

HUBUNGAN TIPE MALFORMASI ANOREKTAL, KELAINAN KONGENITAL PENYERTA, SEPSIS, DAN PREMATURITAS DENGAN MORTALITAS PASIEN MALFORMASI ANOREKTAL

Studi Pendahuluan pada Pasien Malformasi Anorektal yang Dirawat di RSUP Dr. Mohammad Hoesin Palembang Periode 2015-2017

Bima Indra¹, Shalita Dastamuar², Rachmat Hidayat³

¹Program Studi Pendidikan Dokter, Fakultas Kedokteran, Universitas Sriwijaya

²Departemen Bedah, Fakultas Kedokteran, Universitas Sriwijaya

³Bagian Farmakologi, Fakultas Kedokteran, Universitas Sriwijaya

Jl. Dr. Mohammad Ali Komplek RSMH Palembang Km. 3,5, Palembang, 30126, Indonesia

E-mail: bimaindra26@gmail.com

Abstrak

Malformasi anorektal merupakan spektrum luas dari kelainan pembentukan anus dan rektum mulai dari stenosis hingga agenesis anorektal. Kejadian mortalitas pada kasus malformasi anorektal dipengaruhi oleh banyak faktor, antara lain tipe malformasi anorektal, kelainan kongenital penyerta, sepsis, dan prematuritas seperti yang diinvestigasi pada studi ini. Penelitian ini sendiri bertujuan untuk mengidentifikasi hubungan antara tipe malformasi anorektal, kelainan kongenital penyerta, sepsis, dan prematuritas dengan mortalitas pasien malformasi anorektal. Penelitian ini merupakan penelitian observasional analitik dengan desain studi *cross sectional*. Pengumpulan data sekunder diperoleh dari delapan puluh dua rekam medik pasien malformasi anorektal di RSUP Dr. Mohammad Hoesin Palembang periode Januari 2015 hingga Juni 2017 yang memenuhi kriteria inklusi. Dari delapan puluh dua kasus malformasi anorektal, didapatkan sembilan belas kasus mengalami mortalitas (23,2%). Dari empat faktor risiko yang diteliti, didapatkan dua faktor risiko yang berpengaruh signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal, yaitu tipe malformasi anorektal (p value = 0,036) dan sepsis (p value = 0,049). Faktor-faktor yang memiliki hubungan signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal yaitu tipe malformasi anorektal dan sepsis, sedangkan kelainan kongenital penyerta dan prematuritas tidak berpengaruh terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal.

Kata kunci: *Malformasi anorektal, kelainan kongenital, sepsis, prematuritas*

Abstract

Anorectal malformations are a broad spectrum of anal and rectal disorders ranging from stenosis to anorectal agenesis. The incidence of mortality in cases of anorectal malformations is influenced by many factors, including the type of anorectal malformation, associated congenital anomalies, sepsis, and prematurity as investigated in this study. This study aims to identify the association between anorectal malformation type, associated congenital anomalies, sepsis, and prematurity with mortality on anorectal malformation patient. This research is an observational analytic study with cross sectional study design. Secondary data collection was obtained from eighty-two medical records of anorectal malformation patients in Dr. Mohammad Hoesin Hospital Palembang from January 2015 to June 2017 that meets the inclusion criteria. Of the eighty-two cases of anorectal malformations, nineteen cases of mortality (23.2%) were obtained. Of the four risk factors studied, two risk factors were found to significantly affect the mortality of anorectal malformation patients, they are anorectal malformation type (p value = 0.036) and sepsis (p value = 0.049). Factors that have significant correlation to mortality of patients with anorectal malformations are the type of anorectal malformations and sepsis, whereas associated congenital anomalies and prematurity have no effect on the mortality of patients with anorectal malformations.

Keywords: *Anorectal malformation, congenital anomalies, sepsis, prematurity*

1. Pendahuluan

Malformasi anorektal merupakan spektrum luas dari kelainan pembentukan anus dan rektum mulai dari stenosis hingga agenesis anorektal. Insidensi kejadian ini di seluruh dunia 1 per 5000 kelahiran hidup walaupun pada beberapa wilayah tertentu ditemui lebih banyak. Penyebabnya belum diketahui, tetapi beberapa penderita memiliki predisposisi genetik malformasi anorektal pada generasi sebelumnya.¹ Menurut Zwink (2011), berat badan berlebih pada ibu, kebiasaan merokok ayah maupun ibu, dan diabetes pada ibu merupakan faktor risiko potensial pada malformasi anorektal.²

Faktor-faktor yang berhubungan dengan adanya kelainan kongenital penyerta pada pasien malformasi anorektal sampai saat ini masih belum diketahui. Beberapa literatur menyebutkan ada hubungan jenis kelamin dan tipe malformasi anorektal dengan adanya kelainan kongenital penyerta. Pasien laki-laki cenderung memiliki kelainan kongenital penyerta daripada perempuan.³ Pasien dengan malformasi anorektal letak tinggi juga cenderung memiliki kelainan kongenital penyerta daripada pasien dengan malformasi anorektal letak intermediet dan letak rendah.⁴ Prematuritas dan berat badan lahir masih belum jelas hubungannya dengan adanya kelainan kongenital penyerta pada pasien malformasi anorektal. Namun, anomali VACTERL biasanya cenderung menyebabkan bayi lahir prematur dan berat badan lahir rendah.⁵

Mortalitas pada pasien malformasi anorektal jarang disebabkan oleh malformasi anorektal itu sendiri, tetapi ada beberapa faktor yang memengaruhi mortalitas pasien malformasi anorektal. Pasien dengan tipe malformasi anorektal letak tinggi angka bertahan hidupnya lebih rendah dibanding pasien malformasi anorektal letak rendah yaitu 81,9% berbanding 93,8%, akan tetapi perbedaan tersebut tidak signifikan.⁶ Tipe

malformasi anorektal juga memiliki hubungan dengan adanya kelainan kongenital penyerta. Mortalitas pasien malformasi anorektal letak tinggi lebih tinggi daripada letak rendah oleh karena kecenderungan munculnya kelainan penyerta lebih tinggi pada letak tinggi.⁷ Pada tipe malformasi anorektal letak tinggi insidensi kelainan kongenital penyerta lebih tinggi daripada letak intermediet dan letak rendah. Kelainan kongenital penyerta ditemukan pada 50,88% pasien malformasi anorektal letak tinggi, 19,30% pada pasien malformasi anorektal letak intermediet, dan 29,82% pada pasien malformasi anorektal letak rendah.⁸ Pasien malformasi anorektal yang memiliki kelainan kongenital penyerta akan meningkatkan risiko kematiannya dan adanya kelainan kongenital penyerta berhubungan signifikan dengan mortalitas pasien malformasi anorektal.⁹ Sepsis juga merupakan faktor yang mempengaruhi mortalitas pasien malformasi anorektal. Menurut Ademuyiwa (2009), operasi berulang, perdarahan setelah operasi, dan sepsis merupakan faktor yang mempengaruhi mortalitas pasien malformasi anorektal.¹⁰

Identifikasi faktor-faktor risiko mortalitas pada pasien malformasi anorektal sangat penting untuk mencegah terjadinya mortalitas pada pasien malformasi anorektal. Hingga saat ini, penelitian tentang hubungan tipe malformasi anorektal, kelainan kongenital penyerta, sepsis, dan prematuritas dengan mortalitas pasien malformasi anorektal masih sedikit sehingga dibutuhkan penelitian ini untuk mengetahui hubungan tipe malformasi anorektal, kelainan kongenital penyerta, sepsis, dan prematuritas dengan mortalitas pasien malformasi anorektal, khususnya di RSUP dr. Mohammad Hoesin Palembang.

2. Metode Penelitian

Penelitian ini adalah penelitian observasional analitik dengan desain *comparative cross sectional* untuk mengetahui hubungan antar tipe malformasi anorektal, kelainan kongenital penyerta, sepsis, dan prematuritas dengan mortalitas pasien malformasi anorektal. Penelitian dilakukan pada bulan September sampai November 2017 di Bagian Rekam Medik RSUP dr. Mohammad Hoesin Palembang.

Sampel penelitian ini adalah semua rekam medik pasien malformasi anorektal usia < 28 hari di RSUP dr. Mohammad Hoesin Palembang periode Januari 2015-Juli 2017. Besar sampel penelitian ini adalah 82 sampel. Kriteria inklusi sampel dalam penelitian ini adalah neonatus dengan malformasi anorektal, usia kurang dari 28 hari. Kriteria eksklusi dalam penelitian ini adalah pasien dengan data tipe malformasi anorektal dan usia gestasi yang tidak lengkap.

Analisis data dilakukan dengan menggunakan program *Statistical Package for Social Science* (SPSS) versi 24.0 for Windows. Analisis univariat dilakukan untuk memperoleh gambaran distribusi frekuensi masing-masing variabel yang diteliti. Analisis bivariat dalam penelitian ini bertujuan untuk mengetahui hubungan antara suatu faktor risiko dan kejadian mortalitas pasien malformasi anorektal. Pada penelitian ini, uji statistik bivariat yang digunakan adalah uji *Chi-square*. Analisis multivariat menggunakan uji regresi logistik dilakukan untuk mengetahui pengaruh bersamaan seluruh faktor risiko terhadap kejadian mortalitas pada pasien malformasi anorektal.

3. Hasil

Pada penelitian ini didapatkan 82 sampel penelitian yang memenuhi kriteria inklusi. Tabel 1. menyajikan data distribusi subjek penelitian berdasarkan mortalitas, tipe malformasi anorektal, kelainan

kongenital penyerta, sepsis, dan prematuritas. Dari hasil analisis univariat didapatkan 19 pasien (23,2%) malformasi anorektal mengalami mortalitas. Sebanyak 54 pasien (65,9%) memiliki malformasi anorektal tipe letak rendah dan 28 pasien (34,1%) tipe letak tinggi. Kelainan kongenital penyerta terdapat pada 26 pasien (31,7%) diantaranya terdapat 4 pasien (4,9%) yang diikuti lebih dari satu kelainan kongenita penyerta.

Tabel 1. Distribusi frekuensi masing-masing variabel

Variabel	n	%
Mortalitas		
Meninggal	19	23,2
Tidak meninggal	63	76,8
Tipe malformasi anorektal		
Letak tinggi	28	34,1
Letak rendah	54	65,9
Kelainan kongenital penyerta		
Ada kelainan penyerta	26	31,7
Tidak ada kelainan penyerta	56	68,3
Sepsis		
Sepsis	30	36,6
Tidak sepsis	52	63,4
Prematuritas		
Prematur	6	7,3
Tidak prematur	76	92,7

Kelainan kongenital penyerta terbanyak adalah kelainan pada jantung sebanyak 17 pasien (20,7%), diikuti kelainan urogenital sebanyak 5 pasien (6%), kelainan gastrointestinal sebanyak 4 pasien (4,9%), kelainan ekstremitas sebanyak 3 pasien (3,6%), dan kelainan trakeoesofagus sebanyak 1 pasien (1,2%) (Tabel 2). Kelainan pada jantung yang ditemukan berupa *patent ductus arteriosus*, defek septum atrium, defek septum ventrikel, *tetralogy of fallot*, transposisi arteri besar, dekstrokardia, dan stenosis pulmonal. Kelainan pada sistem urogenital yang ditemukan berupa hipospadia, *undescended testis*, mikropenis, dan gangguan dari perkembangan seks (*Disorder of sexual development = DSD*). Kelainan pada sistem

gastrointestinal yang ditemukan berupa stenosis/atresia duodenum, volvulus, dan omfalokel. Kelainan ekstremitas yang ditemukan berupa polidaktili, *congenital talipes equinovarus*, dan aplasia dari tulang radius. Sepsis neonatus dialami 30 pasien (36,6%) dan prematuritas ditemukan pada 6 pasien (7,3%).

Tabel 2. Distribusi jenis kelainan kongenital penyerta pada pasien malformasi anorektal

Jenis kelainan	Jumlah	Persentase
Tulang belakang	Tidak ada	0%
Jantung	17	20,7%
Trakeoesofagus	1	1,2%
Urogenital	5	6%
Ekstremitas	3	3,6%
Gastrointestinal	4	4,9%
Tidak memiliki kelainan penyerta	56	68,3%

Hasil analisis bivariat disajikan dalam Tabel.3. Dari 54 pasien malformasi anorektal letak rendah terdapat 5 pasien yang meninggal dunia. Pada 28 pasien malformasi anorektal letak tinggi terdapat 14 pasien yang meninggal dunia. Uji *chi-square* menunjukkan terdapat hubungan yang signifikan antara tipe malformasi anorektal dan mortalitas pasien malformasi anorektal dengan p value = 0,000. Nilai Prevalence Risk (PR) didapatkan sebesar 5,4 (CI 95% = 2,166-13,461) yang berarti tipe malformasi anorektal letak tinggi merupakan faktor risiko terjadinya mortalitas pada pasien malformasi

anorektal. Dari 26 pasien malformasi anorektal yang memiliki kelainan kongenital penyerta terdapat 10 pasien yang meninggal dunia, sedangkan pada pasien yang tidak memiliki kelainan kongenital penyerta terdapat 9 pasien yang meninggal dunia. Terdapat hubungan yang signifikan antara kelainan kongenital penyerta dan mortalitas pasien malformasi anorektal dengan p value = 0,025. Kelainan kongenital penyerta merupakan faktor risiko terjadinya mortalitas pada pasien malformasi anorektal (PR = 2,39, CI 95% = 1,107-5,17). Sepsis didapatkan pada 30 pasien, yang 14 diantaranya meninggal dunia. Pada pasien malformasi anorektal tidak mengalami sepsis terdapat 5 pasien yang meninggal dunia. Uji *chi-square* menunjukkan terdapat hubungan yang signifikan antara sepsis neonatus dan mortalitas pasien malformasi anorektal dengan p value = 0,000. Nilai *Prevalence Risk* (PR) didapatkan sebesar 4,85 (CI 95% = 1,94-12,14) yang berarti adanya sepsis merupakan faktor risiko terjadinya mortalitas pada pasien malformasi anorektal. Dari 6 pasien malformasi anorektal yang prematur terdapat 3 pasien yang meninggal dunia. Pada pasien malformasi anorektal tidak prematur terdapat 16 pasien yang meninggal dunia. Tidak terdapat hubungan antara prematuritas dan mortalitas pasien malformasi anorektal dengan p value = 0,106.

Tabel 3. Analisis Bivariat Tipe Malformasi Anorektal, Kelainan Kongenital Penyerta, Sepsis, dan Prematuritas dengan Mortalitas Pasien Malformasi Anorektal

		Mortalitas		PR	95% CI	P value*
		Meninggal	Tidak meninggal			
		N	n			
Tipe malformasi anorektal	Letak tinggi	14	14	5,4	2,1-13,4	0,000
	Letak rendah	5	49			
Kelainan Kongenital Penyerta	Ada kelainan penyerta	10	16	2,39	1,1-5,1	0,025
	Tidak ada kelainan penyerta	9	47			
Sepsis	Sepsis	14	16	4,85	1,9-12,1	0,000
	Tidak sepsis	5	47			
Prematuritas	Prematur	3	3	2,37	0,95-5,9	0,106
	Tidak prematur	16	60			

*chi-square test, p value <0,05

Tabel 4 memperlihatkan hasil analisis multivariat menunjukkan bahwa tipe malformasi anorektal letak tinggi (p value = 0,012) dan adanya sepsis neonatus (p value = 0,041) memiliki pengaruh yang signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal, sedangkan adanya kelainan kongenital penyerta (p value = 0,29) dan

prematuritas (p value = 0,762) tidak memiliki pengaruh yang signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal. Tipe malformasi anorektal letak tinggi (PR = 4,9, CI 95% = 1,4-19,6) dan sepsis (PR = 1,37, CI 95% = 1,06-14,7) merupakan faktor risiko terjadinya mortalitas pada pasien malformasi anorektal.

Tabel 4. Analisis multivariat variabel dependen dengan variabel independen

Variabel	p value*	Exp (B)	Koefisien	CI 95%
Tipe malformasi anorektal letak tinggi	0,012	4,9	1,67	1,43-19,665
Ada kelainan kongenital penyerta	0,29	1,956	-	0,565-6,775
Sepsis	0,041	3,378	1,37	1,061-14,742
Prematur	0,762	1,358	-	0,188-9,787
Konstanta	0,000	0,069	-2,67	-

*multivariate analysis, logistic regression, p value <0,05

4. Pembahasan

Data dari 82 pasien malformasi anorektal didapatkan 19 pasien (23,2%) meninggal dunia. Terdapat 5 dari 54 pasien malformasi

anorektal letak rendah yang meninggal, sedangkan pada tipe letak tinggi terdapat 14 pasien yang meninggal dari 28 pasien. Uji *chi-square* menunjukkan terdapat perbedaan yang signifikan pada mortalitas pasien dengan tipe

letak tinggi dan letak rendah dengan p value = 0,000. Hasil ini mungkin disebabkan karena pada pasien malformasi anorektal letak tinggi cenderung memiliki kelainan kongenital penyerta dibanding letak rendah. Pada penelitian ini didapatkan kelainan kongenital penyerta terdapat pada 13 pasien dari 28 pasien (46,4%) malformasi anorektal letak tinggi, sedangkan pada letak rendah kelainan kongenital penyerta terdapat pada 13 pasien dari 54 pasien (24%). Uji *chi-square* pun menunjukkan terdapat perbedaan yang signifikan antara tipe malformasi anorektal dengan ada tidaknya kelainan kongenital penyerta dengan p value = 0,039. Kelainan kongenital penyerta juga memiliki hubungan yang signifikan dengan mortalitas dengan p value = 0,025. Kelainan kongenital penyerta lebih cenderung mengikuti pasien malformasi anorektal letak tinggi mungkin disebabkan oleh karena pembentukan anus dan rektum lebih gagal pada tipe letak tinggi, sehingga kelainan yang terjadi lebih kompleks dan cenderung diikuti oleh kelainan kongenital penyerta lainnya. Prognosis fungsional pasien malformasi anorektal letak tinggi juga lebih buruk dibanding letak rendah.¹ Hal ini menegaskan bahwa pasien malformasi anorektal letak tinggi memiliki kelainan yang lebih kompleks dibanding tipe letak rendah. Hasil ini sesuai dengan penelitian Mittal yang menyatakan pasien dengan malformasi anorektal letak tinggi cenderung memiliki kelainan kongenital penyerta daripada pasien dengan malformasi anorektal letak intermediet dan letak rendah.⁴ Demikian pula menurut Mirza, adanya kelainan kongenital penyerta merupakan faktor risiko akan buruknya prognosis pada pasien malformasi anorektal.¹¹

Terdapat 14 pasien yang meninggal dari 30 pasien (46,6%) yang mengalami sepsis, sedangkan hanya 5 pasien yang meninggal dari 52 pasien (9,6%) yang tidak mengalami sepsis. Uji *chi-square* menunjukkan hasil ini merupakan perbedaan yang signifikan dengan p value = 0,000 sehingga menyimpulkan sepsis berpengaruh signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal di RSUP Dr. Mohammad Hoesin Palembang. Hal ini sesuai dengan penelitian Ademuyiwa yang

menyatakan operasi berulang, perdarahan setelah operasi, dan sepsis merupakan faktor yang mempengaruhi mortalitas pasien malformasi anorektal.¹⁰ Faktor risiko sepsis neonatus pada pasien malformasi anorektal dapat berupa BBLR, prematur, dan operasi invasif seperti kolostomi yang sering dilakukan pada pasien malformasi anorektal untuk dekompresi usus. Sepsis neonatus akan menyebabkan gangguan sistem organ pasien sehingga menyebabkan kematian. Sepsis neonatus akan mengaktifkan berbagai rangkaian proses inflamasi yang akan mengakibatkan kerusakan jaringan yang akan menyebabkan disfungsi organ seperti kegagalan paru, kegagalan kardiovaskular, disfungsi hepar, gagal ginjal, dan neutropenia yang pada akhirnya menyebabkan kematian.¹²

Pasien prematur yang meninggal ada 3 dari 6 pasien (50%), sedangkan ada 16 pasien yang tidak prematur meninggal dari 76 pasien (21%). Uji *chi-square* menunjukkan perbedaan ini tidaklah signifikan p value = 0,106. Hal ini dapat disebabkan oleh bayi prematur yang dimaksud mungkin masih lahir lebih dari minggu ke-32 kehamilan dimana angka bertahan hidupnya masih 99%.¹³ Selain itu, hal ini juga dapat diakibatkan data yang didapatkan sedikit yaitu hanya didapatkan 6 kasus bayi prematur. Penelitian Ademuyiwa juga menyatakan bahwa prematuritas tidak berhubungan signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal dengan p value = 0,153.¹⁰

Hasil dari analisis multivariat mendapatkan bahwa tipe malformasi anorektal letak tinggi dan adanya sepsis memiliki pengaruh signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal. Kelainan kongenital penyerta yang mulanya memiliki hubungan yang signifikan terhadap mortalitas pada analisis bivariat menjadi tidak signifikan setelah dilakukan analisis multivariat. Hal ini disebabkan oleh karena setelah seluruh faktor dianalisis bersama, faktor-faktor lain memiliki pengaruh yang lebih kuat terhadap mortalitas sehingga kelainan kongenital penyerta menjadi tidak memiliki hubungan yang signifikan terhadap mortalitas dibanding faktor lain seperti tipe malformasi anorektal dan sepsis.

Penelitian Kumar (2005) juga menyatakan bahwa mortalitas pada pasien malformasi anorektal yang memiliki kelainan kongenital penyerta ditentukan oleh tingkat keparahan dari kelainan kongenital penyerta yang mengikutinya dan pada penelitian ini kelainan kongenital penyerta yang ditemukan tidak banyak yang mengancam nyawa.⁶

5. Kesimpulan

Tipe malformasi anorektal dan sepsis berpengaruh signifikan terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal, sedangkan kelainan kongenital penyerta dan prematuritas tidak berpengaruh terhadap mortalitas pasien malformasi anorektal.

Daftar Acuan

1. Grosfeld, Jay L. 2006. *Pediatric Surgery*. Philadelphia: Elsevier.
2. Zwink et al. 2011. *Parental risk factors and anorectal malformations: systematic review and meta-analysis*. Orphanet Journal of Rare Diseases. No. 6:25.
3. Shahjahan, M. 2015. *Anomalies Associated with Ano Rectal Malformation: Experience in Dhaka Shishu (Children) Hospital*. Faridpur Med. Coll. J. No. 10 (1):23-25
4. A, Mittal. 2004. *Associated anomalies with anorectal malformation (ARM)*. Indian J Pediatr. Jun;71 (6):509-14.
5. Gopal, Girish. 2014. *VACTERL association in the newborn*. Indian J.Pharm.Biol.Res No. 2 (2):96-99.
6. Kumar, A. 2005. *Anorectal Malformation and Their Impact on Survival*. New Delhi: Indian Journal of Pediatrics.
7. Rintala, Risto J. 2006. *Results Following Treatment of Anorectal Malformations*. In: *Anorectal Malformations in Children*. Berlin: Springer.
8. Statovci, Sedji. 2015. *Associated Anomalies In Children With Anorectal Malformations*. Kosova: Clinic Of Pediatric SurgeryUniverstiy Clinical Centre.
9. Bhargava, Pranshu. 2006. *Anorectal Malformation in Children*. Indian J Pediatr. Jul;11 (3): 136-139.
10. Ademuyiwa, A.O. 2009. *Determinants of mortality in neonatal intestinal obstruction in Ile Ife, Nigeria*. African Journal of Paediatric Surgery. Januari-Juni:6 (1):11-13
11. Mirza, Bilal. 2011. *Anorectal malformations in neonates*. African Journal of Paediatric Surgery Vol 8
12. Wynn, James. 2010. *Pathophysiology and Treatment of Septic Shock in Neonates*. Clin Perinatol ; 37(2): 439–479
13. Sinha, Sunil K. 2012. *Essential Neonatal Medicine*. Hoboken: Wiley-Blackwell.