https://doi.org/10.24060/2076-3093-2023-13-4-6

CC BY 4.0

Радикальное хирургическое лечение идиопатического стеноза трахеи. Клиническое наблюдение

А.А. Печетов, И.И. Данилов, Г.А. Вишневская*

Национальный медицинский исследовательский центр хирургии им А.В. Вишневского, Россия, Москва

* **Контакты:** Данилов Илья Игоревич, e-mail: ilya.dannilov@yandex.ru

Печетов Алексей Александрович — *к.м.н., отделение торакальной хирургии, orcid.org/0000-0002-1823-4396*

Данилов Илья Игоревич — *отделение торакальной хирургии, orcid.org/0000-0002-8624-190X*

Вишневская Галина Александровна — *ведущий научный сотрудник, отделение торакальной хирургии, orcid.org/0000-0002-2613-4395*

Аннотация

Введение. Идиопатический рубцовый стеноз трахеи (ИРСТ) — редкое опасное заболевание неустановленной этиологии, морфологическим субстратом которого выступает формирование циркулярного фиброзного стеноза, как правило, на уровне перстневидного хряща и первых двух полуколец трахеи. Первые случаи заболевания были описаны Brandenburg лишь в 1972 г. Прогрессирование заболевания носит медленный характер, вплоть до развития тяжелой дыхательной недостаточности и асфиксии. Методы лечения идиопатического рубцового стеноза трахеи включают в себя как эндоскопические, так и открытые хирургические методики. Несмотря на выбор, эндоскопическое лечение не приводит к желаемому эффекту. **Материалы и методы.** Нами выполнена трахеогортанная резекция как радикальный метод лечения идиопатического стеноза трахеи у пациентки 54 лет на фоне длительного безрезультатного эндоскопического лечения. Сроки наблюдения составили 45 дней. По данным обследований в послеоперационном периоде отмечена полная эпителизация линии анастомоза без явлений воспаления. **Результаты и обсуждение.** Несмотря на свою опасность и отсутствие значимых причин развития, ИРСТ — это потенциально излечимое заболевание, притом что лечение представляет сложную задачу. Часть авторов сообщает об удовлетворительных результатах эндоскопического лечения ИРСТ, но большинство публикаций, посвященных данной проблеме, указывают единовременную трахеогортанную резекцию с выполнением анастомоза наиболее оптимальным методом лечения, что соотносится с результатами нашего исследования. **Выводы.** Приведенное наблюдение характеризует особенность и возможность радикального лечения ИРСТ, поскольку эндоскопический метод лечения имеет лишь временный эффект. С учетом малого числа наблюдений и отсутствия стройной патогенетической теории необходимо продолжить дальнейшее изучение данной проблемы.

Ключевые слова: рубцовый стеноз трахеи, атрезия гортани, идиопатический стеноз трахеи, резекция трахеи, резекция гортани, трахеогортанный анастомоз

Для цитирования: Печетов А.А., Данилов И.И., Вишневская Г.А. Радикальное хирургическое лечение идиопатического стеноза трахеи. Клиническое наблюдение. Креативная хирургия и онкология. 2023;13(4):348–353. https://doi.org/10.24060/2076-3093-2023-13-4-6

Radical Surgical Treatment of Idiopathic Tracheal Stenosis. A Clinical Observation

Alexey A. Pechetov, Ilya I. Danilov, Galina A. Vishnevskaya*

A.V. Vishnevsky National Medical Research Center of Surgery, Moscow, Russian Federation

* **Correspondence to:** Ilya I. Danilov, e-mail: ilya.dannilov@yandex.ru

Alexey A. Pechetov — *Cand. Sci. (Med.), Thoracic Surgery Unit, orcid.org/0000-0002-1823-4396*

Ilya I. Danilov — *Thoracic Surgery Unit, orcid.org/0000-0002-8624-190X*

Galina A. Vishnevskaya — *Leading Researcher, Thoracic Surgery Unit, orcid.org/0000-0002-2613-4395*

Abstract

Introduction. Idiopathic cicatricial tracheal stenosis (ICTS) comprises a rare and dangerous disease of unknown etiology. Its morphological substrate consists in the formation of circular fibrotic stenosis, usually at the level of the cricoid cartilage and the first two C-shaped rings of the trachea. The first cases of the disease were described by Brandenburg only in 1972. Progression of the disease is slow, right up to severe respiratory failure and asphyxia. Treatment methods for idiopathic cicatricial tracheal stenosis include both endoscopic and open surgical techniques. However, endoscopic treatment fails to produce the desired effect. **Materials and methods.** The authors of the present paper performed tracheo-laryngeal resection as a radical method for treating idiopathic tracheal stenosis in a 54-year-old patient against the background of prolonged unsuccessful endoscopic treatment. The follow-up period accounted for 45 days. Examinations in the postoperative period showed complete epithelialization of the anastomosis line without inflammation. **Results and discussion.** Idiopathic cicatricial tracheal stenosis is considered to be a dangerous disease without significant causes of development. However, it is claimed to be a potentially curable disease, though its treatment is a difficult task. Some authors report satisfactory results of endoscopic treatment of ICTS, but most publications on this issue consider a single tracheo-laryngeal resection with anastomosis as the most optimal method of treatment, thereby correlating with the results of the present study. **Conclusion.** The present observation characterizes the peculiarity and possibility of radical treatment of ICTS, since the endoscopic method of treatment produces only a temporary effect. Small number of observations and lack of a coherent pathogenetic theory necessitate further research into this problem.

Keywords: cicatricial tracheal stenosis, laryngeal atresia, idiopathic tracheal stenosis, tracheal resection, laryngeal resection, tracheo-laryngeal anastomosis

For citation: Pechetov A.A., Danilov I.I., Vishnevskaya G.A. Radical surgical treatment of idiopathic tracheal stenosis. A clinical observation. Creative surgery and oncology. 2023;13(4):348–353. https://doi.org/10.24060/2076-3093-2023-13-4-6

ВВЕДЕНИЕ

Идиопатический рубцовый стеноз трахеи (ИРСТ) — редкое заболевание неизвестной этиологии, приводящее к формированию циркулярного фиброзного стеноза преимущественно на уровне перстневидного хряща и первых двух полуколец трахеи. Первые случаи заболевания были описаны Brandenburg лишь в 1972 г. [1]. В 1984 г. Havas и соавторы, а позже — в 1992 г. Maddaus с коллективом опубликовали исследования, включавшие серию аналогичных наблюдений [2, 3]. В 1992 г. Grillo сообщил о 49 пациентах с рубцовым стенозом трахеи (РСТ), причины которого не были установлены [4].

Несмотря на отсутствие действительной этиопатогенетической модели развития данного заболевания, в роли одного из провоцирующих механизмов рассматривают химическое раздражение слизистой гортани и трахеи на фоне аспирационного синдрома при гастроэзофагеальной рефлюксной болезни (ГЭРБ) [5]. К другим факторам относят гормонально-зависимые эффекты, аутоиммунный характер заболевания [5]. Предполагаемая частота его возникновения составляет 1:400 000, заболевание встречают исключительно среди женщин в возрасте от 30 до 50 лет [6–8].

Хотя прогрессирование заболевания носит медленный характер, в исходе его течения пациентам необходимо хирургическое лечение для восстановления проходимости дыхательных путей и повышения качества жизни [4–8]. Спектр предлагаемых методов хирургического лечения ИРСТ широк и включает в себя различные подходы и способы: от эндоскопических и этапных реконструктивно-пластических операций до радикальных резекционных. Недавние исследования показывают, что последние имеют лучшие отдаленные результаты и меньшую частоту рецидивов в сравнении с эндоскопическими методами лечения [9–11]. В данном клиническом наблюдении представлено радикальное хирургическое лечение пациентки с диагнозом ИРСТ после длительного периода нескольких неэффективных способов эндоскопической реканализации трахеи.

МАТЕРИАЛЫ И МЕТОДЫ

Клиническое наблюдение

Больная Ч., 54 лет, в июне 2022 г. поступила в отделение торакальной хирургии НМИЦ хирургии им. А.В. Вишневского с жалобами на затрудненное дыхание, одышку при физической нагрузке. Из анамнеза известно, что в 2011 г. впервые отметила данные жалобы. В 2013 г. была обследована, диагностирован стеноз гортани, трахеи. Известных провоцирующих факторов у пациентки не установлено. По данным представленного заключения видеотрахеоскопии выявлено сужение просвета от уровня подскладочного пространства (в 1 см от голосовых связок), протяженностью 2,5 см, просвет при этом 6 мм. Пациентке предложено бужирование, которое выполнено ассортиментом бужей от 0,7 до 1,4. Достигнут эффект, ремиссия в течение 6 месяцев. В 2014 г. повторное бужирование с аналогичной клинической картиной. Всего в 2014–2018 гг. больной выполнено 4 попытки реканализации просвета трахеи. Срок возникновения рецидива при этом с каждым обращением больной был короче. Радикального лечения не предлагали.

В отделении пациентке выполнено необходимое обследование в объеме мультиспиральной компьютерной томографии органов шеи и грудной клетки (МСКТ), видеотрахеоскопия.

По данным МСКТ органов шеи и грудной клетки с контрастным усилением на расстоянии 15 мм от уровня голосовых складок на протяжении 18 мм просвет трахеи деформирован и неравномерно сужен до 4 мм. Нижний край изменений на расстоянии 75 мм от бифуркации трахеи (рис. 1).

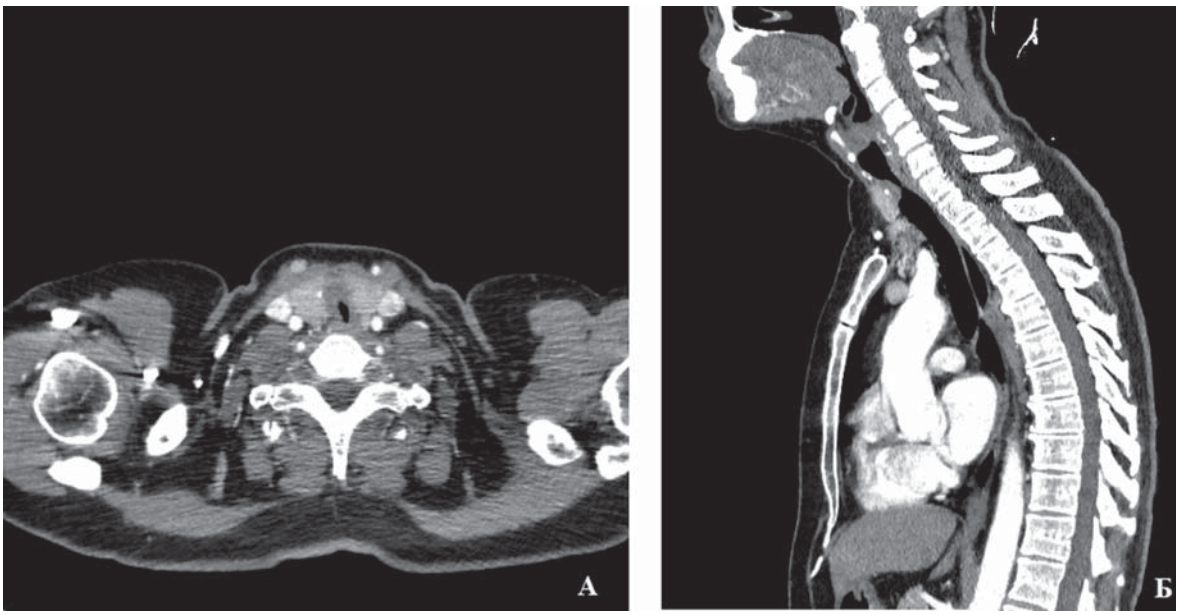

Рисунок 1. МСКТ органов шеи и грудной клетки. А — аксиальный срез, Б — сагиттальный. Визуализирован непротяженный подскладочный стеноз
Figure 1. MSCT of the neck and chest. A — axial view, Б — sagittal view. Non-extended subglottic stenosis is visualized

26.06.2023 г. операция: циркулярная резекция трахеи и гортани с формированием высокого трахеогортанного анастомоза. Трахеостомия. Положение на операционном столе: на спине с приведенными вдоль тела верхними конечностями, с валиком на уровне лопаток. Доступ: поперечная колотомия. Ход операции: выполнена мобилизация передней и боковой стенок трахеи и гортани. Циркулярно резецирован участок трахеи, включающий ее первые полукольца; печатка (передняя полуокружность) перстневидного хряща резецирована на 2/3, слизистая также резецирована по Maddaus. Протяженность резецированного участка до 4 см. Сформирован фигурный трахеогортанный анастомоз (рис. 3). Выполнена разгрузочная трахеостомия. Время операции 190 мин. Кровопотеря 50 мл.

По данным ларинготрахеоскопии на расстоянии около 15 мм ниже уровня истинных голосовых складок определен рубцовый стеноз. Просвет на данном участке неравномерно сужен, ориентировочно — до 4 мм, аппаратом непроходим (рис. 2).

Контрольная ларинготрахеоскопия выполнена на 8-е сутки после операции: на 1 см тотчас ниже уровня истинных голосовых складок визуализирован трахеогортанный анастомоз, последний состоятелен, диаметр просвета соответствует истинному диаметру (рис. 4).

После трахеоскопии была удалена трахеостома. На 14-е сутки пациентка выписана в удовлетворительном состоянии.

При контрольном осмотре через 45 дней пациентка отмечает свободное дыхание, отсутствие одышки, по данным ларинготрахеоскопии — просвет анастомоза соответствует истинному диаметру, без воспалительных изменений. При МСКТ признаков рестеноза нет (рис. 5).

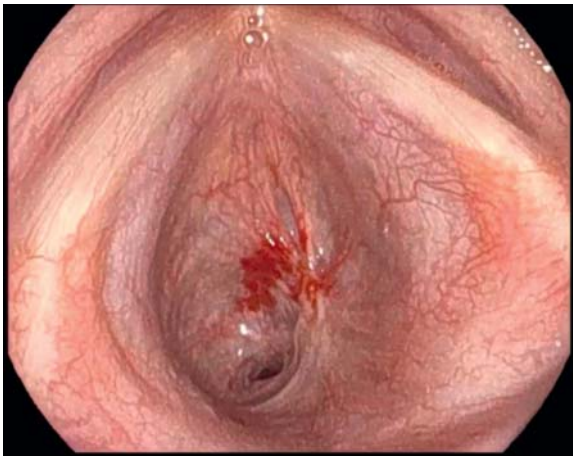

Рисунок 2. Видеотрахеоскопия. Атрезия подскладочного отдела гортани. Далее проведение бронхоскопа невозможно
Figure 2. Videotracheoscopy. Atresia of the subglottic larynx. Further bronchoscopy is impossible

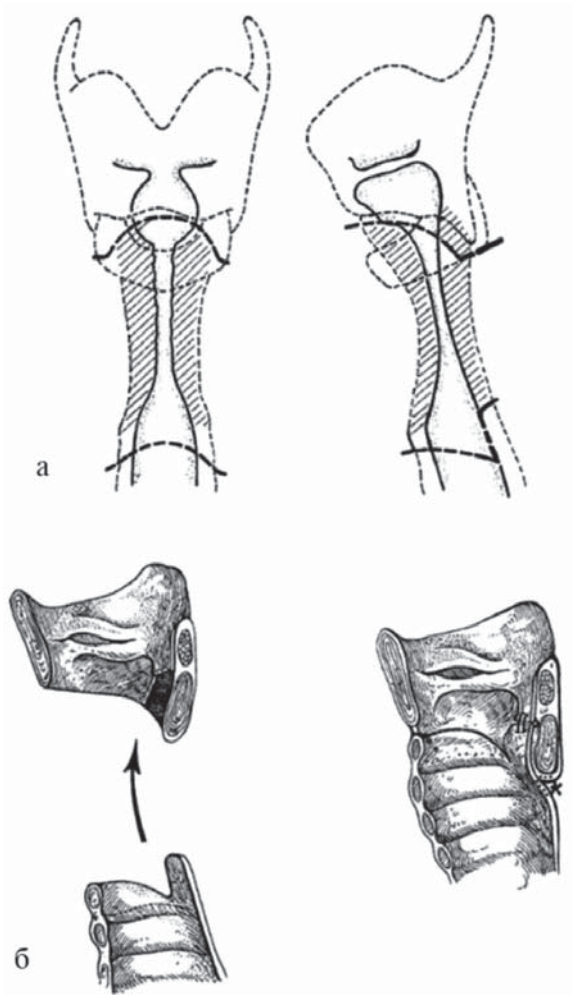

Рисунок 3. Схема трахеогортанного анастомоза после резекции перстневидного хряща, в модификации Maddaus [4]
Figure 3. Tracheo-laryngeal anastomosis after Maddaus resection of cricoid cartilage [4]

РЕЗУЛЬТАТЫ И ОБСУЖДЕНИЕ

Идиопатический рубцовый стеноз трахеи — редкое заболевание (1:400 000), развитие которого, как правило, отмечают у пациентов женского пола в возрасте от 30 до 50 лет, что коррелирует с данными нашего наблюдения [6–8, 12]. Хотя этиопатогенез заболевания подлинно неизвестен, отдельные авторы в связи с такой встречаемостью ИРСТ среди женщин рассматривали в качестве важного фактора уровень эстрогенов. В настоящий момент большинство исследований не выявили доказательств существования рецепторов эстрогена в зоне развития ИРСТ [13]. Damrose в своей работе предположил, что развитие ИРСТ связано с длительным и сильным кашлевым синдромом, возникающим при длительно текущей инфекции верхних дыхательных путей — это приводит к нарушению кровоснабжения и длительной ишемии в зоне трахеогортанного перехода, что, в свою очередь, приводит к формированию фиброза в данной зоне [12]. Другая теория развития ИРСТ связана с длительно поддерживаемым хроническим воспалением указанной зоны на фоне аспирации содержимого желудка у пациентов с ГЭРБ. В частности, у ряда пациентов с ИРСТ отмечали ГЭРБ различной степени выраженности, и их состояние

Рисунок 4. Контрольная ларинготрахеоскопия: зона анастомоза гортани и трахеи полностью эпителизирована. Незначительные участки фибрина. В просвете трахеи видно колено трахеостомы
Figure 4. Control laryngotracheoscopy: area of tracheo-laryngeal anastomosis is completely epithelialized. Minor areas of fibrin. Tracheostomy is seen in the tracheal lumen

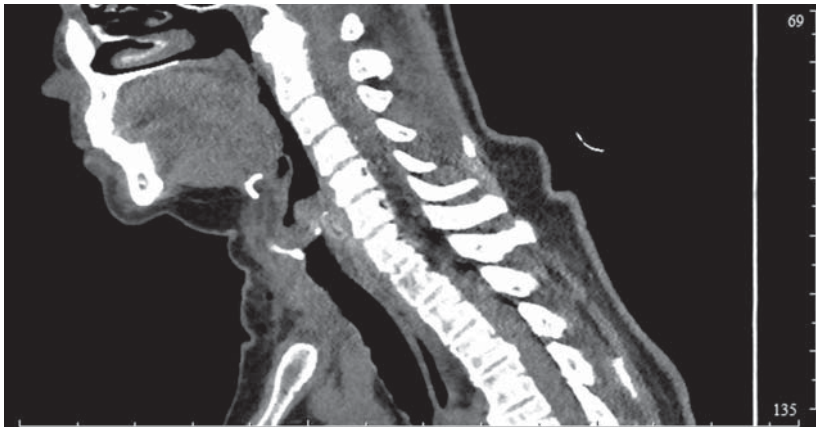

Рисунок 5. Контрольная МСКТ органов шеи и грудной клетки через 1 месяц — просвет гортани и трахеи соответствует анатомическому
Figure 5. Control MSCT of the neck and chest after 1 month — the lumen of the larynx and trachea corresponds to the anatomical lumen

в некоторой степени улучшилось после начала лечения антирефлюксными препаратами [12]. В общей сложности лишь 5 % всех наблюдений РСТ не имеют четко определенных причин развития, что возможно интерпретировать как истинный ИРСТ [12].

Лечение идиопатического стеноза представляет собой сложную задачу. Во многом это зависит от такого набора субъективных и объективных факторов, как: оснащенность клиники, навыки операций на трахее и гортани, слаженное действие персонала, наличие или отсутствие абсолютных противопоказаний к хирургическому лечению, острота и скорость развития дыхательной недостаточности, протяженность стеноза. Отдельные авторы сообщают об удовлетворительных результатах эндоскопического лечения ИРСТ [14]. Однако большинство исследователей данной проблемы лучшим методом лечения считают единовременную трахеогортанную резекцию с выполнением анастомоза, так как она имеет лучшие отдаленные результаты и меньшую частоту рецидивов в сравнении с эндоскопическими методами лечения [15]. Действительно, представленную в нашем наблюдении пациентку на протяжении 10 лет подвергали многократному эндоскопическому лечению, которое не давало длительного стабильного клинического эффекта, способствовало лишь временному улучшению качества жизни, формированию тяжелого фиброзного процесса перитрахеально. Одномоментное хирургическое лечение в объеме резекции трахеи и гортани с формированием анастомоза с учетом объективных условий для его возможного выполнения (сохраненная иннервация гортаноглотки, непротяженный стеноз трахеи или возможность ее широкой мобилизации, отсутствие рубцового поражения зоны голосовых складок, отсутствие критического состояния пациента, являющегося абсолютным противопоказанием к одноэтапному лечению) выступает единственным радикальным методом лечения ИРСТ. При наличии четких показаний данный метод необходимо рассматривать как метод выбора.

ВЫВОДЫ

1. Несмотря на свою опасность и отсутствие значимых причин развития, ИРСТ — это потенциально излечимое заболевание. Длительное этапное эндоскопическое лечение ИРСТ не должно выступать методом выбора у пациентов с наличием показаний к одноэтапному хирургическому лечению.
2. Эндоскопическое лечение не может быть операцией выбора у данной группы больных, имея лишь временный эффект.
3. Радикальная резекция трахеи и гортани с измененными тканями может быть единственно верным лечением, то есть операцией одного шанса.
4. Альтернативным методом может служить эндоскопическая реконструктивно-пластическая операция с установкой Т-образного стента и последующей трахеопластикой, но может быть показана полностью комплаентным пациентам, поскольку требует длительного ношения и ухода за стентом, социальную адаптацию на время лечения.

Информированное согласие. Информированное согласие пациента на публикацию своих данных получено.
Statement of informed consent. Written informed consent was obtained from the patient for publication of this case report and accompanying materials.
Информация о конфликте интересов. Конфликт интересов отсутствует.
Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.
Информация о спонсорстве. Данная работа не финансировалась.
Sponsorship data. This work is not funded.

Статья написана к I Евразийскому конгрессу торакальных хирургов, 11–13 декабря 2023 г., Уфа.
This article was prepared for the 1st Eurasian Congress of Thoracic Surgeons, December 11–13, 2023, Ufa.

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ / REFERENCES

1 Brandenburg J.H. Idiopathic subglottic stenosis. Trans Am Acad Ophthalmol Otolaryngol. 1972;76(5):1402–6. PMID: 4666597

2 Havas T., Dodd M., Weldon B., Benjamin B., Pigott P. A case report of subglottic stenosis. Aust N Z J Surg. 1984;54(3):291–4. DOI: 10.1111/j.1445-2197.1984.tb05320.x

3 Maddaus M.A, Toth J.L.R, Gullane P.J., Pearson F.G. Subglottic tracheal resection and synchronous laryngeal reconstruction. J Thorac Cardiovasc Surg. 1992;104(1):1443–50. PMID: 1434728

4 Grillo H.C. Primary reconstruction of airway after resection of subglottic laryngeal and upper tracheal stenosis. Ann Torac Surg. 1982;33(1):3–18. DOI: 10.1016/s0003-4975(10)63191-8

5 Cardoso P.F.G., Minamoto H., Bibas B.J., Pego-Fernandes P.M. Impact of gastroesophageal reflux in the pathogenesis of tracheal stenosis. Transl Cancer Res. 2020;9(3):2123–35. DOI: 10.21037/tcr.2020.03.24

6 Hintze J.M., Fitzgerald C.W., O'Riordan I., Keane E., Kinsella J., Timon C. Idiopathic subglottic stenosis — a familial association and review of practice. J Laryngol Otol. 2022;136(12):1275–7. DOI: 10.1017/S0022215122001049

7 Di Felice C., Alraiyes A.H., Gillespie C., Machuzak M., Gildea T.R., Sethi S., et al. Short-term endoscopic outcomes of balloon and rigid bronchoplasty in the management of benign subglottic and tracheal stenosis. J Bronchology Interv Pulmonol. 2023;30(1):54–9. DOI: 10.1097/LBR.0000000000000852. PMID: 35696593

8 Pasick L.J., Anis M.M., Rosow D.E. An Updated review of subglottic stenosis: etiology, evaluation, and management. Curr Pulmonol Rep. 2022;11(2):29–38. DOI: 10.1007/s13665-022-00286-6

9 Aleksanyan A., Stoelben E. Laryngo-tracheal resection as an alternative to permanent tracheostomy. Pneumologie. 2019;73(4):211–8. DOI: 10.1055/a-0809-0232

10 Aravena C., Almeida F.A., Mukhopadhyay S., Ghosh S., Lorenz R.R., Murthy S.C., et al. Idiopathic subglottic stenosis: a review. J Thorac Dis. 2020;12(3):1100–11. DOI: 10.21037/jtd.2019.11.43

11 Ashiku S.K., Kuzucu A., Grillo H.C., Wright C.D., Wain J.C., Lo B., et al. Idiopathic laryngotracheal stenosis: effective definitive treatment with laryngotracheal resection. J Thorac Cardiovasc Surg. 2004;127(1):99–107. DOI: 10.1016/j.jtcvs.2002.11.001

12 Evermann M., Schweiger T., Roesner I., Denk-Linnert D.M., Klepetko W., Hoetzenecker K. Established and innovative surgical techniques for the treatment of benign subglottic stenosis. Transl Cancer Res. 2020;9(3):2136–41. DOI: 10.21037/tcr.2020.02.76

13 Salcedo Lobera E., Páez Codeso F.M., Dorado Galindo A. Familial idiopathic tracheal subglottic stenosis: Description of three cases. Med Clin (Barc). 2023;161(5):225–6. DOI: 10.1016/j.medcli.2023.04.028

14 Shabani S., Hoffman M.R., Brand W.T., Dailey S.H. Endoscopic management of idiopathic subglottic stenosis. Ann Otol Rhinol Laryngol. 2017;126(2):96–102. DOI: 10.1177/0003489416675357

15 Costantino C.L., Mathisen D.J. Idiopathic laryngotracheal stenosis. J Thorac Dis. 2016;8(Suppl 2):S204–9. DOI: 10.3978/j.issn.2072-1439.2016.01.71