
Faktor Risiko yang Mempengaruhi Luaran Klinis Malformasi Anorektal pada Neonatus di RSUD Dr. Zainoel Abidin, Banda Aceh

Dora Darussalam, TM Thaib

Departemen Ilmu Kesehatan Anak, Fakultas Kedokteran Universitas Syiah Kuala/ RSUD Dr.Zainoel Abidin, Banda Aceh

Latar belakang. Malformasi anorektal merupakan salah satu masalah dan penyebab kematian pada neonatus di ruang NICU RSU Dr Zainoel Abidin Banda Aceh.

Tujuan. Mengetahui faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus dengan malformasi anorektal di RSUD Dr.Zainoel Abidin, Banda Aceh.

Metode. Studi *cross sectional* dengan penelusuran rekam medis di Departemen Ilmu Kesehatan Anak RSUD Dr. Zainoel Abidin, Banda Aceh sejak bulan Januari 2009-Desember 2011. Pengaruh variabel faktor risiko dengan luaran malformasi anorektal dianalisis dengan uji multivariat regresi logistik. Batas kemaknaan apabila $p < 0,05$ dengan interval kepercayaan 95%.

Hasil. Malformasi anorektal letak intermedial mempunyai peluang 0,148 kali lebih kecil memengaruhi luaran klinis pada neonatus ($p=0,024$, $RP=0,148$, 95% $CI=0,04-0,62$). Sembilan kasus (19,6%) malformasi anorektal yang berhubungan dengan satu atau lebih anomali atau sindrom. Hasil analisis multivariat regresi logistik diperoleh hasil bahwa malformasi anorektal letak tinggi berhubungan bermakna dan mempunyai peluang 24 kali lebih besar dibandingkan malformasi anorektal letak intermedial yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus ($p=0,021$, $RP=24,0$; 95% $CI=1\ 615-356\ 635$).

Kesimpulan. Malformasi anorektal letak tinggi merupakan faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus. **Sari Pediatri** 2013;15(1):51-5.

Kata kunci: malformasi anorektal, neonatus

Malformasi anorektal (MAR) merupakan kompleks kelompok anomali kongenital akibat perkembangan hindgut, allantois, dan duktus Mullerian yang

tidak normal sehingga menyebabkan malformasi septum urorektal parsial atau lengkap.¹ Insiden malformasi anorektal 1:5000 kelahiran hidup. Banyak dari anomali berhubungan dengan kelainan kongenital lainnya merupakan hal yang serius dan menyebabkan kematian pada neonatus dengan malformasi anorektal. Usia gestasi, berat lahir, waktu operasi, penyakit penyerta kongenital lainnya, jenis kelamin, serta klasifikasi penyakit merupakan faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus dengan malformasi anorektal.^{2,3}

Alamat korespondensi:

Dr. Dora Darussalam, Sp.A. Divisi Neonatologi. Departemen Ilmu Kesehatan Anak FK UNSYIAH-RSUD Dr. Zainoel Abidin. Jl. Daud Beureueh no.108 Banda Aceh. Telp. (0651) 7122798. Fax: (0651) 7122798. E-mail: dora_darussalam@yahoo.co.id

Tujuan penelitian untuk mengetahui faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus dengan malformasi anorektal di ruang NICU RSUD Dr. Zainoel Abidin Banda Aceh.

Metode

Desain penelitian rancangan *cross sectional*, dilakukan selama periode bulan Januari 2009 sampai Desember 2011 di ruang *Neonatal Intensive Care Unit* (NICU) RSUD Dr. Zainoel Abidin, Banda Aceh. Subyek diambil dari rekam medis pasien malformasi anorektal yang dirawat inap di Bagian Ilmu Kesehatan Anak RSUD Dr. Zainoel Abidin, Banda Aceh. Data yang dicatat adalah semua pasien malformasi anorektal yang memenuhi kriteria inklusi dan dipilih secara *consecutive sampling*. Kriteria inklusi adalah semua pasien malformasi anorektal yang memenuhi kriteria diagnosis. Diagnosis malformasi anorektal ditegakkan berdasarkan anamnesis yaitu tidak adanya mekonium yang keluar, perut kembung, serta ada mekonium yang keluar dari vagina atau ureter. Pada pemeriksaan fisik tidak tampak lubang anus, dijumpai ada atau tidaknya fistel, serta distensi abdomen. Pemeriksaan penunjang dengan foto *cross table* lateral abdomen didapatkan udara diujung distal rektum. Kriteria eksklusi adalah data yang tidak lengkap, belum dioperasi, kelainan kongenital saraf. Luaran klinis yang dinilai adalah meninggal dan hidup. Data yang dicatat usia saat ditemukan kelainan malformasi anorektal, jenis kelamin, berat badan lahir, usia gestasi, waktu operasi, klasifikasi penyakit, foto polos abdomen, foto *cross table* lateral abdomen, ekokardiografi, serta jenis operasi. Besar sampel dihitung dengan tingkat kemaknaan α 5% dan *power* 80%. Nilai RP sebesar 2. Analisis bivariat diuji dengan *Chi square* (X^2), sekaligus dihitung nilai rasio prevalens (RP), serta interval kepercayaannya. Variabel faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus dengan malformasi anorektal, dianalisis dengan uji multivariat regresi logistik. Batas kemaknaan adalah apabila $p < 0,05$ dengan interval kepercayaan 95%. Data diolah dengan program SPSS *for Window* 16.0.

Hasil

Selama periode 1 Januari 2009 sampai 31 Desember 2011, ditemukan 49 neonatus dengan malformasi

anorektal dan 46 pasien yang memenuhi kriteria penelitian. Tiga orang tidak diikutsertakan karena rekam medis pasien tidak lengkap dan belum dioperasi.

Tabel 1 memperlihatkan 46 neonatus yang menderita malformasi anorektal, terdiri dari 80,4% bayi laki-laki, dan 19,6% bayi perempuan. Pasien malformasi anorektal yang meninggal dijumpai 23,9% kasus, dan 76,1% kasus yang hidup. Pada analisis statistik, variabel faktor risiko menggunakan uji statistik Pearson *Chi-square*, sedangkan variabel lainnya menggunakan uji Fisher's. Malformasi anorektal letak intermedial mempunyai peluang 0,148 kali memengaruhi luaran klinis pada neonatus ($p=0,024$, $RP=0.148$, 95% $CI=0,04-0,62$) (Tabel 2).

Tabel 1. Karakteristik subjek penelitian

Karakteristik	Jumlah	%
Umur responden dalam hari		
<72 jam	41	89,1
≥ 72 jam	5	10,9
Jenis kelamin		
Laki-laki	37	80,4
Perempuan	9	19,6
Usia gestasi (minggu)		
<37	6	13,0
≥ 37	40	87,0
Berat lahir (gram)		
<2500	6	13,0
≥ 2500	40	87,0
Waktu operasi (hari)		
1-3	36	78,3
≥ 3	10	21,0
Ada penyakit kongenital lainnya		
Tidak ada	37	80,4
Ada	9	19,6
Cara lahir		
Spontan	42	91,3
Bedah kaisar	4	8,7
Klasifikasi penyakit		
Letak rendah	18	39,1
Letak intermedial	4	8,7
Letak tinggi	24	52,2
Luaran klinis		
Hidup	35	76,1
Meninggal	11	23,9

Tabel 2. Karakteristik pasien malformasi anorektal berdasarkan luaran klinis

Karakteristik	Meninggal	Hidup	RP	CI 95%	P
Umur responden (% , hari)					
<72 jam	9 (22,0)	32 (78,0)	0,549	0,162-1 857	0,580
≥72 jam	2 (40)	3 (60)			
Jenis kelamin (%)					
Laki-laki	9 (24,3)	28 (75,7)	1 095	0,284-4 214	1 000
Perempuan	2 (22,2)	7 (77,8)			
Usia gestasi (% , minggu)					
<37	2 (33,3)	4 (66,7)	1 481	0,416-5 272	0,619
≥37	9 (22,5)	31 (77,5)			
waktu operasi (% , hari)					
1-3	9 (25,0)	27 (75,0)	1 250	0,320-4 883	1 000
≥3	2 (20,0)	8 (80,0)			
Ada penyakit kongenital lainnya (%)					
Tidak ada	8 (21,6)	29 (78,4)	0,649	0,214-1 966	0,664
Ada	3 (33,3)	6 (66,7)			
Cara lahir (%)					
Spontan	10 (23,8)	32 (76,2)	0,952	0,160-5 656	1 000
Bedah kaisar	1 (25)	3 (75)			
Berat lahir (% , gram)					
<2500	2 (33,3)	4 (66,7)	1 481	0,416-5 272	0,619
≥2500	9 (22,5)	31 (77,5)			
Klasifikasi penyakit (%)					
Letak rendah	2 (11,1)	16 (88,9)			
Letak intermediat	3 (75,0)	1 (25,0)	0,148	0,04 – 0,62	0,024
Letak tinggi	6 (25,0)	18 (75,0)	3 000	1,23 -7,34	0,084

Tabel 3. Karakteristik pasien yang berhubungan dengan sindrom/anomali lainnya

Anomali/sindrom yang berhubungan	Jenis kelamin
Katarak kongenital, ambiguous genitalia	Laki-laki
ASD	Laki-laki
Atresia esofagus dengan fistel trakeoesofageal	Laki-laki
PDA	Laki-laki
Sindrom Down	Perempuan
ASD, PDA, Sindrom Down	Laki-laki
Labiopalatoschizis	Laki-laki
Single kidney dekstra	Laki-laki
Sindrom Down	Laki-laki

Umur, jenis kelamin, usia gestasi, berat lahir, waktu operasi, cara lahir, serta penyakit kongenital lain tidak berhubungan bermakna dengan luaran klinis malformasi anorektal pada neonatus. Sembilan kasus (19,6%) malformasi anorektal yang berhubungan dengan satu atau lebih anomali atau sindrom (Tabel 3). Berdasarkan analisis multivariat regresi logistik diperoleh hasil bahwa malformasi anorektal letak tinggi berhubungan bermakna dan mempunyai peluang 24 kali lebih besar dibandingkan malformasi anorektal letak intermediat yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus (p=0,021, RP=24,0; 95% CI=1 615-356 635). (Tabel 4).

Tabel 4. Faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus dengan malformasi anorektal

Faktor	B	S.E.	Wald	df	Exp(B)	95,0% CI	p
Step 1 ^a Klasifikasi letak rendah			5,330	2			0,070
Letak tinggi	3 178	1 377	5 327	1	24 000	1 615-356 635	0,021
Letak intermediat	2 197	1 247	3 104	1	9 000	0,781-103 724	0,078

Pembahasan

Klasifikasi malformasi anorektal dibagi atas 3 jenis, yaitu letak tinggi apabila rektum berakhir di atas muskulus levator ani, letak intermediat apabila akhiran rektum terletak di muskulus levator ani, serta letak rendah apabila akhiran rektum berakhir di bawah muskulus levator ani.⁴ Pada penelitian kami ditunjukkan bayi laki-laki yang menderita malformasi anorektal lebih banyak dibandingkan bayi perempuan. Hal tersebut sesuai dengan penelitian Hassink dkk,⁵ bahwa bayi laki-laki yang menderita malformasi anorektal didapatkan hasil 53%. Kumar dkk,⁶ juga mendapatkan 73% kasus malformasi anorektal pada bayi laki-laki.

Malformasi anorektal sering disertai dengan kelainan bawaan lainnya. Penelitian Cuschieri dkk⁷ mendapatkan 181 kasus (10%) malformasi anorektal berhubungan dengan VACTERL (*Vertebrae, Anorectal, Cardiovascular, Tracheoesophageal, Renal and Limb abnormality*). Mirza dkk⁸ mendapatkan 28% malformasi anorektal yang berhubungan dengan kelainan kongenital lainnya, 11% kasus meninggal. Penelitian Cho dkk⁹ mendapatkan 71% dari 103 pasien malformasi anorektal berhubungan dengan anomali lainnya. Chirdan dkk¹⁰ melaporkan 12 (19,7%) kasus meninggal disebabkan infeksi pasca operasi. Peneliti mendapatkan 19,6% kasus disertai dengan kelainan kongenital lainnya, 3 (6,5%) kasus meninggal, yaitu pada nomor 1, 3, serta 4 (Tabel 3). Endo dkk¹¹ mendapatkan 26% malformasi anorektal letak tinggi, 11% letak intermediat, 57% letak rendah, dibandingkan penelitian kami mendapatkan 39,1% letak rendah, 8,7% letak intermediat, serta 2,2% letak tinggi. Penelitian kami tercatat 11 (23,9%) meninggal, 6 kasus di antaranya adalah letak tinggi.

Pada penelitian kami, malformasi anorektal letak tinggi merupakan faktor risiko yang memengaruhi luaran klinis pada neonatus. Penelitian Rintala¹² menemukan pasien dengan malformasi letak tinggi, intermediat mempunyai risiko kematian 3 kali dibandingkan dengan letak rendah dan juga berhubungan dengan penyakit kongenital lainnya.

Diagnosis yang terlambat menyebabkan waktu operasi juga terlambat sehingga sering mengakibatkan kematian pada pasien dengan malformasi anorektal.³ Pada penelitian kami, waktu operasi yang menyebabkan kematian didapatkan 25% kasus malformasi anorektal pada usia 1-3 hari, dan 20% kasus malformasi anorektal pada usia ≥ 3 hari. Waktu

operasi tidak berhubungan bermakna dengan luaran klinis pada neonatus dengan malformasi anorektal. Penelitian Lindley dkk³ mendapatkan 42% diagnosis malformasi anorektal yang terlambat (usia 2-16 hari) sehingga meningkatnya komplikasi yang serius dan mengakibatkan kematian.

Kesimpulan

Malformasi anorektal letak tinggi merupakan faktor risiko yang mempengaruhi luaran klinis pada neonatus. Perlu dilakukan penelitian lebih lanjut dengan jumlah subyek lebih besar serta mengikutsertakan variabel lain yang belum diteliti untuk memperoleh hasil yang lebih akurat.

Daftar pustaka

1. Moore SW. Genetics, pathogenesis and epidemiology of anorectal malformations and caudal regression syndrome. Dalam: Holschneider AM, Hutson JM, penyunting. Anorectal malformation in children embryology, diagnosis, surgical treatment, follow up. Berlin: Springer-verlag;2006. h. 31-42.
2. Chalapathi G, Chowdhary SK, Rao KLN, Samujh R, Narasimhan KL, Mahajan JK, dkk. Risk factor in the primary management of anorectal malformations northern India. *Pediatr Surg Int* 2004;20:408-11.
3. Lindley, R. M., Shawis, R. N. and Roberts, J. P. Delays in the diagnosis of anorectal malformations are common and significantly increase serious early complications. *Acta Paediatr* 2006; 95: 364-68.
4. Murphy F, Puri P, Hutson JM, Holschneider AM. Incidence and frequency of different types and classification of anorectal malformation. Dalam: Holschneider AM, Hutson JM, penyunting. Anorectal malformation in children embryology, diagnosis, surgical treatment, follow up. Edisi. Berlin: Springer-verlag;2006. h.163-84.
5. Hassink EA, Rieu PN, Hamel BC, Severijnen RS, vd Staak FH, Festen C. Additional congenital defects in anorectal malformations. *Eur J Pediatr* 1996;155:477-82.
6. Kumar A, Agarwala S, Srinivas M, Bajpai M, Bhatnagar V, Gupta DK, dkk. Anorectal malformations and their impact and survival. *J Indian Pediatr* 2005;72:1039-42.
7. Cuschieri A, EUROCAT Working Group. Anorectal

- anomalies associated with or as part of other anomalies. *Am J Med Genet* 2002;110:122–30.
8. Mirza B, Ijaz L, Saleem M, Sharif M, Sheikh A. Anorectal malformations in neonates. *Afr J Paediatr Surg* 2011;8:151- 54.
 9. Cho S, Moore SP, Fangman T. One hundred three consecutive patients with anorectal malformations and their associated anomalies. *Arch Pediatr Adolesc Med* 2001;155:587-91.
 10. Chirdan LB, Uba FA, Ameh EA, Mshelbwala PM. Colostomy for high anorectal malformation: an evaluation of morbidity and mortality in a developing country. *Pediatr Surg Int* 2008;24:407-10.
 11. Endo M, Hayashi A, Ishihara M, Maie M, Nagasaki A, Nishi T, dkk. Analysis of 1992 patients with anorectal malformations over the past two decades in Japan. *J Pediatr Surg* 1999;34:435-41.
 12. Rintala RJ. Result following treatment of anorectal malformations. Dalam: Holschneider AM, Hutson JM, penyunting. *Anorectal malformation in children embryology, diagnosis, surgical treatment, follow up.* Berlin: Springer-verlag; 2006. h. 361-73.