinenz und damit auch für Lebensqualität der Patienten mit anorektalen Fehlbildungen zukommen; ein solcher Rückschluss ist aufgrund der geringen Patientenzahl und der kurzen Nachbeobachtungsdauer derzeit noch verfrüht. Durchaus sind aber auch Ansätze für zusätzliche Interventionskonzepte zur Verbesserung der Lebensqualität der Patienten mit anorektalen Fehlbildungen auf der Basis der initialen SNS denkbar.

Die diagnostische Sakralnervenstimulation stellt ein sinnvolles, sicheres und wissenschaftlich begründbares Instrument in der Diagnostik, Therapie und möglicherweise in

der Prognoseeinschätzung des Formenkreises der anorektalen Fehlbildungen sowie deren Folgezustände dar.

## 8. Dokumentations- und Fragebögen

Die verbesserte Version enthält eine ausführlichere Tabelle, in die man für jeden Sakralnerv die beobachteten Kontraktionen dokumentieren und die jeweiligen Schwellenwerte notieren kann. Dies kann hier übersichtlicher sowohl für die ipsi- als auch die kontralateralen Kontraktionen geschehen.

Außerdem werden hier die Werte der direkten Muskelstimulation nicht mehr notiert.

Da hier die ohnehin standardisierten Geräteeinstellungen für das Stimulationsgerät von vornherein angegeben werden, müssen diese praktischerweise auch nicht mehr für jeden Eingriff neu eingetragen werden.

### SNS Protokoll

Keine Kaudal Anästhesie und keine Muskelrelaxation!!!

Einstellungen für Medtronic Teststimulator:

- Drehschalter auf A - Blau
- Die blauen Werte in Klammern abgelesen werden!
- 20 Hz
- 120 µs

[Patientenetikett]

SNS Datum: \_\_\_\_\_

LINKS		RECHTS	
S3		S3	
Reaktion	Schwellenwert in Volt	Reaktion	Schwellenwert in Volt
Beckenbodenkontraktion	Links:  Gekreuzt:	Beckenbodenkontraktion	Rechts:  Gekreuzt:
Plantarflexion	Links:  Gekreuzt:	Plantarflexion	Rechts:  Gekreuzt:
Dorsalextension	Links:  Gekreuzt:	Dorsalextension	Rechts:  Gekreuzt:
S4		S4	
Reaktion	Schwellenwert in Volt	Reaktion	Schwellenwert in Volt
Beckenbodenkontraktion	Links:  Gekreuzt:	Beckenbodenkontraktion	Rechts:  Gekreuzt:
Plantarflexion	Links:  Gekreuzt:	Plantarflexion	Rechts:  Gekreuzt:
Dorsalextension	Links:  Gekreuzt:	Dorsalextension	Rechts:  Gekreuzt:

Abbildung 21: Verbessertes SNS Protokoll

## **8.2 Anamnesebogen Kinderproktologie**

Der standardmäßig verwendete Anamnesebogen für die Kinderproktologie wurde lediglich in Bezug auf die Formulierung der zu beantwortenden Fragen abgeändert. Soweit möglich, wurden diese in ganzen Sätzen und für Laien verständlich gestellt, um eine eigenständige Beantwortung des Fragebogens durch die Eltern zu ermöglichen.

### **Anamnesebogen für die Kinderproktologie**

Wie oft hat Ihr Kind Stuhlgang? \_\_\_ mal pro Tag \_\_\_ mal pro Woche

Wie ist die Stuhlkonsistenz?  flüssig  weich  geformt  hart

Hat Ihr Kind spontanen Stuhlgang?  Ja  Nein

Wann war der Abgang des Kindspech?  0-1. Lebenstag  Tag 2-3  > Tag 3

(Mekoniumabgang)

Ist Ihr Kind Kontinent?  Ja  Nein

Wenn Ja, in welchem Alter wurde die Stuhlkontinenz erreicht? \_\_\_\_\_

Wenn Ja, in welchem Alter wurde die Harnkontinenz erreicht? \_\_\_\_\_

**Wenn keine vollständige Kontinenz vorliegt, bitte Fragebogen für Krickenbeck-Klassifikation auf der nächsten Seite ausfüllen!**

Familienanamnese: Gibt es in Ihrer Familie Verwandte mit Erkrankungen im Bereich des Enddarmes (Anorektums) z. B. Analatresien, Morbus Hirschsprung, chronisch entzündliche Darmerkrankungen, Inkontinenz im Jugendalter?

---

---

---

**Bisherige Therapie:**

Geben Sie Ihrem Kind Stuhlweichmacher oder betreiben Sie Laxantientherapie?

Ja       Nein

Wenn Ja, welches Präparat geben Sie?

Movicol     Lactulose     Pflanzlich     Klysma

In welcher Dosierung?: \_\_\_\_\_

Wie lange?: \_\_\_\_\_

Wurde bei Ihrem Kind Biofeedbacktherapie durchgeführt?     Ja       Nein

Wurden bei Ihrem Kind Bougierungen durchgeführt?:       Ja       Nein

Wenn ja: Auf welche Hegargröße wurde bougiert?: \_\_\_\_\_ Hegar

Über welchen Zeitraum hinweg wurde bougiert?: \_\_\_\_\_

Wurde Irrigationstherapie durchgeführt?  Ja  Nein

Wurde ein Stuhlprotokoll ausgefüllt? :  Ja  Nein

### **Krackenbeck-Klassifikation für postoperative Ergebnisse bei ARM**

Hassett S, Snell S, Hughes-Thomas A, Holmes K. 10 year outcome of children born with anorectal malformation, treated by posterior sagittal anorectoplasty, assessed according to Krackenbeck Klassification. J Ped Surgery 2009.44,399-403.

#### **I. Stuhl drang**

1. Hat Ihr Kind von alleine Stuhlgang?  Ja  Nein

2. Spürt Ihr Kind Stuhlgang?  Ja  Nein

3. Kann Ihr Kind Menge und Konsistenz äußern?  Ja  Nein

4. Kann Ihr Kind den Stuhlgang bis zur Toilette halten?  Ja  Nein

II. Schmiert Ihr Kind ein?  Ja  Nein

Wenn Ihr Kind einschmiert, geben Sie bitte Grad I–III an!

1. Grad I: nur 1–2 mal pro Woche

2. Grad 2: jeden Tag, kein soziales Problem

3. Grad 3: immer, soziales Problem

III. Hat Ihr Kind Verstopfung?

Ja  Nein

Wenn Ihr Kind Verstopfung hat, geben Sie bitte Grad I–III an!

1. Grad I: mit diätischen Maßnahmen in Griff zu kriegen

2. Grad II: Laxantien/Stuhlweichmacher helfen

3. Grad III: Keine der genannten Maßnahmen zeigt Wirkung

## **9. Verzeichnisse**

### **9.1 Abbildungsverzeichnis**

Abbildung 1: Versuchsskizze aus Luigi Galvanis Originalarbeit „De viribus electricitatis in motu musculari“ (1).....	7
Abbildung 2: Die Anatomie von Anus und Rektum (4).....	10
Abbildung 3: Der Plexus sacralis: Schematische Darstellung und anatomischer Verlauf der Strukturen in der Peripherie (4) .....	12
Abbildung 4: Darstellung der häufigsten Fistelformen der Analatresie bei Mädchen (12) .....	15
Abbildung 5: Darstellung der häufigsten Fistelformen Analatresie bei Knaben (12) .....	16
Abbildung 15: Verteilungsmuster für asymmetrische Innervationen nach Enck et al. (40) .....	19
Abbildung 6: Teststimulator mit Kabel und angedeuteter Stimulationsnadel, Medtronic®; GmbH, Emanuel-Leutze-Str. 20, 40547 Düsseldorf.....	23
Abbildung 7: Platzierung der Foramennadeln unter Ultraschallkontrolle (9) .....	25
Abbildung 8: Bestimmung der SR, Methode nach Alberto Peña (57) .....	28
Abbildung 9: Schematische Darstellung des Sakralen Innervationsmusters von Patient #10.....	44
Abbildung 10: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #1 .....	45
Abbildung 11: MRT Aufnahme von Patient #1. ....	46
Abbildung 12: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #21.....	47
Abbildung 13: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #6.....	48

Abbildung 14: Schematische Darstellung des sakralen Innervationsmusters von Patient #18.....	49
Abbildung 20: MRT-Aufnahme von Patient #1. Der rote Pfeil markiert die unten beschriebene Struktur.....	56
Abbildung 16: Auslösen einer kontralateralen Kontraktion (Stimulation rechts, Reaktion links) .....	58
Abbildung 17: Skizze eines Patienten mit Typ I kontralateralen Kontraktion: Patient #19 .....	60
Abbildung 18: Skizze eines Patienten mit Typ II kontralateralen Kontraktion: Patient #1 .....	60
Abbildung 19: Skizze eines Patienten mit Typ III kontralateralen Kontraktion: Patient #1 .....	61
Abbildung 21: Grafik zur Hypothese zur Erklärung der verschiedenen Inkontinenzrisiken bei einseitigem Beckenbodentrauma (40).....	63
Abbildung 22: Verbessertes SNS Protokoll.....	71

## **9.2 Tabellenverzeichnis**

Tabelle 1: Der Zusammenhang zwischen Plexus sacralis und den untersuchten Nervenbahnen (9).....	13
Tabelle 2: Übersicht über die Wingspread-Klassifikation der anorektalen Fehlbildungen (13) .....	14
Tabelle 3: Krickenbeck-Klassifikation anorektaler Fehlbildungen (14).....	14
Tabelle 4: Übersicht über die mit diagnostischer SNS versorgten Patienten .....	31
Tabelle 5: Übersicht über die an den Patienten durchgeführten Prozeduren und deren Indikationen .....	32

Tabelle 6: Ergebnisse der Stimulation von S3 .....	35
Tabelle 7: Ergebnisse der Stimulation von S4 .....	36
Tabelle 8: Übersicht über die individuellen Morphologien im Bereich des kleinen Beckens .....	38
Tabelle 9: Übersicht über die bei der Ermittlung der SR gemessenen Werte und die daraus errechneten SR. Die SR ermittelten wir anhand von MRT-Aufnahmen in der Frontalebene, um die Werte mit aus AP-Aufnahmen ermittelten SRs vergleichen zu können.....	40
Tabelle 10: Patientendarstellung mit Querübersicht aller wichtigen erhobenen Parameter .....	41
Tabelle 11: Patientenbefragung - Teiltabelle 1 .....	80
Tabelle 12: Patientenbefragung – Teiltabelle 2.....	81
Tabelle 13: Patientenbefragung - Teiltabelle 3 .....	83

## 10. Anhang

Patient #	Stuhlgang	Konsistenz	Spontan	Mekoniumabgang	Kontinenz	Stuhl	Harn	Familienanamnese
1	1 x tägl.	weich	1			0	0	1
2								
3	2–3x pro Woche	weich/geformt	1	2–3. Tag		1 J	0	0
4	5 x pro Woche	geformt	1	Tag 2–3	1	2,5 J		0
5	1 x pro Tag	weich/geformt	0		0	0	0	
6	1 x pro Tag	weich/geformt	0					
7	3 x pro Tag	alles	1	0–1. Tag	0	0	0	0
8								
9								
10	Tägl.	geformt	1		1	3 J	3 J	0
11								
12								
13								
14								
15	mehrmals am Tag	weich / geformt			0	0	0	0
16	mehrmals am Tag	weich	1		0	0	0	0
17	tägl.	geformt	1		0	0	0	0

Patient #	Stuhlgang	Konsistenz	Spontan	Mekoniumabgang	Kontinenz	Stuhl	Harn	Familienanamnese
18	3 x pro Tag	weich	1					
19	immer (Stoma)	flüssig / weich	0		0	0	0	0
20	3–4 mal tägl.	weich	1			0	1	
21								
22	3 x pro Tag	weich	0	> Tag 3	1	4J		0

Tabelle 11: Patientenbefragung - Teiltabelle 1

Patient #	Therapie	Präparat	Dosierung	Dauer	Biofeedback	Bougierung	Hegargröße	Dauer	Irrigation
1		Movicol	2 Beutel tägl.	2 Jahre	0	1	12	1/2 Jahr	0
2									
3					0	1	12	1/2 Jahr	0
4	0				0	1	15	2 Jahre	0
5	1	Movicol	1 Teelöffel/Tag	seit August 2011	0	0			
6	1	Movicol	3 x am Tag		0	0			0
7	0					ja	14	1 Jahr	0
8									
9									
Patient #	Therapie	Präparat	Dosierung	Dauer	Biofeedback	Bougierung	Hegargröße	Dauer	Irrigation

10									
11									
12									
13									
14									
15	1	Movicol	1–2 Beutel / Tag	seit Jan 12	0	1	14	ca. 1 Jahr	0
16	1	Movicol	2–3x am Tag	seit Anfang 2011	1	1	6–12,5	6 Mo- nate	1
17	0				0	1	12	ca. 2 Jahre	0
18	0								
19	0				Krankengym- nastik	1	8	1 x pro Woche	0
20					1				1
21									
22	0					Ja	12	6 Mo- nate	0

Tabelle 12: Patientenbefragung – Teiltabelle 2

Patient #	Krackenbeckscore	I. StuhlDrang	1.	2.	3.	4.	II. Einschmieren	III. Verstopfung
1			0	0	0	3	Grad III	0
2								
3			1	1	1	1	0	0
4			1	1		1	0	0
5			1	1	1	0	Grad I	Grad II
6			1	1	0	0		0
7			1	1	0	1	1	0
8								
9								
10			1	1	1	1	Grad I	0
11								
12								
13								
14								
15			0	0	0	0	Grad II	Grad II
16			1	1	1	0	Grad III	Grad I/II
17			1	1	0	1	0	0
18	keine Angaben gemacht							
19	Stomaträger!							

Patient #	Krickenbeckscore	I. StuhlDrang	1.	2.	3.	4.	II. Einschmieren	III. Verstopfung
20			1	1	1	1	Grad I	Grad II
21								
22			0	0	0	1	Grad I	0

Tabelle 13: Patientenbefragung - Teiltabelle 3

Tabellen 10–12 zeigen die aus der Patientenbefragung durch den im Abschnitt „8.3 Anamnesebogen Kinderproktologie“ abgebildeten Befragungsbogen erhobenen Daten. Die Spalten der Tabellen erklären sich im Zusammenhang mit diesem. Ansonsten erklären sich die Antworten wie folgt:

0 = nein; 1 = ja; leere Zelle = keine Antwort; J = Jahr

## **11. Publikationshinweise**

Die Ergebnisse der Studie wurden dem Fachpublikum in folgender Weise vorgestellt:

### **1. Freier Kongressvortrag:**

Haßelbeck C., Munt M., Reingruber B.: Neuroanatomical and physiological principles of sacral nerve stimulation in pediatric surgery

10th Danube Symposium Pediatric Surgery, Wien 26.-28. November 2010

### **2. Freier Kongressvortrag**

Haßelbeck C, Munt M, Duersch M, Reingruber B.: Crossover innervation in anal atresia.

XXIII International Symposium on Paediatric Surgical Research, Tokyo, Japan 12-14 September 2010.

### **3. Postervortrag:**

Haßelbeck C., Munt M., Reingruber B.: Sacral nerve stimulation in anorectal malformations – one step beyond intraoperative guidance

XXIII International Symposium on Paediatric Surgical Research, Tokyo, Japan 12-14 September 2010

### **4. Freier Kongressvortrag:**

Haßelbeck C., Blank B., Reingruber B.: Sakralnervenstimulation (SNS) bei der Analatresie: Machbarkeit und Logik einer SNS-gestützten Anorektoplastik

Süddeutsche Tage der Gesellschaft für Kinder- und Jugendmedizin, München 4.–6. Mai 2012

## **5. Originalarbeit zur diagnostischen Sakralnervenstimulation:**

Hasselbeck C., Reingruber B.: Sacral nerve stimulation is a valuable diagnostic tool in the management of anorectal and pelvic malformations.

Journal of Pediatric Surgery. 2012 Jul;47(7):1466–71.

(DOI: 10.1016/j.jpedsurg.2012.03.091)

## **6. Freier Kongressvortrag:**

C. Hasselbeck: Die Sakralnervenstimulation in der Nachsorge angeborener Fehlbildungen

89. Jahrestagung der Vereinigung der Bayerischen Chirurgen e.V., Regensburg 25.–27. Juli 2012

## **7. Postervortrag:**

B. Blank, C. Hasselbeck, M. Ebert, B. Reingruber: Gekreuztes Innervationsmuster der Sakralnerven bei anorektalen Malformationen (ARM) und M. Hirschsprung bei 4 von 17 untersuchten Kindern

89. Jahrestagung der Vereinigung der Bayerischen Chirurgen e.V., Regensburg 25.–27. Juli 2012

## **8. Freier Kongressvortrag:**

Hasselbeck C., Blank B., Ebert M., Reingruber B.: Diagnostic Sacral Nerve Stimulation (SNS) reveals 30 percent of crossover innervation or symmetrical sphincter innervation patterns in patients examined with anorectal malformations, bladder exstrophy and Hirschsprung's Disease

5. Dreiländertreffen Kinderchirurgie, Heidelberg 15.–16. März 2013

## **12. Literatur**

1. Aloysii Galvani. De viribus electricitatis in motu musculari., Commentarius. De Bononiensi Scientiarum et Artium Instituto atque Academia Commentarii 1971;(7):363–419.
2. Piccolino M. Animal electricity and the birth of electrophysiology: the legacy of Luigi Galvani. Brain Research Bulletin 1998;46(5):381–407.
3. Silbernagl S, Despopoulos A. Taschenatlas Physiologie. 8th ed. Stuttgart: Thieme; 2012. 455 S. ISBN: 978-3135677088.
4. Aumüller G. Anatomie, 208 Tabellen. Stuttgart: Thieme; 2007. XXVIII, 1344 S. (Duale Reihe). ISBN: 3-13-136041-0.
5. Schöni-Affolter F., Dubuis-Grieder C., Strauch E. Embryology.ch, Online Embryologiekurs für Studierende der Medizin Entwickelt von den Universitäten Fribourg, Lausanne und Bern (Schweiz) mit Unterstützung des Schweizerischen Virtuellen Campus. [Internet] [cited 2015 Jan 2]. Available from: <http://www.embryology.ch/allemand/turinary/urinbasse01.html>.
6. Rohen JW, Lütjen-Drecoll E. Funktionelle Embryologie, Die Entwicklung der Funktionssysteme des menschlichen Organismus ; mit 9 Tabellen. 2nd ed. Stuttgart, New York: Schattauer; 2004. XII, 164 S. ISBN: 3-7945-2285-0.
7. Fritsch H, Aigner F, Ludwikowski B, Reinstadler-Zankl S, Illig R, Urbas D, Schwarzer C, Longato S. Epithelial and muscular regionalization of the human developing anorectum. Anatomical record (Hoboken, N.J.: 2007) 2007;290(11):1449–58. eng.
8. Fritsch H, Zehm S, Illig R, Moser P, Aigner F. New insights into the development and differentiation of the human anorectal epithelia. Are there clinical consequences? International journal of colorectal disease 2010;25(10):1231–42. eng.
9. Hasselbeck C, Reingruber B. Sacral nerve stimulation is a valuable diagnostic tool in the management of anorectal and pelvic malformations. Journal of pediatric surgery 2012;47(7):1466–71. eng.
10. Benninghoff A, Drenckhahn D. Anatomie, Makroskopische Anatomie, Embryologie und Histologie des Menschen. 17th ed. München [u.a.]: Urban & Schwarzenberg; 2008. XI, 956 S. ISBN: 3437423428.

11. Sobotta J, Putz R. Anatomie des Menschen, Der komplette Atlas in einem Band: allgemeine Anatomie, Bewegungsapparat, innere Organe, Neuroanatomie ; [Online-Zugang + interaktive Extras]. 22nd ed. München, Jena: Elsevier, Urban und Fischer; 2007. 830 S. (Studentconsult). ISBN: 978-3-437-43591-1.
12. Schweinitz Dv. Kinderchirurgie, Viszerale und allgemeine Chirurgie des Kindesalters ; mit 160 Tabellen. 2nd ed. Berlin [u.a.]: Springer; 2013. XIII, 776 S. ISBN: 3642297781.
13. Ashcraft KW. Pediatric surgery. 3rd ed. Philadelphia: Saunders; ©2000. xviii, 1091. ISBN: 0721673120.
14. Holschneider A, Hutson J, Peña A, Beket E, Chatterjee S, Coran A, Davies M, Georgeson K, Grosfeld J, Gupta D, Iwai N, Kluth D, Martucciello G, Moore S, Rintala R, Smith ED, Sripathi DV, Stephens D, Sen S, Ure B, Grasshoff S, Boemers T, Murphy F, Söylet Y, Dübbers M, Kunst M. Preliminary report on the International Conference for the Development of Standards for the Treatment of Anorectal Malformations. *Journal of pediatric surgery* 2005;40(10):1521–6. eng.
15. Peña A, Devries PA. Posterior sagittal anorectoplasty: important technical considerations and new applications. *Journal of pediatric surgery* 1982;17(6):796–811. eng.
16. Arbeitsgemeinschaft der Wissenschaftlichen Medizinischen Fachgesellschaften e.V. Leitlinien der Deutschen Gesellschaft für Kinderchirurgie - Anorektale Fehlbildungen; 01.12.2013(006/002) [cited 2016 Jan 13]. Available from: <http://www.awmf.org/leitlinien/detail/II/006-002.html>.
17. Reutter H, Keppler-Noreuil K, E Keegan C, Thiele H, Yamada G, Ludwig M. Genetics of Bladder-Exstrophy-Epispadias Complex (BEEC): Systematic Elucidation of Mendelian and Multifactorial Phenotypes. *Current genomics* 2016;17(1):4–13. eng.
18. Urologische Klinik des Universitätsklinikum Heidelberg. Missbildungen der Harnblase und der vorderen Bauchwand, Blasenexstrophie. Universitätsklinikum Heidelberg; 10.06.2016. Available from: <https://www.klinikum.uni-heidelberg.de/Missbildungen-der-Harnblase-und-der-vorderen-Bauchwand.108326.0.html>.
19. Swenson O. A new surgical treatment for Hirschsprung's disease. *Surgery* 1950;28(2):371–83. eng.

20. Duhamel B. A new operation for the treatment of Hirschsprung's disease. Archives of disease in childhood 1960;35:38–9. eng.
21. REHBEIN F. Operative Behandlung der Hirschsprung'schen Krankheit [Operative therapy of Hirschsprung's disease]. Langenbecks Archiv für klinische Chirurgie ... vereinigt mit Deutsche Zeitschrift für Chirurgie 1953;276:540–3. und.
22. Soave F. A New Surgical Technique for Treatment of Hirschsprung's Disease. Surgery 1964;56:1007–14. eng.
23. Georgeson KE, Fuenfer MM, Hardin WD. Primary laparoscopic pull-through for Hirschsprung's disease in infants and children. Journal of pediatric surgery 1995;30(7):1017-21; discussion 1021-2. eng.
24. De la Torre-Mondragón, L, Ortega-Salgado JA. Transanal endorectal pull-through for Hirschsprung's disease. Journal of pediatric surgery 1998;33(8):1283–6. eng.
25. Arbeitsgemeinschaft der Wissenschaftlichen Medizinischen Fachgesellschaften e.V. Leitlinien der Deutschen Gesellschaft für Kinderchirurgie Morbus Hirschsprung; 30.04.2016(006/001) [cited 2016 Apr 30]. Available from: <http://www.awmf.org/leitlinien/detail/II/006-001.html>.
26. Hirose S, Farmer DL. Fetal surgery for sacrococcygeal teratoma. Clinics in perinatology 2003;30(3):493–506. eng.
27. Srivastava A, Jaiswal AK, Jain K, Behari S. Sacrococcygeal teratoma. Journal of pediatric neurosciences 2010;5(1):30–1. eng.
28. Santi M, Bulas D, Fasano R, Ponsky T, Sandler A, Richter E, Rushing EJ. Congenital ependymoblastoma arising in the sacrococcygeal soft tissue: a case study. Clinical neuropathology 2008;27(2):78–82. eng.
29. Aktuğ T, Hakgüder G, Sarioğlu S, Akgür FM, Olguner M, Pabuçcuoğlu U. Sacrococcygeal extraspinal ependymomas: the role of coccygectomy. Journal of pediatric surgery 2000;35(3):515–8. eng.
30. Radiologische Diagnostik Abdomen und Thorax, Bildinterpretation unter Berücksichtigung anatomischer Landmarken und klinischer Symptome. Stuttgart: Georg Thieme Verlag; 2015. 732 p. ISBN: 9783131729316.

31. Aigner F, Zbar AP, Ludwikowski B, Kreczy A, Kovacs P, Fritsch H. The rectogenital septum: morphology, function, and clinical relevance. *Diseases of the colon and rectum* 2004;47(2):131–40. eng.
32. Fritsch H. Developmental changes in the retrorectal region of the human fetus. *Anatomy and embryology* 1988;177(6):513–22. eng.
33. van der Putte, S C. Normal and abnormal development of the anorectum. *Journal of pediatric surgery* 1986;21(5):434–40. eng.
34. Wang W, Jia H, Zhang H, Chen Q, Zhang T, Bai Y, Yuan Z. Abnormal innervation patterns in the anorectum of ETU-induced fetal rats with anorectal malformations. *Neuroscience letters* 2011;495(2):88–92. eng.
35. Qi BQ, Beasley SW, Frizelle FA. Evidence that the notochord may be pivotal in the development of sacral and anorectal malformations. *Journal of pediatric surgery* 2003;38(9):1310–6. eng.
36. Zhang S, Bai Y, Zhang D, Zhang T, Zhang S, Wang D, Wang W. Embryonic development of the internal anal sphincter in rats with anorectal malformations. *Journal of pediatric surgery* 2010;45(11):2195–202. eng.
37. Reginelli A, Mandato Y, Cavaliere C, Pizza NL, Russo A, Cappabianca S, Brunese L, Rotondo A, Grassi R. Three-dimensional anal endosonography in depicting anal-canal anatomy. *La Radiologia medica* 2012;117(5):759–71. eng.
38. Hamdy S, Enck P, Aziz Q, Uengoergil S, Hobson A, Thompson DG. Laterality effects of human pudendal nerve stimulation on corticoanal pathways: evidence for functional asymmetry. *Gut* 1999;45(1):58–63. eng.
39. CORDIS - Community Research and Development Information Service. On asymmetry in sphincters: the role of functional asymmetry of sphincter innervation in incontinence.; 2002-01-01 to 204-12-31(QLK6-CT-2001-00218).
40. Enck P, Hinninghofen H, Wietek B, Becker HD. Functional asymmetry of pelvic floor innervation and its role in the pathogenesis of fecal incontinence. *Digestion* 2004;69(2):102–11. eng.
41. Enck P, Franz H, Azpiroz F, Fernandez-Fraga X, Hinninghofen H, Kaske-Bretag K, Bottin A, Martina S, Merletti R. Innervation zones of the external anal sphincter in

- healthy male and female subjects. Preliminary results. *Digestion* 2004;69(2):123–30. eng.
42. Enck P, Franz H, Davico E, Mastrangelo F, Mesin L, Merletti R. Repeatability of innervation zone identification in the external anal sphincter muscle. *Neurourology and urodynamics* 2010;29(3):449–57. eng.
  43. Mowatt G, Glazener C, Jarrett M. Sacral nerve stimulation for faecal incontinence and constipation in adults. *The Cochrane database of systematic reviews* 2007;(3):CD004464. eng.
  44. Jarrett, M E D, Mowatt G, Glazener, C M A, Fraser C, Nicholls RJ, Grant AM, Kamm MA. Systematic review of sacral nerve stimulation for faecal incontinence and constipation. *The British journal of surgery* 2004;91(12):1559–69. eng.
  45. Matzel KE, Kamm MA, Stösser M, Baeten, Cor G M I, Christiansen J, Madoff R, Mellgren A, Nicholls RJ, Rius J, Rosen H. Sacral spinal nerve stimulation for faecal incontinence: multicentre study. *Lancet (London, England)* 2004;363(9417):1270–6. eng.
  46. Guys JM, Haddad M, Planche D, Torre M, Louis-Borrione C, Breaud J. Sacral neuromodulation for neurogenic bladder dysfunction in children. *The Journal of urology* 2004;172(4 Pt 2):1673–6. eng.
  47. Matzel KE, Stadelmaier U, Hohenfellner M, Gall FP. Electrical stimulation of sacral spinal nerves for treatment of faecal incontinence. *Lancet (London, England)* 1995;346(8983):1124–7. eng.
  48. Thaha MA, Abukar AA, Thin NN, Ramsanahie A, Knowles CH. Sacral nerve stimulation for faecal incontinence and constipation in adults. *The Cochrane database of systematic reviews* 2015;(8):CD004464. eng.
  49. Matzel KE. Sacral nerve stimulation for fecal incontinence. What has been achieved (current status). *Acta chirurgica iugoslavica* 2010;57(3):67–72. eng.
  50. Abrams P. Incontinence, 4th International Consultation on Incontinence, Paris, July 5-8, 2008. 4th ed. [Paris]: Health Publications; 2009. 1870 p. ISBN: 0-9546956-8-2.
  51. Abrams P, Andersson KE, Birder L, Brubaker L, Cardozo L, Chapple C, Cottenden A, Davila W, Ridder D de, Dmochowski R, Drake M, Dubeau C, Fry C, Hanno P, Smith JH, Herschorn S, Hosker G, Kelleher C, Koelbl H, Khoury S, Madoff R, Milsom

- I, Moore K, Newman D, Nitti V, Norton C, Nygaard I, Payne C, Smith A, Staskin D, Tekgul S, Thuroff J, Tubaro A, Vodusek D, Wein A, Wyndaele JJ. Fourth International Consultation on Incontinence Recommendations of the International Scientific Committee: Evaluation and treatment of urinary incontinence, pelvic organ prolapse, and fecal incontinence. *Neurourology and urodynamics* 2010;29(1):213–40. eng.
52. Buchs NC, Dembe J, Robert-Yap J, Roche B, Fasel J. Optimizing electrode implantation in sacral nerve stimulation--an anatomical cadaver study controlled by a laparoscopic camera. *International journal of colorectal disease* 2008;23(1):85–91. eng.
53. Martellucci J. The technique of sacral nerve modulation. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* 2015;17(4):O88-94. eng.
54. Liu Y, Xu G, Luo M, Teng H. Effects of Transcutaneous Electrical Nerve Stimulation at Two Frequencies on Urinary Incontinence in Poststroke Patients: A Randomized Controlled Trial. *American journal of physical medicine & rehabilitation / Association of Academic Physiatrists* 2016;95(3):183–93. eng.
55. Lüllmann-Rauch R. *Taschenlehrbuch Histologie*. 2nd ed. Stuttgart [u.a.]: Thieme; 2006. XVII, 637 S. ISBN: 3-13-129242-3.
56. Medtronic. *Interstim Therapie, Teststimulationselektrodenset und Teststimulations-elektrode Gebrauchsanweisung*. Minneapolis, MN 55432-5604; 2011.
57. Peña A. Anorectal malformations. *Seminars in pediatric surgery* 1995;4(1):35–47. eng.
58. Hassett S, Snell S, Hughes-Thomas A, Holmes K. 10-year outcome of children born with anorectal malformation, treated by posterior sagittal anorectoplasty, assessed according to the Krickbeck classification. *Journal of pediatric surgery* 2009;44(2):399–403. eng.
59. Brazzelli M, Murray A, Fraser C. Efficacy and safety of sacral nerve stimulation for urinary urge incontinence: a systematic review. *The Journal of urology* 2006;175(3 Pt 1):835–41. eng.

60. Cracco AJ, Chadi SA, Rodrigues FG, Zutshi M, Gurland B, Wexner SD, DaSilva G. Outcomes of Sacral Neurostimulation Lead Reimplantation for Fecal Incontinence: A Cohort Study. *Diseases of the colon and rectum* 2016;59(1):48–53. ENG.
61. Gignoux A, Le Normand L, Labat J, Bouchot O, Rigaud J, Buzelin J. Etude sur l'efficacité et les complications à moyen terme de 41 implantations de neuromodulateur des racines sacrées (Interstim, Medtronic, U.S.A.) dans les troubles urinaires réfractaires [Study of the efficacy and medium-term complications of 41 sacral nerve neurostimulators (Interstim, Medtronic, U.S.A.) in refractory urinary disorders]. *Progress en urologie: journal de l'Association française d'urologie et de la Société française d'urologie* 2007;17(7):1355–61. fre.
62. El-Khawand D, Montgomery OC, Wehbe SA, Whitmore KE. Sacral nerve stimulation during pregnancy: case report and review of the literature. *Female pelvic medicine & reconstructive surgery* 2012;18(2):127–9. eng.
63. Marcelissen, Tom A T, Leong RK, Nieman, Fred H M, de Bie, Rob A, van Kerrebroeck, Philip E V, de Wachter, Stefan G G. The effect of pulse rate changes on the clinical outcome of sacral neuromodulation. *The Journal of urology* 2011;185(5):1781–5. eng.
64. Duelund-Jakobsen J, Buntzen S, Lundby L, Laurberg S. Sacral nerve stimulation at subsensory threshold does not compromise treatment efficacy: results from a randomized, blinded crossover study. *Annals of surgery* 2013;257(2):219–23. eng.
65. Torre M, Martucciello G, Jasonni V. Sacral development in anorectal malformations and in normal population. *Pediatric radiology* 2001;31(12):858–62. eng.
66. Warne SA, Godley ML, Owens CM, Wilcox DT. The validity of sacral ratios to identify sacral abnormalities. *BJU international* 2003;91(6):540–4. eng.
67. Macedo M, Martins JL, Freitas Filho, Luiz G. Sacral ratio and fecal continence in children with anorectal malformations. *BJU international* 2004;94(6):893–4. eng.
68. Ochi T, Okazaki T, Miyano G, Lane GJ, Yamataka A. A comparison of clinical protocols for assessing postoperative fecal continence in anorectal malformation. *Pediatric surgery international* 2012;28(1):1–4. eng.

69. Collins B, Norton C, Maeda Y. Percutaneous tibial nerve stimulation for slow transit constipation: a pilot study. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* 2012;14(4):e165-70. eng.
70. Hotouras A, Thaha MA, Boyle DJ, Allison ME, Currie A, Knowles CH, Chan, C L H. Short-term outcome following percutaneous tibial nerve stimulation for faecal incontinence: a single-centre prospective study. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* 2012;14(9):1101–5. eng.
71. Horrocks EJ, Bremner SA, Stevens N, Norton C, Gilbert D, O'Connell PR, Eldridge S, Knowles CH. Double-blind randomised controlled trial of percutaneous tibial nerve stimulation versus sham electrical stimulation in the treatment of faecal incontinence: CONtrol of Faecal Incontinence using Distal NeuromodulaTion (the CONFIDeNT trial). *Health technology assessment (Winchester, England)* 2015;19(77):1–164. eng.
72. Gokyildiz S, Kizilkaya Beji N, Yalcin O, Istek A. Effects of percutaneous tibial nerve stimulation therapy on chronic pelvic pain. *Gynecologic and obstetric investigation* 2012;73(2):99–105. eng.
73. Govaert B, Pares D, Delgado-Aros S, La Torre F, Van Gemert, W G, Baeten CG. A prospective multicentre study to investigate percutaneous tibial nerve stimulation for the treatment of faecal incontinence. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* 2010;12(12):1236–41. eng.
74. Istek A, Gungor Ugurlucan F, Yasa C, Gokyildiz S, Yalcin O. Randomized trial of long-term effects of percutaneous tibial nerve stimulation on chronic pelvic pain. *Archives of gynecology and obstetrics* 2014;290(2):291–8. eng.
75. Biemans, Johanna M A E, van Balken, Michael R. Efficacy and effectiveness of percutaneous tibial nerve stimulation in the treatment of pelvic organ disorders: a systematic review. *Neuromodulation: journal of the International Neuromodulation Society* 2013;16(1):25-33; discussion 33. eng.
76. Koch, S M P, Van Gemert, W G, Baeten, C G M I. Determination of therapeutic threshold in sacral nerve modulation for faecal incontinence. *The British journal of surgery* 2005;92(1):83–7. eng.

77. Dudding TC, Parés D, Vaizey CJ, Kamm MA. Predictive factors for successful sacral nerve stimulation in the treatment of faecal incontinence: a 10-year cohort analysis. *Colorectal disease: the official journal of the Association of Coloproctology of Great Britain and Ireland* 2008;10(3):249–56. eng.
78. Périé S, Aït-Mansour A, Devos M, Sonji G, Baujat B, St Guily, J L. Value of recurrent laryngeal nerve monitoring in the operative strategy during total thyroidectomy and parathyroidectomy. *European annals of otorhinolaryngology, head and neck diseases* 2013;130(3):131–6. eng.
79. Kneist W, Kauff DW, Naumann G, Lang H. Resection rectopexy--laparoscopic neuromapping reveals neurogenic pathways to the lower segment of the rectum: preliminary results. *Langenbeck's archives of surgery / Deutsche Gesellschaft für Chirurgie* 2013;398(4):565–70. eng.
80. Kumar, G Samson Sujit, Rajshekhar V, Babu KS. Intraoperative mapping of sacral nervous system (S2-4). *British journal of neurosurgery* 2006;20(6):396–402. eng.
81. Wietek BM, Hinninghofen H, Jehle EC, Enck P, Franz HB. Asymmetric sphincter innervation is associated with fecal incontinence after anal sphincter trauma during childbirth. *Neurourology and urodynamics* 2007;26(1):134–9. eng.
82. Merletti R, Bottin A, Cescon C, Farina D, Gazzoni M, Martina S, Mesin L, Pozzo M, Rainoldi A, Enck P. Multichannel surface EMG for the non-invasive assessment of the anal sphincter muscle. *Digestion* 2004;69(2):112–22. eng.
83. Bader FG, Bouchard R, Keller R, Mirow L, Czymek R, Habermann JK, Fritsch H, Bruch H, Roblick UJ. Fortschritte in der Diagnostik anorektaler Erkrankungen. Teil I: Anatomische Grundlagen sowie klinische und neurologische Verfahren [Progress in diagnostics of anorectal disorders. Part I: anatomic background and clinical and neurologic procedures]. *Der Chirurg; Zeitschrift für alle Gebiete der operativen Medizin* 2008;79(5):401–9. ger.

## **13. Erklärungen**

### **13.1 Ehrenwörtliche Erklärung**

Ich, Beate Blank, erkläre hiermit, dass ich die vorliegende Arbeit ohne unzulässige Hilfe Dritter und ohne Benutzung anderer als der angegebenen Hilfsmittel angefertigt habe. Die aus anderen Quellen direkt oder indirekt übernommenen Daten und Konzepte sind unter Angabe der Quellen gekennzeichnet. Insbesondere habe ich nicht die entgeltliche Hilfe von Vermittlungs- bzw. Beratungsdiensten (Promotionsberater oder anderer Personen) in Anspruch genommen. Niemand hat von mir unmittelbar oder mittelbar geldwerte Leistungen für Arbeit erhalten, die im Zusammenhang mit dem Inhalt der vorgelegten Dissertation stehen. Die Arbeit wurde bisher weder im In- noch im Ausland in gleicher oder ähnlicher Form einer anderen Prüfungsbehörde vorgelegt.

---

Ort, Datum

Beate Blank

## **13.2 Erklärung zu Anregung und Überwachung der Dissertation**

Ich, Beate Blank, erkläre hiermit, dass Herr Dr. med. Bertram Reingruber die vorliegende Dissertation angeregt und überwacht hat.

---

Ort, Datum

Beate Blank

## **14. Lebenslauf**

### **Persönliche Angaben**

Name: Beate Blank

Geburtsdatum: 05.08.1989

Geburtsort: Forchheim

### **Schulbildung und Studium**

1995 – 1999 Grundschule Höchststadt an der Aisch

1999 – 2006 Gymnasium Höchststadt an der Aisch

2006 – 2008 Maria-Ward-Gymnasium, Bamberg

Schulabschluss mit der Allgemeinen Hochschulreife

10/2008 – 11/2014 Studium der Humanmedizin an der Universität Regensburg

1. Abschnitt der Ärztlichen Prüfung: Herbst 2010

2. Abschnitt der Ärztlichen Prüfung: Herbst 2014

12/2010 – 2016 Promotion am Lehrstuhl für Chirurgie der Universität Regensburg

Klinik für Kinderchirurgie

## Praktisches Jahr

08/2013 – 11/2013 Plastische Chirurgie – Wahlfach

St. Josef Caritas Krankenhaus Regensburg

11/2013 – 01/2014 Allgemein Chirurgie

St. John's Medical College, Bangalore, Indien

01/2014 – 03/2014 Allgemein Chirurgie

Universitätsklinikum Regensburg

03/2014 – 07/2014 Innere Medizin

Kantonsspital Luzern, Schweiz

Dezember 2014: Abschluss des Medizinstudiums an der Universität Regensburg sowie Approbation als Ärztin.

## **Berufstätigkeit:**

Seit 03/2015 Assistenzärztin der Klinik für Plastische, Wiederherstellende und Handchirurgie, Zentrum für Schwerbrandverletzte. Universitätsklinik der Paracelsus Medizinischen Privatuniversität, Klinikum Nürnberg Süd.

Prof. Dr. med. Bert Reichert

08/2016 – 01/2017 Assistenzärztin der Klinik für Plastische und Handchirurgie in Rotation, Universitätsklinikum der Friedrich Alexander Universität, Erlangen

Prof. Dr. med. Raymund Horch

