

15例特发性声门下狭窄诊疗分析

郭志华¹ 崔鹏程¹ 赵大庆¹ 梁乐平¹ 杨静¹ 赵倩倩¹ 王薇¹ 邢园²

[摘要] 目的:探讨特发性声门下狭窄(ISS)的诊治方法和预后。方法:回顾性分析特发性声门下狭窄15例患者的临床资料。采用Myer-Cotton气道分级系统对狭窄程度进行分级:I度0例,II度8例,III度4例,IV度3例。结果:随访0.5~10年,所有患者全部成功拔管,无窒息、脱管及伤口不愈合等严重并发症发生,无再次狭窄。结论:对于处在无进展期的特发性声门下狭窄患者,应当采取积极的手术治疗策略,并进行个体化治疗,预后满意。

[关键词] 特发性声门下狭窄;喉气管成形术;环气管部分切除;球囊扩张

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2020.02.018

[中图分类号] R767.4 [文献标志码] A

Diagnosis and treatment of 15 cases of idiopathic subglottic stenosis

GUO Zhihua¹ CUI Pengcheng¹ ZHAO Daqing¹ LIANG Leping¹
YANG Jing¹ ZHAO Qianqian¹ WANG Wei¹ XING Yuan²

(¹Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, Tangdu Hospital, Air Force Medical University, Xi'an, 710038, China; ²Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, Xi'an Honghui Hospital, Xi'an Jiaotong University)

Corresponding author: ZHAO Daqing, E-mail: zhaodq430@163.com

Abstract Objective: The aim of this study is to explore the diagnosis, treatment and prognosis of idiopathic subglottic stenosis (ISS) **Method:** The clinical data of 15 patients with idiopathic subglottic stenosis treated in our department were analyzed retrospectively. The degree of stenosis was classified by the Cotton Airway grading system of Myer, with 8 cases of grade II, 4 cases of grade III and 3 cases of grade IV. **Result:** The time of follow-up of HTSS was 0.5–10 years. All 15 patients were successfully extubated without asphyxia, decannulation and wound nonunion. **Conclusion:** For patients with idiopathic subglottic stenosis in the non-progressive stage, active surgical treatment strategy should be adopted and treated individually. The prognosis is satisfactory.

Key words idiopathic subglottic stenosis; laryngotracheoplasty; partial cricotracheal resection; balloon dilatation

特发性声门下狭窄(idiopathic subglottic stenosis, ISS)临床少见,是一种缓慢进行性加重的声门下炎性疾病,常累及环状软骨及第1、2气管软骨环,临床表现主要为进行性加重的呼吸困难,具体发病机制不明,临床治疗困难。尽管疾病临床表现及患病群体具有相对同质性的特点,但具体诊疗策略有较大差异。我们对15例ISS患者的临床资料进行回顾性分析,旨在探讨该病的个体化临床诊治方法。

1 资料与方法

1.1 临床资料

2008-04—2018-12就诊我科诊断为ISS患者15例,详细资料见表1。

1.2 诊断及纳入标准

①病史:无明确病因及病史,呼吸困难呈进行性加重;②免疫学相关实验检查阴性,包括抗中性粒细胞胞浆抗体检测(阴阳性对照)、血管紧张素转换酶、血沉、C反应蛋白、红细胞沉降率;③术前纤维喉镜及影像学检查示狭窄位于声门下。

1.3 治疗方法

术前经喉气管CT扫描及三维重建(图1a,图2a、b)、纤维喉镜检查。镜下见3例呈现声门下环形瘢痕狭窄(图1b),7例为声门下狭窄或累及气管,黏膜下弥漫性隆起,黏膜光滑(图2c),狭窄长度为0.5~3.0cm,双侧声带结构正常,活动好;狭窄长度为0.3~2.0cm,双侧声带结构功能正常;5例病变累及声门,表现为双侧声带肿胀,活动受限。6例患者入院后因呼吸困难明显,术前给予气管切开。其余患者均于外院气管切开,颈前佩戴气管套管入院。

1.3.1 喉气管裂开成形术 麻醉插管直接从气管痿口处插入行静脉复合麻醉。手术采取颈前正中切口,逐层分离组织至甲状软骨、环状软骨及气管痿口以上气管,探针指引下正中裂开,暴露喉腔及气管腔。对于黏膜光滑且呈弥漫性隆起者,常规于黏膜下取组织送冷冻,结果回报为炎性组织。将黏膜下瘢痕组织尽量切除,保留原黏膜的完整性,靠近声门时需仔细操作,尽量减少对声带结构的干扰。瘢痕组织去除后对位缝合黏膜,如缺损较大,则于右下腹部取相应大小刃厚皮片予以修复。成

¹空军军医大学唐都医院耳鼻咽喉头颈外科(西安,710038)

²西安交通大学附属红会医院耳鼻咽喉头颈外科

通信作者:赵大庆, E-mail: zhaodq430@163.com

人女性患者常规至少放置外径 12 mm T 型管(上端平室带上缘,支管下端留置 1.5 cm),男性患者放置 13 mm T 型管。放置 T 型管后,如喉气管前壁缺损大,则取右侧甲状软骨翼板或肋软骨加宽;如缺损小则采用胸骨舌骨肌皮瓣加宽。

1.3.2 环气管切除端端吻合术 麻醉及手术切口同上,术中注意保留环甲肌。结合术前影像学或术中纤维喉镜判断狭窄平面及范围。从气管前、侧面紧贴气管游离,避免损伤喉返神经。在邻近狭窄的正常气管处切断气管,如狭窄位于环状软骨平面,切除范围上端包括环甲膜、环状软骨弓和管腔内黏膜下瘢痕,重点注意保留环状软骨板及环甲关节。2 根 2-0 prolene 缝线从气管侧面穿过用于提拉气

管。沿食管前壁和气管食管沟分离至正常气管,游离端 1 cm 左右处。如造瘘口有病变,可将其一并切除。在距离吻合口至少 2 个气管软骨环处重新造瘘。将狭窄区域切除后,可尝试上下牵拉判断吻合张力。如张力偏大,可通过切断舌骨上肌群予以降喉处理。用 3-0 可吸收线将断端对位缝合,线结位于管腔外(图 1c)。术后嘱患者颈部前屈位 1 周,以防吻合口裂开。

1.3.3 支撑喉镜下球囊扩张 麻醉同前。支撑喉镜暴露术野,激光或喉显微刀于瘢痕狭窄处 3 点、6 点、9 点、12 点作放射状切除。采用内径为 4.0~7.0 mm 的麻醉插管,逐级扩张至狭窄平面同正常管腔大小基本相同。

表 1 15 例患者的临床资料

例序	性别	年龄/岁	Myer-Cotton 分级	狭窄长度 /cm	既往外院手术史	手术方式
1	女	29	II	2.0	无	喉气管裂开成形术
2	女	31	II	3.0	无	2 次喉气管裂开成形术
3	男	54	III	2.5	无	环气管切除端端吻合术
4	女	22	II	0.5	无	支撑喉镜下球囊扩张
5	女	48	II	2.5	首次手术部分喉切除+气管新生物切除+肋软骨及邻近皮瓣转移喉气管成形术,2 次手术支撑喉镜下喉瘢痕切除术	喉气管裂开成形术
6	男	16	II	1.0	环气管瘢痕切除端端吻合术	2 次喉气管裂开成形术
7	男	18	II	1.0	无	6 次支撑喉镜下球囊扩张
8	女	40	IV	4.0	首次手术喉裂开成形术及 T 型管置入,2 次手术同前	喉气管裂开成形术
9	女	23	III	1.5	无	喉气管裂开成形术
10	男	64	II	2.0	无	喉气管裂开成形术
11	女	44	IV	2.5	无	喉气管裂开成形术
12	女	36	II	3.0	支撑喉镜下激光瘢痕切除	喉气管裂开成形术
13	女	41	III	2.0	支撑喉镜下球囊扩张	2 次喉气管裂开成形术
14	女	65	III	3.0	喉裂开成形术	2 次喉气管裂开成形术
15	女	29	IV	2.0	无	环气管切除端端吻合术

2 结果

随诊时间为 0.5~10 年,随访方式为来我科复查行纤维喉镜检查。本组 10 例患者 1 次手术治疗成功拔除气管套管或治愈,其中有 2 例行环气管切除端端吻合术(图 1d);4 例经 2 次手术(图 2d),1 例经 6 次球囊扩张治愈。目前随访患者中有 5 例发声较术前主观变差外,全部患者成功拔管,呼吸、进食良好,未见复发。

3 讨论

ISS 是一种病因不明的罕见疾病,好发于 20~50 岁成年女性^[1-2]。最早由 Brandenburg 于 1972 年报道^[3]。既往文献有儿童患者报道^[4-6],但笔者认为报道中至少有部分患者可能为先天性环状软骨及弹

性圆锥发育不全,亦或继发于其他因素所致。目前文献资料倾向于支持该患病群体可能仅限于成人。镜下典型特点表现为黏膜下弥漫隆起,或呈环形纤维化瘢痕狭窄,常累及上端气管,重者可累及声门^[7]。

病程呈进行性加重趋势,缺乏特异性临床表现,初诊常误诊为哮喘等呼吸道疾病。国外有学者对其病因、发病机制及病理改变进行过一些探索。发病病因及机制主要围绕 2 个方面展开:①导致环气管结合处黏膜瘢痕形成的隐匿性病变;②针对患病群体有明显女性倾向,考虑激素相关性因素。可能的发病机制包括胶原血管性疾病、激素改变^[1-2]、隐匿性损伤及胃食管反流^[8]等。但最终发病原因仍不明确。

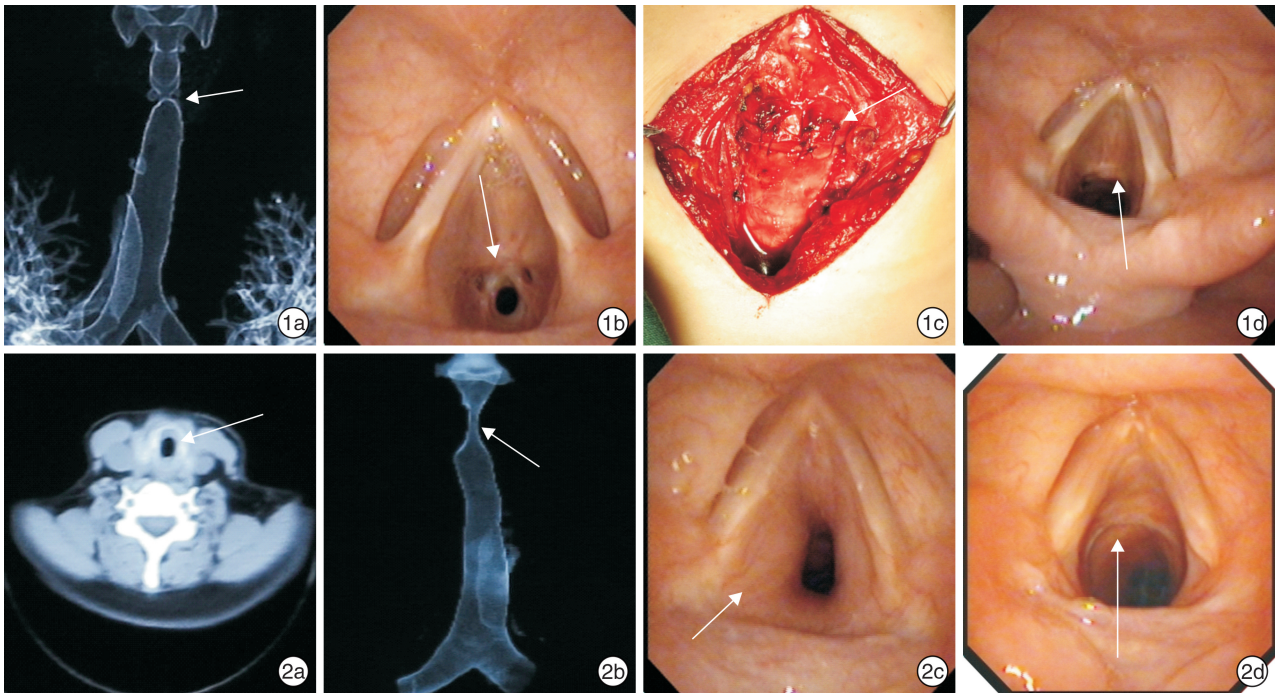


图1 典型病例1患者临床资料 1a:CT示管腔基本闭锁(箭头所示);1b:位于声门下大约1 cm处,呈向心性针孔样瘢痕狭窄(箭头所示);1c:术中吻合口(箭头所示);1d:术后3年,吻合口无挛缩(箭头所示); 图2 典型病例2患者临床资料 2a~b:示狭窄位于环状软骨平面,并向下延伸至气管(箭头所示);2c:示狭窄位于声门下,紧靠双侧声带,呈黏膜下弥漫隆起(箭头所示);2d:术后5年,效果肯定,管腔宽敞(箭头所示)。

ISS的诊断是排他性诊断,病史、症状及影像学检查均无特异性。作出最终诊断前需排除导致声门下狭窄的其他一系列因素,如长期麻醉插管、颈部外伤等。除此之外,自身免疫性疾病如韦格纳肉芽肿病、复发性多软骨炎、喉结核、淀粉样变性及呼吸道硬结病等亦需排除。决定外科手术干预前需进行一系列自身免疫相关实验检查,如为阴性,再考虑外科手术。

由于疾病呈进行性炎症反应过程,该病自然进程具有不可预知性,因此有学者认为外科手术有2层含义,其一去除瘢痕组织以期获得长期疗效,多采取开放性手术;其二姑息治疗,维持患者通气功能,需要行多次内镜手术,但手术间隔时间仍有争议^[9-13]。

ISS的治疗有其特殊性,目前尚无统一治疗规范,治疗方案应个体化。病程进展虽很缓慢,但尚未观察到该病可自行缓解。国内外文献报道多为手术治疗。术式有支撑喉镜下(结合激光或冷器械瘢痕切除)的扩张治疗、喉气管裂开重建及环气管部分切除端端吻合术等^[14-18]。

对于病程短且呈薄膜样瘢痕狭窄者初次可采用支撑喉镜下激光亦或结合冷器械瘢痕切除扩张术,能获得较好的疗效^[11-12]。我们的经验是对于3次以上扩张无效,或无明显好转的患者,应该考虑行开放性手术。本组有1例患者前后扩张达6次,每次间隔时间3个月,每次扩张喉镜下及患者临床

表现都有好转。

单纯的激光切除及暂时性的支架置入(Montgomery T管)无效,只能作为姑息性缓解措施^[4]。关于是否局部亦或全身应用激素,目前缺乏患者可能长期获益的可靠证据^[1,8]。

虽然目前有关于兔的动物实验,丝裂霉素能够延缓瘢痕组织生成^[19],但目前丝裂霉素的应用价值存在争议,尚无大数据随机对照试验表明丝裂霉素对于预防气道瘢痕狭窄有肯定作用^[20-21]。

对于开放性手术,亦有学者表示反对,他们认为对于ISS患者,治疗的目的应是无症状间隙的延长。喉气管重建术及环气管部分切除端端吻合术应当尽量避免。本研究中行开放性手术者最长随访时间近10年,尚未发现复发。因此,笔者认为对于镜下表现及实验室检查无炎症进展期变化证据者,应该采取积极的开放性手术策略。本组6例患者有外院手术史,Myer-Cotton分级II级患者居多,因此以喉气管重建术为主。气管前壁缺损较大者,可选用甲状软骨翼板或肋软骨加宽前壁。T型管放置时间半年以上,最长达1.5年。缺损较轻者,选用胸骨舌骨肌肌皮瓣或肌筋膜瓣加宽。如加宽材料首次选用甲状软骨翼板失败,二次手术则还可取肋软骨加宽。

环气管切除端端吻合术较内镜下手术及喉气管重建术有更低的复发率及更高的成功率^[22-24]。但Smith等^[25]表示应慎用此术式,他们认为ISS

是一种涉及气管腔黏膜固有层疾病,软骨框架尚完整,行环气管切除端端吻合术可能会破坏环甲肌,出现音调改变。该术式有一定优点,如不易复发,住院时间短。本组有 2 例患者行此术式,术后 1 周即出院,目前随访时间已达 3 年,未复发。笔者认为选好适应证以及术者具有丰富的气管手术经验是成功的关键。既往有多次手术史、病变累及声门、距离声门小于 0.5 cm、全身状况不佳及对发声质量有较高要求者,则应慎用此术式。

总之,ISS 是一种少见疾病,病变如无进展变化者,应积极手术治疗,根据病情,选好手术术式是成功关键。

参考文献

- [1] Hseu AF, Benninger MS, Haffey TM. Subglottic stenosis: a ten-year review of treatment outcomes[J]. *Laryngoscope*, 2014, 124(3): 736-741.
- [2] Aarnaes MT, Sandvik L, Brøndbo K. Idiopathic subglottic stenosis: an epidemiological epidemiological single-center study[J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2017, 274(5): 2225-2228.
- [3] Brandenburg JH. Idiopathic subglottic stenosis[J]. *Trans Am Acad Ophthalmol Otolaryngol*, 1972, 76(5): 1402-1406.
- [4] Beddow E, Rice AJ, Sheppard MN, et al. Idiopathic tracheal and bronchial stenosis in two pediatric patients [J]. *Ann Thorac Surg*, 2004, 77(5): 1829-1832.
- [5] Modgil G, Havas T, Mellis C. Idiopathic subglottic stenosis and the relationship to menses in a 12-year-old girl[J]. *J Paediatr Child Health*, 2005, 41(7): 374-376.
- [6] Hoffman MR, Thompson KM, Van Beek-King J. Idiopathic cervical tracheal stenosis in an 11-year-old male [J]. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 2018, 113: 72-75.
- [7] Nouraei SAR, Sandhu GS. Idiopathic subglottic stenosis[M]//Sandhu GS, Nouraei SAR, eds. *Laryngeal and tracheobronchial stenosis*. San Diego: Plural Publishing, 2015: 311-326.
- [8] Gelbard A, Francis DO, Sandulache VC, et al. Causes and consequences of adult laryngotracheal stenosis [J]. *Laryngoscope*, 2015, 125(5): 1137-1143.
- [9] Nouraei SA, Nouraei SM, Upile T, et al. A proposed system for documenting the functional outcome of adult laryngotracheal stenosis [J]. *Clin Otolaryngol*, 2007, 32(5): 407-409.
- [10] Franco RA Jr, Husain I, Reder L, et al. Awake serial intralesional steroid injections without surgery as a novel targeted treatment for idiopathic subglottic stenosis[J]. *Laryngoscope*, 2018, 128(3): 610-617.
- [11] Nouraei SAR, Dorman EB, Johnston J, et al. Vocal fold fixation due to proximal stenosis progression complicating idiopathic subglottic stenosis [J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2019, 276(8): 2293-2300.
- [12] Damrose EJ. On the development of idiopathic subglottic stenosis [J]. *Med Hypotheses*, 2008, 71(1): 122-125.
- [13] Rahimah AN, Shahfi FI, Masaany M, et al. Tracheal T-tube: a novel endoscopic insertion technique [J]. *J Laryngol Otol*, 2016, 130(10): 967-968.
- [14] Fiorelli A, Mazzone S, Costa G, et al. Endoscopic treatment of idiopathic subglottic stenosis with digital AcuBlade robotic microsurgery system [J]. *Clin Respir J*, 2018, 12(2): 802-805.
- [15] Wierzbicka M, Tokarski M, Puszczewicz M, et al. The efficacy of submucosal corticosteroid injection and dilatation in subglottic stenosis of different aetiology [J]. *J Laryngol Otol*, 2016, 130(7): 674-679.
- [16] Chen WN, Deng YM, Guo WH, et al. Laryngeal Function Reconstruction Using Cryogenically Frozen Tissue Engineering Cartilage [J]. *Progress in Modern Biomedicine*, 2011, 11(23): 4441-4443.
- [17] Maldonado F, Loiselle A, Depew ZS, et al. Idiopathic subglottic stenosis: an evolving therapeutic algorithm [J]. *Laryngoscope*, 2014, 124(2): 498-503.
- [18] Freitag L, Darwiche K. Endoscopic treatment of tracheal stenosis [J]. *Thorac Surg Clin*, 2014, 24(1): 27-40.
- [19] Reichert LK, Zhao AS, Galati LT, et al. The Efficacy of Mitomycin C in the Treatment of Laryngotracheal Stenosis: Results and Experiences with a Difficult Disease Entity [J]. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec*, 2015, 77(6): 351-358.
- [20] Donahoe L, Keshavjee S. Contemporary Management of Idiopathic Laryngotracheal Stenosis [J]. *Thorac Surg Clin*, 2018, 28(2): 167-175.
- [21] Perotin JM, Jeanfaivre T, Thibout Y, et al. Endoscopic management of idiopathic tracheal stenosis [J]. *Ann Thorac Surg*, 2011, 92(1): 297-301.
- [22] Carpenter PS, Pierce JL, Smith ME. Outcomes after cricotracheal resection for idiopathic subglottic stenosis [J]. *Laryngoscope*, 2018, 128(10): 2268-2272.
- [23] Menapace DC, Modest MC, Ekbom DC, et al. Idiopathic Subglottic Stenosis: Long-Term Outcomes of Open Surgical Techniques [J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2017, 156(5): 906-911.
- [24] Gelbard A, Donovan DT, Ongkasuwan J, et al. Disease homogeneity and treatment heterogeneity in idiopathic subglottic stenosis [J]. *Laryngoscope*, 2016, 126(6): 1390-1396.
- [25] Smith ME, Roy N, Stoddard K, et al. How does cricotracheal resection affect the female voice? [J]. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 2008, 117(2): 85-89.

(收稿日期: 2019-07-26)