

Assessment of efficacy of laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft

Ocena skuteczności zabiegów rekonstrukcyjnych krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego

Department of Pediatric Otolaryngology, Medical University of Warsaw, Poland
Head of Department: Associate Professor Lidia Zawadzka-Głos, MD, PhD

KEYWORDS

subglottic stenosis, premature babies, laryngotracheal reconstruction

SŁOWA KLUCZOWE

zwężenie okolicy podgłośniowej, wcześniaki, rekonstrukcja krtani

SUMMARY

Introduction. Subglottic stenosis may lead to respiratory failure, especially in newborns and small children. It is the most common indication for tracheostomy in order to maintain airway patency in this age group. Subglottic stenosis requires surgical treatment. Laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft is one of the many treatment methods.

Aim. The aim of the study was to assess of efficacy of laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft.

Material and methods. Clinical data of 8 children operated for subglottic stenosis has been analysed. The severity of stenosis was assessed during the endoscopic examination with the Myer–Cotton Grading System. The efficacy of treatment was understood as a possibility of decannulation.

Results. The study group included 8 patients: 6 boys and 2 girls. All the children had been born prematurely between the 24th and 34th week of pregnancy and were intubated in the early neonatal period. In 5 cases, decannulation followed, and in 3 cases, the treatment proved to be not effective enough, as the children had additional health problems.

Conclusions. Prematurely born children intubated in the early neonatal period are at risk of post-intubation subglottic stenosis. Laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft is an effective treatment method. Treatment outcomes are also dependent on the overall health status of the patient and coexisting tracheal lesions.

STRESZCZENIE

Wstęp. Zwężenia podgłośniowe krtani są przyczyną niewydolności oddechowej, w szczególności u noworodków i małych dzieci. Są najczęstszym wskazaniem do wykonywania tracheostomii w celu utrzymania drożności dróg oddechowych w tej grupie wiekowej. Zwężenia te wymagają leczenia chirurgicznego. Jedną z wielu metod leczenia jest zabieg rekonstrukcji krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego z żebra.

Cel pracy. Celem pracy była ocena skuteczności zabiegów rekonstrukcji krtani z użyciem wszczepu z żebra.

Materiał i metody. Poddano analizie przebieg leczenia operacyjnego 8 dzieci ze zwężeniem okolicy podgłośniowej krtani. Stopień zwężenia w badaniu endoskopowym oceniono, stosując skalę Myera–Cottona. Miarą skuteczności leczenia była możliwość wykonania skutecznej dekaniulacji pacjenta.

Wyniki. Wśród 8 pacjentów było 6 chłopców i 2 dziewczynki. Wszystkie dzieci były urodzone przedwcześnie pomiędzy 24. a 34. tygodniem ciąży i zostały zaintubowane we wczesnym okresie noworodkowym. W 5 przypadkach dokonano dekaniulacji, w 3 przypadkach leczenie nie było wystarczająco skuteczne, a u dzieci występowały dodatkowe problemy pediatryczne.

Wnioski. Do pointubacyjnych zwężeń okolicy podgłośniowej predysponowane są wcześniaki zaintubowane we wczesnym okresie noworodkowym. Leczenie chirurgiczne z użyciem wszczepu chrzęstnego z żebra jest skuteczną metodą leczenia. Wyniki leczenia są powiązane również ze stanem pediatrycznym pacjenta oraz ze współistniejącymi zmianami w obrębie krtani.

INTRODUCTION

Airway stenosis in children is a serious health problem that frequently requires surgical intervention. Physiologically, subglottis remains the narrowest part of the larynx. It consists of a full cartilage ring called cricoid cartilage. It is this part of larynx that is most frequently associated with respiratory problems in children. Subglottis is easily affected by inflammatory or allergic edema, and it is also predisposed to post-intubation stenosis, as well as congenital defects (e.g. congenital cricoid stenosis). Sometimes differentiating congenital defects and post-intubation lesions may be difficult, especially in cases when the defect was diagnosed in a premature infant who was intubated directly after birth in order to maintain airway patency. Regardless of etiology, subglottic stenosis requires surgical treatment. The treatment method depends on the grade of stenosis and post-intubation lesions having an early or late character. In severe stenoses, tracheostomy is performed in order to maintain airway patency. There are many methods of surgical treatment, from endoscopic management to cricotracheal resection. Laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft is one of the many treatment methods (fig. 1).

AIM

The aim of the study was to assess the efficacy of laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft.

MATERIAL AND METHODS

For the study, we selected patients of the Department of Pediatric Otolaryngology of the Medical University of Warsaw who had undergone laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft. Grade of stenosis, gestational age at delivery, and the result of endoscopic examination before and after the treatment have been analyzed. All the patients had undergone tracheostomy before the stenosis treatment in order to maintain airway patency. The treatment outcome was considered positive when the patient could be successfully decannulated or when their airways were sufficiently wide.

The severity of stenosis before and after the treatment was assessed with the Myer–Cotton Grading System. According to the adopted System, grade I stenosis is an obstruction that is less than 50%, grade II – obstruction between 51% and 70%, grade III – obstruction between 71% and 99% (fig. 2), and grade IV – obstruction between 99% and 100%.

WSTĘP

Zwężenie dróg oddechowych u dzieci jest poważnym problemem wymagającym często leczenia chirurgicznego. Fizjologicznie najwęższym odcinkiem krtani jest okolica podgłośniowa. Zbudowana ona jest z pełnego pierścienia chrzęstnego zwanego chrząstką pierścieniową. Właśnie ta okolica krtani jest najczęściej powiązana z problemami oddechowymi. Łatwo ulega obrzękom zapalnym lub alergicznym, jest to także miejsce predysponowane do zwężeń pointubacyjnych oraz zmian wrodzonych (np. wrodzonego zwężenia chrząstki pierścieniowej). Niekiedy rozróżnienie zmian wrodzonych i pointubacyjnych może nastęrczać trudności, zwłaszcza w przypadkach, gdy zwężenie dotyczy wcześniaków zaintubowanych zaraz po urodzeniu w celu utrzymania drożności dróg oddechowych. Niezależnie od etiologii, zwężenie okolicy podgłośniowej krtani wymaga leczenia zabiegowego. Rodzaj zastosowanego leczenia zależy od stopnia zwężenia oraz zmian pointubacyjnych o charakterze wczesnym lub późnym. W zwężeniach znacznego stopnia w celu utrzymania drożności dróg oddechowych wykonuje się tracheostomię. Istnieje wiele metod leczenia chirurgicznego, od leczenia endoskopowego aż po resekcję pierścienno-tchawicze. Jedną z opcji jest zabieg rekonstrukcji krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego pobranego z żebra pacjenta (ryc. 1).

CEL PRACY

Celem pracy była analiza skuteczności zabiegów rekonstrukcyjnych krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego pobranego z żebra.

MATERIAŁ I METODY

Na potrzeby pracy wyselekcjonowano pacjentów Kliniki Otolaryngologii Dziecięcej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego, u których wykonano zabieg rekonstrukcji krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego pobranego z żebra. Analizowano stopień zwężenia, wiek urodzeniowy pacjenta, płeć, wynik badania endoskopowego przed i po rekonstrukcji. Wszyscy pacjenci przed rozpoczęciem leczenia mieli wykonaną tracheostomię w celu utrzymania drożności dróg oddechowych. Miarą skuteczności leczenia była dekaniulacja pacjenta lub uzyskanie dostatecznie szerokich dróg oddechowych.

Stopień zwężenia dróg oddechowych przed włączeniem leczenia i po leczeniu oceniany był wg skali Myera–Cottona. Wg przyjętej skali zwężenie I stopnia to zwężenie mniejsze niż 50%, II stopnia – zwężenie 51-70%, III stopnia – zwężenie 71-99% (ryc. 2), a IV stopnia – zwężenie 99-100%.

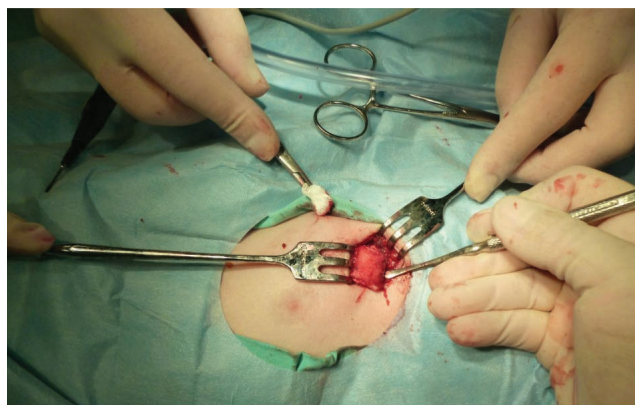


Fig. 1. Harvesting rib cartilage
Ryc. 1. Pobranie chrząstki z żebra

In our patients, laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft was performed. The cartilage was harvested from the 6th rib, and the harvested graft was processed and implemented in the subglottic region, enabling to expand its diameter (fig. 3).

RESULTS

Medical data of 8 patients, including 2 girls and 6 boys treated for post-intubation subglottic stenosis, were analyzed. The follow-up was 5 years. All the children had been born prematurely between the 24th and 34th week of pregnancy and were intubated in the early neonatal period. In 4 boys and 1 girl, grade III obstruction according to Myer–Cotton Grading System was diagnosed, and in 2 boys and 1 girl, grade IV obstruction was diagnosed. All the children were qualified for laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft. Endoscopic examination performed after the surgery revealed widened subglottic region in all the patients, however, the diameter had not returned to its physiological dimensions in any of the cases. In 5 patients, the outcomes enabled decannulation, and in 3 patients, tracheostomy was



Fig. 3. Rib cartilage graft introduced into the subglottic region
Ryc. 3. Wprowadzony wszczep chrzęstny w okolice podgłośniawą krtani

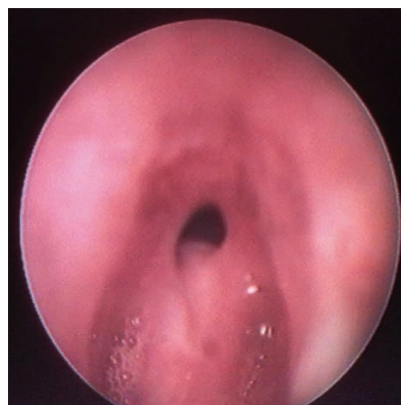


Fig. 2. Grade III subglottic stenosis according to Myer–Cotton Grading System

Ryc. 2. Zwężenie podgłośniowe III stopnia w skali Myera–Cottona

U pacjentów zastosowano metodę rekonstrukcji krtani przy użyciu wszczepu chrzęstnego z żebra pacjenta. Chrzęstkę pobierano z 6. żebra, a pobrany wszczep opracowywano i wszywano w okolice podgłośniową, poszerzając w ten sposób jej średnicę (ryc. 3).

WYNIKI

Analizie poddano dane 8 pacjentów, w tym 2 dziewczynki i 6 chłopców leczonych z powodu zwężenia postępowego krtani. Czas obserwacji wynosił 5 lat. Wszystkie dzieci były urodzone przedwcześnie pomiędzy 24. a 34. tygodniem ciąży i zostały zaintubowane we wczesnym okresie noworodkowym. U 4 chłopców i 1 dziewczynki rozpoznano przed zabiegiem III stopień zwężenia krtani wg skali Myera–Cottona, u 2 chłopców i 1 dziewczynki – IV stopień zwężenia krtani w okolicy podgłośniowej. Wszystkie dzieci zostały zakwalifikowane do zabiegu rekonstrukcji okolicy podgłośniowej z użyciem wszczepu chrzęstnego pobranego z żebra. Badanie endoskopowe wykonane po rekonstrukcji u wszystkich pacjentów wykazało poszerzenie okolicy podgłośniowej, ale nie powróciło do wymiarów fizjologicznych. U 5 pacjentów stwierdzono po rekonstrukcji zwężenie I stopnia, u pozostałych – zwężenie II stopnia. U 5 pacjentów umożliwiło to dekaniulację, u 3 pozostawiono tracheostomię. U 1 dekaniulowanego dziecka wykonano retracheostomię z powodu niewydolności dolnych dróg oddechowych spowodowanej infekcją. U 5 dzieci wystąpiło przemieszczenie wszczepu w stronę dróg oddechowych i konieczność reoperacji, u 1 dziecka nastąpił wzrost pomiędzy przednią a tylną ścianą tchawicy. Troje dzieci nie zostało dekaniulowanych. Dwoje z nich miało wyjściowo IV stopień zwężenia krtani, a u wszystkich 3 współwystępowały zmiany w obrębie strun głosowych i górnego piętra krtani, przemieszczenie wszczepu chrzęstnego, a także różnego stopnia obciążenia pediatryczne, takie jak dysplazja oskrzelowo-płucna oraz stan po wylewie do ośrodkowego układu nerwowego.

kept. In 1 decannulated child, retracheostomy was performed due to lower respiratory tract failure due to infection. After the surgery, grade I stenosis was observed in 5 patients, and grade II stenosis – in 3 patients. In 5 children, the graft displaced in the direction of the airways, which required reoperation. In 1 child, adhesion between the anterior and posterior tracheal wall occurred. Three children could not be decannulated. Two of them had initially suffered from the grade IV obstruction, and all 3 had coexisting lesions of vocal cords and epiglottic region. In all 3, graft displacement occurred. All 3 children suffered from comorbidities, such as bronchopulmonary dysplasia and status post brain hemorrhage.

DISCUSSION

Subglottic stenosis in children is a serious diagnostic and therapeutic problem. It is the most common indication for tracheostomy in children. The treatment is difficult and often multi-stage, and the effect is not always satisfactory. What causes the most problems is the diameter of the airways, which is 5-8 mm in the subglottic region in a healthy newborn, while the dimensions are adequately smaller in premature infants. Preterm delivery and its consequences are a serious problem in modern perinatology. In Poland, the incidence of preterm births is 4.5-12% of live births, depending on the country region (1). Premature birth is the main cause for perinatal mortality (2, 3). The greatest threat to life and development of a newborn is the overall underdevelopment of all the systems, in particular of the respiratory system (2, 3). In case of respiratory failure, prolonged intubation is applied, which may lead to subglottic stenosis. The results of our study support these conclusions – all the patients included in our analysis were born prematurely and were intubated. The risk of post-intubation stenosis in children is estimated at 0.1-2% (4). Solvitzky et al. (5) hypothesized that in preterm infants, it is the autoimmune mechanisms associated with type II collagen that are responsible for subglottic stenosis after intubation injury. In the study, antibodies against type II collagen were detected in infants with post-intubation laryngeal stenosis, while the antibodies were not detected in children without post-intubation complications (5). Other concept regarding the predisposition for post-intubation laryngeal stenosis was presented by Lima et al. (6). Based on the performed morphometric studies, they have proven that the shape of subglottic region in preterm infants is, in fact, elliptical, thus significantly differing from the shape of an endotracheal tube, which may lead to the formation of pressure ulcers and secondary laryngeal obstruction. Monnier (7) have also drawn attention to the shape of the subglottic region, which contributed to the development of profiled separators.

Rib cartilage graft is an open surgical method that have been recognized for many years in the treatment of severe laryngeal stenosis. However, secondary stenosis after reconstructive surgery is often observed, which prevents decannulation and requires reoperation or endoscopic treatment (8-12).

DYSKUSJA

Zwężenia okolicy podgłośnia u dzieci stanowią poważny problem diagnostyczny i leczniczy. Obecnie są one najczęstszym wskazaniem do wykonania tracheostomii u dzieci. Leczenie jest trudne i często wieloetapowe, a efekt nie zawsze zadowalający. Problemem jest szerokość dróg oddechowych, która fizjologicznie u zdrowego noworodka wynosi jedynie około 5-8 mm w okolicy podgłośnia, a u noworodków przedwczesnie urodzonych wymiar ten jest odpowiednio mniejszy. Poród przedwczesny i jego następstwa stanowią poważny problem we współczesnej perinatologii. W Polsce częstość porodów przedwczesnych mieści się w granicach 4,5-12% żywych urodzeń zależnie od regionu kraju (1). Przedwczesne urodzenia są główną przyczyną umieralności okołoporodowej noworodków (2, 3). Największe zagrożenie życia i dalszego rozwoju noworodka stanowi ogólna niedojrzałość wszystkich układów, a szczególnie niedojrzałość układu oddechowego (2, 3). W przypadkach niewydolności oddechowej stosuje się przedłużoną intubację, co może prowadzić do powstania zwężeń okolicy podgłośnia. Wyniki naszego badania potwierdzają te wnioski – wszyscy pacjenci włączeni do analizy urodzili się przedwczesnie oraz byli intubowani. Ryzyko zwężeń pointubacyjnych u dzieci ocenia się na 0,1-2% (4). Solvitzky i wsp. (5) wysunęli hipotezę, że u dzieci przedwczesnie urodzonych zwężenia podgłośnia powstają w mechanizmie autoimmunologicznym związanym z kolagenem typu II w odpowiedzi uraz intubacyjny. W badaniu wykryto przeciwciała przeciwko kolagenowi typu II u wcześniaków, u których wystąpiło zwężenie pointubacyjne krtani, których nie stwierdzono u dzieci bez powikłań pointubacyjnych (5). Inną koncepcję dotyczącą predyspozycji do zwężeń pointubacyjnych krtani przedstawili Lima i wsp. (6). Na podstawie przeprowadzonych badań morfometrycznych udowodnili oni, że kształt okolicy podgłośnia noworodków przedwczesnie urodzonych jest eliptyczny i zdecydowanie różni się od kształtu rurki intubacyjnej, co może być przyczyną powstawania odleżyn i wtórnie zwężeń krtani. Na kształt okolicy podgłośnia zwrócił uwagę również Monnier (7), co stało się punktem wyjścia do opracowania profilowanych separatorów.

Wszczepienie chrząstki z żebra jest uznaną od wielu lat metodą chirurgii otwartej w leczeniu poważnych zwężeń krtani. Często jednak obserwuje się wtórne zwężenia po operacjach rekonstrukcyjnych, które uniemożliwiają dekaniulację i są podstawą do reoperacji lub leczenia endoskopowego (8-12). Podstawą kwalifikacji do operacji rekonstrukcyjnej krtani opisywanych pacjentów było poważne zwężenie pointubacyjne krtani oraz brak satysfakcjonującego efektu po leczeniu endoskopowym. Autorzy zastosowali leczenie endoskopowe w sumie u 91 pacjentów. Pięcioro z 8 dzieci leczonych metodą z wszczepem chrzęstnym z żebra zostało

The basis for qualification for reconstructive surgery of the described patients was severe post-intubation laryngeal stenosis and no improvement after endoscopic treatment. The authors applied endoscopic treatment in 91 patients in total. Five of the 8 children who had undergone reconstructive surgery with rib cartilage graft were decannulated. Bakthavachalam (13) noted that in the group of 102 patients treated with open surgical techniques, as many as 56 patients required additional procedures due to restenosis.

Important complications observed by many authors in children who had undergone laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft include graft displacement and adhesions. In our material, 4 patients required reoperation due to graft displacement. Lesions of vocal cords and epiglottic region consist an additional obstacle in obtaining sufficiently wide airways and successful decannulation. Additional factors influencing the possibility of decannulation include coexisting respiratory disorders, such as bronchopulmonary dysplasia and lower respiratory tract dysfunction. In 3 patients who could not be decannulated, lower respiratory tract dysfunction and vocal cord lesions were observed in addition to laryngeal obstruction.

CONCLUSIONS

Prematurity consists a serious risk factor for the occurrence of post-intubation laryngeal stenosis in children. Laryngotracheal reconstruction with autogenous rib cartilage graft is an effective treatment method. In the course of treatment, complications, such as graft displacement or adhesions, may occur. The possibility of decannulation is affected by many factors, including airway diameter and general health condition of the patient. The patients with coexisting lower respiratory tract dysfunction and epiglottic lesions have poorer prognosis.

dekaniulowanych. Bakthavachalam (13) odnotował, że w grupie 102 pacjentów leczonych technikami chirurgii otwartej aż 56 dzieci wymagało dodatkowych zabiegów z powodu nawrotu zwężenia.

Do podstawowych problemów obserwowanych przez autorów u dzieci, które miały wykonaną rekonstrukcję krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego, jest przemieszczenie się wszczepu i zrosty. W naszym materiale w 4 przypadkach wykonano reoperację z powodu przemieszczenia się wszczepu. Dodatkowym utrudnieniem w uzyskaniu szerokiego światła dróg oddechowych i przeprowadzeniu dekaniulacji są zmiany na poziomie strun głosowych i przedsionka krtani. Dodatkowymi czynnikami wpływającymi na możliwość dekaniulacji są współistniejące zaburzenia funkcjonowania układu oddechowego, takie jak dysplazja płucno-oskrzelowa oraz dysfunkcja dolnych dróg oddechowych. U 3 pacjentów, których nie udało się dekaniulować, oprócz wąskiego światła krtani stwierdzono dysfunkcję dolnych dróg oddechowych oraz zmiany w obrębie strun głosowych.

WNIOSKI

Wcześnieństwo jest poważnym czynnikiem ryzyka wystąpienia zwężeń pointubacyjnych krtani u dzieci. Metoda rekonstrukcji krtani z użyciem wszczepu chrzęstnego z żebra jest skuteczną metodą leczenia zwężeń okolicy podgłośnia. W przebiegu leczenia mogą wystąpić komplikacje pod postacią przemieszczenia wszczepu lub zrostów. Na proces dekaniulacji ma wpływ wiele czynników takich jak szerokość dróg oddechowych oraz ogólny stan pediatryczny. Pacjenci ze współistniejącymi zmianami w dolnych drogach oddechowych oraz w obrębie głośni mają gorsze rokowanie.

CONFLICT OF INTEREST KONFLIKT INTERESÓW

None
Brak konfliktu interesów

CORRESPONDENCE ADRES DO KORESPONDENCJI

*Lidia Zawadzka-Głós
Klinika Otolaryngologii Dziecięcej
Warszawski Uniwersytet Medyczny
ul. Żwirki i Wigury 63A,
02-091 Warszawa, Polska
tel.: + 48 (22) 317-97-21
e-mail: laryngologia@spdsk.edu.pl

REFERENCES/PIŚMIENNICTWO

1. Pietrzak B, Kawka J: Zakażenia a poród przedwczesny. *Nowa Med* 1999; 6: 19-20.
2. Urban J, Lemancewicz A: Nowe spojrzenie na patomechanizm porodu przedwczesnego. *Nowa Med* 1999; 6: 24-27.
3. Karwan-Płońska A: Kliniczna analiza porodów przedwczesnych. *Nowa Med* 1999; 6: 21-23.
4. Walner DL, Loewen MS, Kimura RE: Neonatal subglottic stenosis – incidence and trends. *Laryngoscope* 2001; 111(1): 48-51.
5. Stolovitzky JP, Todd NW: Autoimmune hypothesis of acquired subglottic stenosis in premature infants. *Laryngoscope* 1990; 100(3): 227-230.
6. Lima LF, Nita LM, Campelo VE et al: Morphometric study on the anatomy of fetal cricoid cartilage and comparison between its inner diameter and endotracheal tube sizes. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2008; 117(10): 774-780.
7. Monnier P: Airway stenting with the LT-Mold: Experience in 30 pediatric cases. *Int Journal of Ped Otorhinolaryngol* 2007; 71: 1351-1359.
8. Berkowitz RG: Failed paediatric laryngotracheoplasty. *ANZ J Surg* 2001; 71(5): 292-296.

submitted/nadesłano:

23.01.2018

accepted/zaakceptowano do druku:

02.03.2018

9. Hartnick CJ, Hartley BE, Lacy PD et al: Surgery for pediatric subglottic stenosis: disease-specific outcomes. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2001; 110(12): 1109-1113.
10. Matute JA, Villafruela MA, Hernandez JM et al: Analysis of treatment failure in pediatric subglottic stenosis. *Ann Esp Pediatr* 2000; 52(3): 242-244.
11. Monnier P, Lang F, Savary M: Partial cricotracheal resection for pediatric subglottic stenosis: a single institution's experience in 60 cases. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2003; 260(6): 295-297.
12. Younis RT, Lazar RH, Bustillo A: Revision single-stage laryngotracheal reconstruction in children. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2004; 113(5): 367-372.
13. Bakthavachlam S, McClay JE: Endoscopic management of subglottic stenosis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008; 139(4): 551-559.