

新生儿小下颌畸形伴喉软化的气道管理及治疗^{*}

汪景¹ 徐梦柔¹ 金蕾¹ 顾美珍¹ 李晓艳¹

[摘要] 目的:探讨小下颌畸形伴喉软化新生儿的围手术期气道管理及治疗。方法:2022年1—12月共纳入6例小下颌畸形伴喉软化新生儿。术前喉镜检查发现合并喉软化。小下颌畸形确诊为皮罗综合征。术前患儿均存在Ⅱ度以上的喉梗阻表现,需予以吸氧或无创呼吸机辅助通气治疗。所有患儿均同期行喉软化手术和双侧下颌骨牵引成骨术,术中用低温等离子射频刀消融短缩的杓会厌皱襞,术后气管插管3~5d。术前、术后3个月行多导睡眠呼吸监测评估(PSG)及气道CT检查。结果:6例患儿中4例术前需要吸氧,2例需无创呼吸机辅助通气治疗。手术平均年龄为40 d,术中均未损伤下牙槽神经血管束,术后均未出现口角歪斜等下颌缘支损伤表现。喉软化表现为混合型:Ⅱ型+Ⅲ型;最大下颌骨牵引延长距离20 mm,最小12 mm,平均16 mm;后气道间隙由术前平均3.5 mm增加到术后9.5 mm;AHI由平均5.65降至0.85,最低血氧饱和度由平均78%增加至95%。术后患儿均成功拔除气管插管,缺氧、喂养困难等喉梗阻症状均消失。结论:小下颌畸形伴喉软化新生儿存在多平面的气道梗阻,早期同时行喉软化术和下颌骨牵引成骨术安全可行,能有效解决患儿缺氧、喂养困难等喉梗阻症状,同时显著改善小下颌的外观。

[关键词] 皮罗综合征;喉软化;小下颌;下颌骨牵引

DOI: 10.13201/j.issn.2096-7993.2023.08.004

[中图分类号] R767.7 **[文献标志码]** A

The airway management and treatment of newborns with micrognathia and laryngomalacia

WANG Jing XU Mengrou JIN Lei GU Meizhen LI Xiaoyan

(Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, Shanghai Children's Hospital, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine, Shanghai, 200062, China)

Corresponding author: LI Xiaoyan, E-mail: chhshent@126.com

Abstract Objective: To explore the perioperative airway management and treatment of newborns with micrognathia and laryngomalacia. **Methods:** From January to December 2022, a total of 6 newborns with micrognathia and laryngomalacia were included. Preoperative laryngoscopy revealed concomitant laryngomalacia. These micrognathia were diagnosed as Pierre Robin sequences. All patients had grade II or higher symptoms of laryngeal obstruction and required oxygen therapy or non-invasive ventilatory support. All patients underwent simultaneous laryngomalacia surgery and mandibular distraction osteogenesis. The shortened aryepiglottic folds were ablated using a low-temperature plasma radiofrequency during the operation. Tracheal intubation was maintained for 3–5 days postoperatively. Polysomnography (PSG) and airway CT examination were performed before and 3 months after the surgery. **Results:** Among the 6 patients, 4 required oxygen therapy preoperatively and 2 required non-invasive ventilatory support. The mean age of patients was 40 days at surgery. The inferior alveolar nerve bundle was not damaged during the operation, and there were no signs of mandibular branch injury such as facial asymmetry after the surgery. Laryngomalacia presented as mixed type: type II + type III. The maximum mandibular distraction distance was 20 mm, the minimum was 12 mm, and the mean was 16 mm. The posterior airway space increased from a preoperative average of 3.5 mm to a postoperative average of 9.5 mm. The AHI decreased from a mean of 5.65 to 0.85, and the lowest oxygen saturation increased from a mean of 78% to 95%. All patients were successfully extubated after the surgery, and symptoms of laryngeal obstruction such as hypoxia and feeding difficulties disappeared. **Conclusion:** Newborns with micrognathia and laryngomalacia have multi-planar airway obstruction. Simultaneous laryngomalacia surgery and mandibular distraction osteogenesis are safe and feasible, and can effectively alleviate symptoms of laryngeal obstruction such as hypoxia and feeding difficulties, while significantly improving the appearance of micrognathia.

Key words pierre robin sequences; laryngomalacia; micrognathia; mandibular distraction osteogenesis

*基金资助:国家自然科学基金(No:82272270);上海市自然科学基金(No:22ZR1451700)

¹上海市儿童医院 上海交通大学医学院附属儿童医院耳鼻咽喉头颈外科(上海,200062)

通信作者:李晓艳,E-mail:chhshent@126.com

引用本文:汪景,徐梦柔,金蕾,等.新生儿小下颌畸形伴喉软化的气道管理及治疗[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,

2023,37(8):622-625,631.DOI:10.13201/j.issn.2096-7993.2023.08.004.

小下颌是一种常见的颜面部畸形,表现为下颌短小及下颌骨后缩。小下颌常见于皮罗综合征,皮罗综合征或皮罗序列征是指小下颌、舌根后坠、气道梗阻三联征,可伴有腭裂发生。皮罗综合征可单独发生,亦可见于其他综合征中。皮罗综合征因有小下颌舌根后坠压迫口咽部气道导致口咽部气道梗阻,从而引起患儿呼吸及喂养困难,对患儿生长发育影响极大,严重情况下需要及早行手术治疗^[1]。因此小下颌畸形不仅影响患儿的面容,更会影响患儿生长发育。目前常见的小下颌的手术治疗方法包括唇舌粘连术,舌根牵引术,及下颌骨牵引成骨术。有研究表明,下颌骨牵引成骨术能有效治疗小下颌患儿的气道梗阻问题^[2]。

小下颌畸形患儿除了有口咽部的气道梗阻,还常伴有喉软化发生,即伴有喉部的气道梗阻。而且,小下颌畸形的患儿因口咽部气道受阻存在喂养困难,常发生误吸及胃食管反流,而这些情况又会加重喉软化的严重程度,进一步加重气道梗阻^[3-4]。因此,小下颌畸形伴有喉软化的患儿气道管理变得尤为棘手及困难,相关研究报道不多。本研究报道本中心收治的小下颌畸形伴喉软化患儿的经验,在行小下颌手术治疗的同时进行喉软化的手术治疗,以及围手术期的喉软化治疗,从而有效解决小下颌畸形伴喉软化患儿的气道梗阻及喂养问题。

1 资料与方法

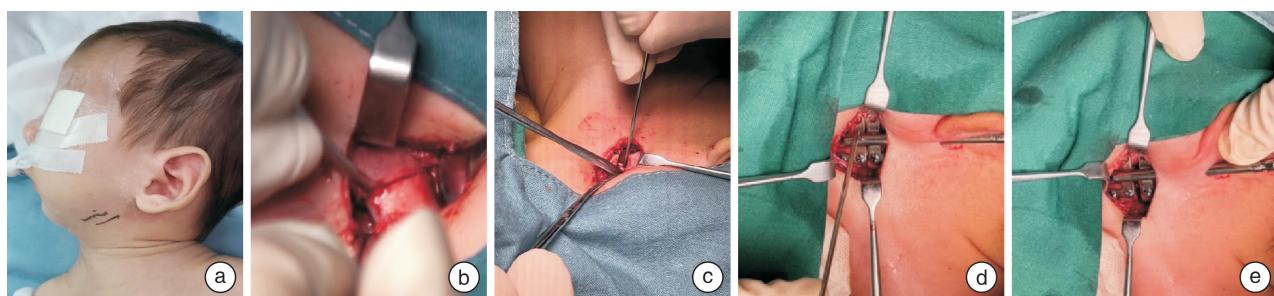
1.1 一般资料

本研究为回顾性研究,符合负责人体试验委员

会所制订的伦理学标准。2022年1—12月,我中心共纳入6例小下颌畸形伴喉软化新生儿,手术时平均年龄为40 d。本研究的纳入标准:发现呼吸及喂养问题在1个月龄以内的小下颌伴有喉软化的患儿,符合小下颌的诊断标准^[5]和喉软化的诊断标准^[6],且无排除标准内疾病。排除标准:伴有其他面部畸形如颅面裂、第一二鳃弓综合征、上颌骨发育畸形等;伴有其他喉气道及呼吸系统问题如声带麻痹、喉蹼、声门下狭窄、声门下血管瘤、先天性气管软化、气管畸形、肺发育不良等;伴有其他神经系统疾病如脑发育不良、脑积水等。

1.2 方法

1.2.1 手术过程 ①喉软化手术:仰卧位全麻气管插管,先进行喉软化手术,再行下颌骨手术。喉软化手术过程:支撑喉镜下,撑起下塌的会厌喉面,根据喉软化的分型,射频喉刀打断短缩的杓会厌皱襞,射频消融少量脱垂披裂外侧黏膜,避免损伤过多披裂黏膜^[7]。②下颌骨牵引手术:采用颈外径入,于下颌缘下1 cm处做3 cm与下颌缘平行的切口(图1a),分离皮下组织,注意保护面动静脉及颌下腺。分离至下颌骨表面,完整剥离骨膜,于下颌骨乙状切迹及角前切迹连线做切口,做下颌骨360°截骨(图1b),避免损伤下牙槽神经血管束(图1c)。确保下颌骨牵引器旋转良好后,安装下颌骨牵引器于下颌骨表面,6 mm螺钉固定牵引器(图1d)。术中旋转4圈牵引器从而分离下颌骨截骨两端间距约1.6 mm(图1e)。逐层缝合伤口。



a:手术切口线标记;b:下颌骨截骨;c:保护好下牙槽神经血管束;d:安装下颌骨牵引器;e:转动下颌骨牵引器。

图1 下颌骨牵引成骨术手术过程

1.2.2 手术后处理 ①喉软化术后抗返流的治疗:小下颌伴喉软化的患儿术前锝(^{99m}Tc)胃食管反流显像提示存在胃食管反流,部分患儿(本研究中2例)术后电子喉镜见披裂黏膜肿胀,提示术后仍存在胃食管反流。胸片见不同程度的肺部炎症改变,提示存在误吸的可能。针对这些患儿术后1周开始予以奥美拉唑0.5 mg/(kg·d)抑酸治疗3个月。②下颌骨牵引过程:下颌骨牵引过程:术后第2天开始旋转牵引器,每天2圈(0.8 mm),旋转40~60圈停止。

1.3 检测指标

1.3.1 睡眠呼吸及血氧饱和度监测 入组的患儿术前及术后3个月取出下颌骨牵引器时均行PSG检查,得到AHI及最低血氧饱和度值。

1.3.2 CT检测后气道间隙 咽喉部CT平扫行矢状位重建,测量矢状位上中线位置处舌根距离咽后壁之间的距离(术前与术后3个月取出下颌骨牵引器时)。

1.3.3 喉软化评估 术前及术后3个月行电子喉镜检查,明确喉软化分型。胃食管反流显像:锝

(^{99m}Tc)核素注射液,检查胃食管反流情况。

1.4 统计学处理

数据统计使用SPSS 20.0软件分析,采用t检验。 $P < 0.05$ 表示差异有统计学意义。

2 结果

2.1 病例资料

本研究纳入6例均为新生儿,4例患儿需持续低流量氧气吸入(0.5 L/min),2例需无创呼吸机辅助通气治疗。手术时平均年龄为40 d。术中均未损伤下牙槽神经血管束,术后均未出现口角歪斜等下颌缘支损伤表现。最大下颌骨牵引延长距

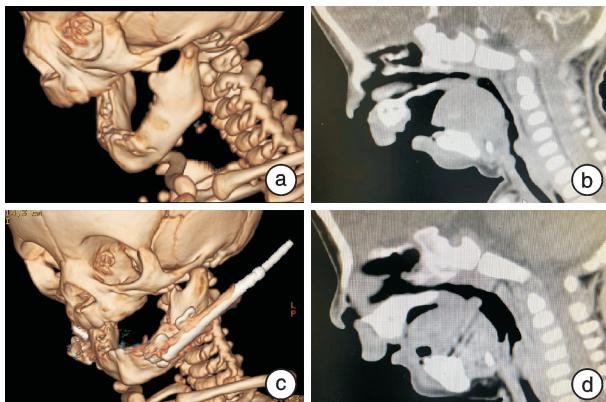
离20 mm,最小12 mm,平均16 mm;喉软化表现为混合型:Ⅱ型+Ⅲ型,见表1。

2.2 治疗效果

下颌骨牵引术后3个月复诊,CT检查见下颌骨向前生长明显,牵引间隙内骨生长良好(图2a)。舌根被向前牵拉,与术前相比后气道间隙增宽明显(图2b)。后气道间隙由术前平均3.5 mm增加到术后9.5 mm;AHI由平均5.65降至0.85,最低血氧饱和度由平均78%增加至95%。下颌骨牵引器植入术后5 d,患儿均成功拔除气管插管,牵引2周后缺氧、喂养困难等喉梗阻症状均消失,见表2。

表1 病例资料特征

项目	例1	例2	例3	例4	例5	例6	均值
手术时年龄/d	35	45	42	40	41	37	40
性别	男	男	女	女	男	女	/
下颌牵引距离/mm	16	14	12	16	18	20	16
喉软化分型	Ⅱ	Ⅱ	Ⅱ	Ⅱ+Ⅲ	Ⅱ+Ⅲ	Ⅱ	/



a:术前CT三维重建显示下颌骨形态;b:术前CT矢状位显示下颌骨形态及舌根后坠、后气道间隙;c:术后CT三维重建显示下颌骨形态;d:术后CT矢状位显示下颌骨形态及舌根后坠、后气道间隙。

图2 下颌骨牵引成骨术前和术后比较

表2 治疗效果

序号	后气道间隙/mm		最低血氧饱和度/%		AHI		
	术前	术后	术前	术后	术前	术后	
	3.5	9.6	79	95	5.6	0.6	
1	3.5	9.6	79	95	5.6	0.6	
2	4.2	11.0	83	98	4.5	0.6	
3	4.3	10.6	86	98	3.8	0.4	
4	3.5	9.0	74	95	6.8	0.8	
5	3.0	8.8	77	92	7.5	1.2	
6	2.5	8.0	69	92	—	1.5	
均值	3.5	9.5	78	95	5.65	0.85	
P	<0.01		<0.01		<0.01		

“—”为无法完成检测。

3 讨论

3.1 喉软化的处理

小下颌畸形伴喉软化的患儿,喉软化处理方式与单纯的喉软化不同。本研究发现这些患儿的喉软化类型为Ⅱ型和Ⅲ型的混合型。这些患儿的Ⅲ型喉软化会厌塌陷,是因为舌根后坠压迫会厌,舌根与会厌紧贴,导致会厌塌陷遮挡声门,与单纯的Ⅲ型喉软化会厌软骨自身卷曲塌陷不同。因此,这类患儿不需要行Ⅲ型喉软化手术即舌根会厌粘连术。同时,部分患儿存在披裂黏膜增厚脱垂的现象,而这些增厚的披裂黏膜,研究者认为与胃食管反流刺激有关,而非单纯Ⅰ型喉软化中的脱垂的披裂黏膜,这些披裂黏膜在经过抑酸治疗后可自行恢复正常,因此研究者不建议处理这些因为胃食管反流刺激暂时增厚的披裂黏膜。另一方面,因为这类患儿手术年龄均不到2个月,喉气管直径较小,处理披裂黏膜过多,有可能引起披裂黏膜术后的瘢痕粘连,导致更为棘手的声门上粘连狭窄。因此,对小下颌畸形伴喉软化的患儿,喉软化处理方式研究者建议以处理短缩的杓会厌皱襞为主即可,手术范围不宜过大,同时术后根据胃食管反流情况决定行抑酸治疗^[8-10]。

3.2 小下颌的处理

小下颌的治疗方法包括保守治疗及手术治疗。单纯的小下颌畸形可以先采取保守治疗,如侧卧或俯卧位,鼻咽通气管,腭板,无创呼吸机辅助通气治疗等^[1]。通常保守治疗只适用于轻度的小下颌畸形患儿,同时保守治疗对护理的要求较高,甚至需要较长时间在医院进行治疗和护理。而对于重度的小下颌,尤其是同时伴有喉软化的患儿由于喉软

化加重了气道梗阻,保守治疗往往无效。小下颌的手术治疗包括唇舌粘连术,舌根牵引术,及下颌骨牵引成骨术等。唇舌粘连术即将舌向前与下唇之间进行缝合,通过人为制造的伤口愈合,带动舌根向前从而缓解气道梗阻,据报道缓解气道梗阻的成功率在71%~89%^[11]。该手术的主要并发症在伤口的裂开,感染,唇部瘢痕及术后喂养问题。研究发现唇舌粘连术导致的术后需持续胃管喂养的风险是下颌骨牵引成骨术的3倍^[12]。另外,唇舌粘连术不能从根本上解决小下颌畸形的本身问题。本研究中采取的是下颌骨牵引成骨术。下颌骨牵引成骨术已经被证实是一种安全有效的治疗小下颌的方法^[13]。研究发现下颌骨牵引成骨术可以避免95%的气管切开术,87%的术后可以恢复经口进食^[14]。下颌骨牵引成骨术的并发症有下牙槽神经损伤、牙胚损伤、面神经损伤、植入牵引器感染等。本次纳入的6例患儿,术中均未损伤下牙槽神经血管束,术后均未出现口角歪斜等下颌缘支损伤表现,有1例患儿因术后反复呛奶,发生植入的牵引器感染,予以积极抗感染治疗后,完成牵引过程。因此,下颌骨牵引成骨术是一种安全有效的治疗这些小下颌畸形伴喉软化新生儿的方法^[15]。

3.3 小下颌畸形伴喉软化患儿的气道管理策略

我们的经验总结如下(图3):①这类患儿出生后即有上气道梗阻和喂养问题如反复呛咳,因此术前常有下呼吸道炎症,另外麻醉插管和手术会进一步加重术后肺部炎症。因此,围手术期的肺部炎症控制,是改善患儿呼吸问题,也是手术后能否成功和及时拔管的关键因素之一^[16]。本研究纳入的患儿中,术后采用万古霉素控制肺部炎症,取得良好的效果,均在术后拔除了气管插管。②术后拔管时机:有研究发现在新生儿单纯下颌骨牵引成骨术后即刻拔管安全可行^[17],但是需要密切观察,建议术前呼吸支持治疗。而针对本研究的小下颌研究对象,因同时行软化手术,因此我们采用术后3~5 d再拔管^[18],防止喉部因手术刺激导致的喉痉挛或水肿,同时防止形成声门上的瘢痕粘连狭窄。③这类患儿因为呼吸困难就诊,术前常需要吸氧,严重时需无创呼吸机辅助通气,我们在下颌骨牵引术中预牵拉1.6 mm,术后第2天即开始牵拉,采用快速牵拉的方法,这样可以快速将下颌骨和舌根向前牵拉,有利于术后快速打开口咽部气道,显著改善气道梗阻,这些纳入的患儿术后气道梗阻问题很快得到解决,术后1周均无需吸氧。因为新生儿骨生长能力强,不会因为快速牵拉导致牵拉间距内的骨不连等情况发生。④术后喉软化的抑酸治疗:小下颌伴喉软化的患儿部分术后仍存在不同程度的胃食管反流,导致披裂黏膜肿胀。针对这部分患儿术后1周开始予以奥美拉唑抑酸治疗3个月。

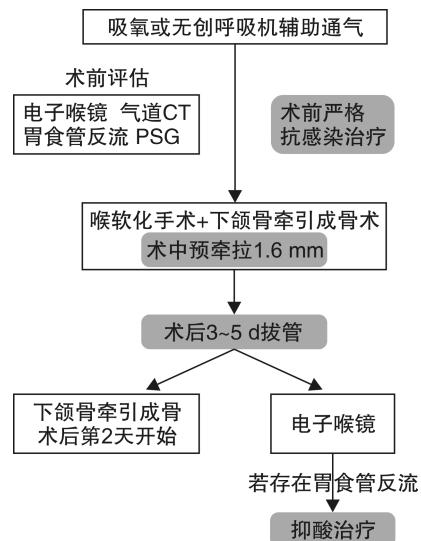


图3 新生儿小下颌伴喉软化的气道管理及治疗策略图

综上所述,小下颌畸形伴喉软化新生儿同时存在口咽部和喉部的气道梗阻,早期同时行Ⅱ型喉软化术和下颌骨牵引成骨术安全可行,能有效解决患儿缺氧、喂养困难等喉梗阻症状,同时显著改善小下颌的外观。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] Hsieh ST, Woo AS, Pierre Robin Sequence[J]. Clin Plast Surg, 2019, 46(2): 249-259.
- [2] Flores RL, Tholpady SS, Sati S, et al. The surgical correction of Pierre Robin sequence: mandibular distraction osteogenesis versus tongue-lip adhesion[J]. Plast Reconstr Surg, 2014, 133(6): 1433-1439.
- [3] Flores RL, Greathouse ST, Costa M, et al. Defining failure and its predictors in mandibular distraction for Robin sequence[J]. J Craniomaxillofac Surg, 2015, 43(8): 1614-1619.
- [4] Hammoudeh JA, Fahradyan A, Brady C, et al. Predictors of Failure in Infant Mandibular Distraction Osteogenesis[J]. J Oral Maxillofac Surg, 2018, 76(9): 1955-1965.
- [5] Giudice A, Barone S, Belhous K, et al. Pierre Robin sequence: A comprehensive narrative review of the literature over time[J]. J Stomatol Oral Maxillofac Surg, 2018, 119(5): 419-428.
- [6] 刘晓君,李晓艳.喉软化症的发病机制及相关疾病研究进展[J].国际耳鼻咽喉头颈外科杂志,2019,43(5):260-263.
- [7] 浦诗磊,李晓艳.改良声门上成形术治疗喉软化症的疗效评价[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2019,33(11):1072-1075,1080.
- [8] Carter J, Rahbar R, Brigger M, et al. International Pediatric ORL Group(IPOG) laryngomalacia consensus recommendations[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2016, 86: 256-261.

(下转第631页)

- [14] Calvin J, Budiardjo SB, Setyanto DB, et al. Head Posture and Facial Profile of Mouth Breathing Children Caused by Nasal Obstruction[J]. Journal of International Dental and Medical Research, 2017, 10: 594-599.
- [15] 张亚秋,祁祎皓,刘珂,等.腺样体肥大与牙颌面畸形的相关性研究[J].实用口腔医学杂志,2017,33(2):215-218.
- [16] 杨凯,曾祥龙,俞梦孙.口呼吸与鼻呼吸儿童颅面形态差异的研究[J].中华口腔医学杂志,2002,37(5):385-387.
- [17] 贾曼玉,邹世桢,李进让.儿童腺样体扁桃体肥大与肥胖相关性研究[J].中华耳鼻咽喉头颈外科杂志,2020,55(8):760-763.
- [18] 唐洁.腺样体肥大与扁桃体肥大引起的气道狭窄对颅颌面结构生长发育影响的差异[J].健康之友,2019,30(21):67-67.
- [19] 黄振云,刘大波,钟华敏,等.睡眠呼吸障碍儿童扁桃体及腺样体组织细菌学分析[J].中国耳鼻咽喉头颈外科,2017,24(3):116-119.
- [20] 柳荫,杨娜.腺样体肥大并发分泌性中耳炎儿童的淋巴细胞亚群分布[J].实用医学杂志,2017,33(14):2376-2379.
- [21] 杨凯,曾祥龙,俞梦孙.儿童呼吸方式与颅面、气道、牙颌形态的相关性研究[J].中华口腔医学杂志,2005,40(6):468-470.
- [22] Jain A, Sahni JK. Polysomnographic studies in children undergoing adenoidectomy and / or tonsillectomy[J]. J Laryngol Otol, 2002, 116(9):711-715.
- [23] Deng J, Gao X. A case-control study of craniofacial features of children with obstructed sleep apnea[J]. Sleep Breath, 2012, 16(4):1219-1227.
- [24] Souki MQ, Soukj BQ, Franco LP, et al. Reliability of subjective, linear, ratio and area cephalometric measurements in assessing adenoid hypertrophy among different age groups[J]. Angle Orthod, 2012, 82(6):1001-1007.

(收稿日期:2023-05-12)

(上接第 625 页)

- [9] Ramprasad VH, Ryan MA, Farjat AE, et al. Practice patterns in supraglottoplasty and perioperative care [J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2016, 86: 118-123.
- [10] 中国妇幼保健学会微创分会儿童耳鼻咽喉学组.儿童喉软化症诊断与治疗临床实践指南[J].临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2020,34(11):961-965.
- [11] Viezel-Mathieu A, Safran T, Gilardino MS. A Systematic Review of the Effectiveness of Tongue Lip Adhesion in Improving Airway Obstruction in Children With Pierre Robin Sequence[J]. J Craniofac Surg, 2016, 27(6):1453-1456.
- [12] Susarla SM, Mundinger GS, Chang CC, et al. Gastrostomy Placement Rates in Infants with Pierre Robin Sequence: A Comparison of Tongue-Lip Adhesion and Mandibular Distraction Osteogenesis[J]. Plast Reconstr Surg, 2017, 139(1):149-154.
- [13] Morrison KA, Collares MV, Flores RL. Robin Sequence: Neonatal Mandibular Distraction [J]. Clin Plast Surg, 2021, 48(3):363-373.
- [14] Zhang RS, Hoppe IC, Taylor JA, et al. Surgical Management and Outcomes of Pierre Robin Sequence: A

Comparison of Mandibular Distraction Osteogenesis and Tongue-Lip Adhesion[J]. Plast Reconstr Surg, 2018, 142(2):480-509.

- [15] Diep GK, Eisemann BS, Flores RL. Neonatal Mandibular Distraction Osteogenesis in Infants With Pierre Robin Sequence[J]. J Craniofac Surg, 2020, 31(4):1137-1141.
- [16] Xu Y, Tan Y, Zhang N, et al. A Standardized Extubation Schedule Reduces Respiratory Events After Extubation Following Mandibular Distraction in Infants [J]. J Oral Maxillofac Surg, 2021, 79(11):2257-2266.
- [17] Payne SH, Brady CM, Mercury OA, et al. Mandibular Distraction in Neonatal Pierre Robin Sequence: Is Immediate Extubation Both Feasible and Safe? [J]. Plast Reconstr Surg, 2022, 149(6):1155e-1164e.
- [18] Zhang RS, Lin LO, Hoppe IC, et al. Risk Factors for Perioperative Respiratory Failure following Mandibular Distraction Osteogenesis for Micrognathia: A Retrospective Cohort Study[J]. Plast Reconstr Surg, 2019, 143(6):1725-1736.

(收稿日期:2023-05-26)