

Manejo multidisciplinar de la patología subglótica: revisión a 5 años

I. Miró, C. Gutiérrez, R. Fonseca, J.E. Barrios, E. Carazo, A. Alamar, I. Ibáñez, J. López, P. Ortolá, J.J. Vila

Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitari i Politècnic La Fe. València

RESUMEN

Objetivos. La patología del espacio subglótico en pacientes pediátricos sigue representando un reto a la hora de elegir el tratamiento idóneo. Presentamos el manejo de los pacientes seguidos en nuestro centro por este motivo durante los últimos 5 años.

Material y métodos. Estudio retrospectivo de los pacientes seguidos por patología glotosubglótica (estenosis, quistes o granulomas) entre 2011 y 2016 en un centro de tercer nivel.

Resultados. Veintisiete pacientes fueron incluidos en la revisión. Las opciones de tratamiento variaron en función de la naturaleza, la localización y la gravedad de la afectación subglótica. Dos pacientes con estenosis subglótica congénita fueron tratados mediante laringotraqueoplastia. Se incluyeron 17 pacientes con estenosis subglótica adquirida: en uno (5,9%) se realizó laringotraqueoplastia, en uno (5,9%) *split* cricotróideo, dos de ellos (11,8%) se intervinieron mediante resección cricotraqueal parcial (PCTR), siete pacientes (41,2%) se sometieron a microcirugía, tres (17,6%) recibieron dilatación traqueal y los tres últimos (17,6%) se sometieron a observación sin necesitar finalmente tratamiento. Cinco pacientes con quistes subglóticos postintubación recibieron microcirugía. De tres pacientes diagnosticados de granuloma subglótico postintubación, dos (66%) se resolvieron espontáneamente y uno (33%) requirió microcirugía.

Conclusiones. El manejo de la patología subglótica pediátrica sigue representando un gran desafío. Desde la creación del Comité de Vía Aérea en nuestro centro, la mejoría en la gestión de estos pacientes ha conducido a un manejo multidisciplinar de los mismos, con el consiguiente impacto en los resultados clínicos.

PALABRAS CLAVE: Estenosis subglótica; Laringotraqueoplastia; Resección cricotraqueal.

MULTIDISCIPLINARY APPROACH ON SUBGLOTTIC PATHOLOGY: A 5-YEAR REVIEW

ABSTRACT

Introduction. Pediatric subglottic pathology still represents a challenge when it comes to choosing the right treatment. We present the management of patients followed in our center for this reason during the last 5 years.

Material and methods. Retrospective study of patients followed by glotosubglottic pathology (stenosis, cysts or granulomas) between 2011 and 2016 in a third level hospital.

Results. Twenty-seven patients were included in the review. Treatment options varied according to the nature, location and severity of the subglottic stenosis. Two patients with congenital subglottic stenosis were treated by laryngotracheoplasty. Seventeen patients with acquired subglottic stenosis were included: in one (5.9%) laryngotracheoplasty was performed, one (5.9%) received cricotracheal split, two of them (11.8%) underwent partial cricotracheal resection (PCTR), seven patients (41.2%) underwent microsurgery, three (17.6%) received tracheal dilatation, and the last three (17.6%) were submitted to observation without needing further treatment. Five patients with post-intubation subglottic cysts received microsurgery. Of three patients diagnosed with post-intubation subglottic granuloma, two (66%) resolved spontaneously and one (33%) required microsurgery.

Conclusions. Management of pediatric subglottic pathology remains a major challenge. Since the creation of the Airway Committee in our center, the improvement in the management of these patients has led to a multidisciplinary management, with the consequent impact on the clinical results.

KEY WORDS: Subglottic stenosis; Laryngotracheoplasty; Cricotracheal resection.

INTRODUCCIÓN

La patología subglótica pediátrica representa un verdadero reto a la hora de buscar la mejor solución terapéutica, debido a su asociación a otras patologías, a la dificultad en su corrección y a las complicaciones relacionadas con la traqueostomía. El diagnóstico precoz juega un papel fundamental, y en un paciente con estridor u otros síntomas respiratorios y el antecedente de intubación traumática o prolongada, está

Correspondencia: Dr. Ignacio Miró Rubio. Hospital Universitari i Politècnic La Fe. Avda. de Fernando Abril Martorell, 106. 46026 València
E-mail: ignemiro@hotmail.com

Trabajo presentado en el LVI Congreso Nacional de Cirugía Pediátrica celebrado en Madrid en Mayo de 2017

Recibido: Mayo 2017

Aceptado: Febrero 2018

Tabla I. Pacientes con patología subglótica incluidos en la revisión.

Diagnóstico	Número de casos	Tratamientos aplicados
Estenosis subglótica congénita	2	2 laringotraqueoplastias con injerto costal
Estenosis subglótica adquirida (postintubación)	17	1 laringotraqueoplastia con injerto costal
		1 <i>split</i> cricotiroido con injerto costal
		7 microcirugía ORL (láser + dilatación con balón en todos ellos)
		3 dilatación traqueal
		3 observación sin tratamiento
Quistes subglóticos postintubación	5	2 resección cricotraqueal parcial (PCTR)
Granuloma subglótico postintubación	3	5 microcirugía ORL: marsupialización (5)
		1 microcirugía ORL: resección (1)
		2 observación sin tratamiento

indicado realizar una exploración de vía aérea para descartar anomalías a ese nivel.

Una vez realizado el diagnóstico, la actitud a tomar variará en función del tipo de patología que encontremos, de la gravedad y longitud de la afectación y de las comorbilidades que presente el paciente.

Esta decisión no siempre es sencilla, y exige la estrecha colaboración de diferentes especialidades para decidir la actitud terapéutica óptima. Con este fin, se decidió crear el Comité de Vía Aérea Pediátrico del Hospital La Fe, donde diferentes especialidades (Cirugía Pediátrica, Neumología Infantil, Otorrinolaringología Infantil, Anestesia Infantil, Cuidados Intensivos Pediátricos y Neonatales, Cirugía Maxilofacial Infantil... entre otros) colaboran en pos de este objetivo.

La finalidad de este trabajo es revisar los casos de pacientes con patología subglótica que han sido tratados en nuestro centro en los últimos 5 años, y que han recibido un tratamiento multidisciplinar a través del Comité de Vía Aérea Pediátrica.

MATERIAL Y MÉTODOS

Revisión retrospectiva de los pacientes pediátricos con patología subglótica que han sido seguidos por este motivo en nuestro centro entre los años 2011 y 2016.

Los casos fueron comentados por especialistas de diferentes áreas en el marco del Comité de Vía Aérea y seguidos en consulta de Neumología, Cirugía Pediátrica y Otorrinolaringología Infantil cada 2-3 meses, con realización de pruebas complementarias según procediese (impedanciometría, pruebas de función respiratoria, pruebas de imagen, cultivos de secreciones y de traqueostomía).

Los tratamientos se asignaron en base al tipo de patología (estenosis, granulomas o quistes subglóticos), su etiología (congénita o adquirida) y las comorbilidades del paciente (alteraciones cardiológicas, neurológicas, digestivas, etc.).

En el caso de las estenosis subglóticas, la clasificación de Myer-Cotton⁽¹⁾, que clasifica a los pacientes afectados de esta patología en 4 estadios según el grado de disminución de la luz subglótica, ayudó a la hora de asignar tratamientos

en función de la gravedad de la estenosis que presentaban los pacientes.

Las exploraciones de vía aérea fueron llevadas a cabo en quirófano bajo anestesia general. El examen diagnóstico de vía aérea se realizó directamente con la óptica de Hopkins® de 30° (Storz), sin introducción previa de broncoscopio rígido. Para las dilataciones endotraqueales, se utilizaron tubos de intubación orotraqueal (Rusch®) sin balón de calibre progresivo hasta conseguir el efecto deseado sobre la estenosis del paciente. Las cánulas de traqueostomía (Shiley®) usadas fueron, asimismo, sin balón.

RESULTADOS

Se siguieron un total de 27 pacientes con patología subglótica (Tabla I); el tiempo medio de seguimiento fue de 14,3 meses (9,7-18,9).

De estos 27 pacientes, 25 de ellos (92,6%) presentaban patología adquirida como consecuencia de una intubación orotraqueal dificultosa, prolongada o traumática. Los 2 casos restantes (7,4%) presentaban estenosis congénita de la luz subglótica.

El síntoma más frecuente de presentación fue el estridor (presente en 23 pacientes, 85,2%). 8 pacientes (29,6%) fueron diagnosticados a raíz del estudio iniciado por dificultad para su extubación en la Unidad de Cuidados Intensivos.

Entre las comorbilidades asociadas, destacaron las cardiopatías (6 casos, 22,2%) y la prematuridad (7 pacientes, 31,8%). Se estudió el reflujo gastroesofágico en 14 pacientes mediante impedanciometría, siendo positivo en 4 de ellos (4,8%) y consiguientemente tratado, precisando en 1 de los casos (25% de los RGE) funduplicatura de Nissen por fracaso del tratamiento conservador.

Todos los tratamientos fueron llevados a cabo por cirujanos del Servicio de Cirugía Pediátrica de nuestro centro, salvo los tratamientos de microcirugía (especificados como tal en la Tabla I), que estuvieron a cargo del Servicio de Otorrinolaringología Infantil.

Se siguieron un total de 17 pacientes con diagnóstico de estenosis subglótica adquirida, debida a intubación prolongada

Tabla II. Características de los pacientes con estenosis subglótica.

Edad en años (media y desviación estándar)	Sexo (V:M)	Afectación concomitante glótica	Traqueostomía previa	Cirugía previa en otro centro	Grado de Cotton
5,8 (3,4-8,2)	11:6	2 (11,8%)	8 (47,1%)	3 (17,6%)	Grado I: 6 (35,3%) Grado II: 7 (41,2%) Grado III: 2 (11,8%) Grado IV: 2 (11,8%)

V: varón; M: mujer.

o traumática. En aquellos pacientes que además de la afectación subglótica asociaban afectación de la glotis se llevó a cabo una resección cricotraqueal parcial (PCTR), asociando a la ampliación de la luz de la vía aérea (mediante la interposición del cartílago costal) una resección de la zona estenótica.

En el resto de pacientes con estenosis subglóticas adquiridas los tratamientos se asignaron en base a la clasificación de Myer-Cotton, de tal forma que las técnicas endoscópicas (microcirugía con láser CO₂) eran indicadas para grados I-II mientras que grados superiores (III-IV) se beneficiaron de técnicas quirúrgicas reconstructivas de vía aérea (Tabla II).

Los pacientes estuvieron un tiempo medio en UCI tras la intervención de 2,2 días (desviación estándar 2,1 días), siendo sensiblemente mayor en aquellos pacientes grado III o IV (5,3 días, sd 2,2). El tiempo medio de intubación postoperatoria de estos últimos pacientes fue de 4,4 días (sd 2,7). Hubo 2 casos de neumonía asociada al ventilador.

Los dos pacientes con estenosis subglótica congénita fueron tratados mediante laringotraqueoplastia con injerto de cartílago costal: uno de los casos se realizó con interposición anterior de cartílago, mientras que el otro precisó injerto de cartílago anterior y posterior. Fueron extubados al 3^{er} y al 7^o día, respectivamente, si bien la estancia media en UCI fue de 11 días debido a complicaciones infecciosas.

Los pacientes con granulomas subglóticos como consecuencia de intubaciones traumáticas, repetidas o prolongadas, fueron seguidos; en dos de ellos (66,6%) desaparecieron sin necesidad de medidas adicionales mientras que el tercer caso (33,3%) sí necesitó microcirugía (láser CO₂) para su extirpación.

Los cinco casos de quistes subglóticos también requirieron microcirugía (marsupialización en todos ellos) para su resolución, realizada por parte del Servicio de Otorrinolaringología Infantil. Tras una estancia inicial en UCIP de 24 horas, los pacientes fueron dados de alta a las 48 horas sin complicaciones reseñables.

Se realizó un seguimiento clínico y endoscópico de los pacientes para vigilar su evolución. 18 de los 27 (66,7%) pacientes mostraron una rápida mejoría tras la cirugía inicial y no requirieron intervenciones adicionales, siendo fundamentalmente casos leves (88,9%). De los pacientes con estenosis subglótica adquirida, 5 (29,4%) necesitaron una o varias dilataciones traqueales tras el tratamiento inicial. De los dos pacientes con estenosis glotosubglóticas, tratados mediante

PCTR y en un inicio portadores ambos de traqueostomía, en uno se logró la decanulación, mientras que la evolución clínica en el otro es a día de hoy favorable, con correcta funcionalidad laríngea al ocluir la cánula de traqueostomía.

DISCUSIÓN

La patología subglótica pediátrica engloba varias entidades que tienen en común la reducción de la luz del espacio subglótico. Su origen puede ser congénito o adquirido. La estenosis subglótica congénita, menos frecuente que la adquirida, supone una disminución de la luz subglótica desde el nacimiento (un diámetro subglótico de 4 mm o menor). La patología adquirida, por el contrario, tiene su origen más frecuente en las intubaciones traumáticas o repetidas que provocan una agresión sobre la mucosa laringotraqueal, la cual acaba provocando una reducción del diámetro de la luz. La incidencia de estenosis subglótica adquirida como consecuencia de intubación se estima entre un 1 y un 8%⁽²⁾.

El diagnóstico de sospecha se realiza en base a la clínica (estridor, dificultad respiratoria, dificultad para la extubación), pruebas complementarias (la resonancia magnética o la tomografía computarizada pueden ser de utilidad) y fundamentalmente el examen directo de la vía aérea mediante técnicas endoscópicas^(3,4). Es, asimismo, importante descartar otras patologías concomitantes, como la presencia de reflujo gastroesofágico, que puede no solo exacerbar la clínica respiratoria del paciente sino comprometer el posible éxito de una futura cirugía⁽⁵⁻⁷⁾.

Una vez realizado el diagnóstico, la actitud a seguir variará en función de la edad del paciente, del tipo de patología (estenosis, granulomas, quistes), su origen (congénito o adquirido), la gravedad (clasificación Myer-Cotton para la estenosis subglótica), la consistencia (en el caso de las estenosis) y la presencia de comorbilidades a otros niveles (respiratorias, cardíacas, neurológicas, etcétera). Es recomendable que estos pacientes se manejen de forma multidisciplinar, involucrando a profesionales de distintas especialidades (Cirugía Pediátrica, Neumología Infantil, Otorrinolaringología Infantil, Cuidados Intensivos Pediátricos y Neonatales, Anestesiología Pediátrica, Cirugía Maxilofacial Infantil) con el objetivo de encontrar la solución óptima para cada caso particular.

Los tratamientos aplicables se dividen en dos grandes grupos: técnicas endoscópicas (fundamentalmente dilatación con

balón o tubos endotraqueales progresivos, y microcirugías con láser⁽⁸⁻¹⁰⁾ y técnicas quirúrgicas reconstructivas de vía aérea, que incluyen procedimientos que implican la expansión y/o resección del segmento estenótico⁽¹¹⁻¹⁷⁾. En el caso de las estenosis subglóticas, los tratamientos endoscópicos se reservan para aquellos casos más moderados (estenosis grado I-II), mientras que estenosis mayores (a partir de grado II-III) requerirán un abordaje más agresivo, como laringotraqueoplastia, PCTR o traqueoplastia de deslizamiento⁽¹⁸⁾. En nuestra muestra se realizaron 4 cirugías abiertas de entrada, todas ellas en pacientes con estenosis severas: una laringotraqueoplastia con injerto⁽¹⁹⁻²¹⁾, un *split* cricotiroides con injerto y dos resecciones cricotraqueales parciales. Los pacientes con grados menores de estenosis recibieron tratamiento con microcirugía, mediante la incisión de la estenosis con láser acompañada en el mismo procedimiento de dilatación con balón.

Para estenosis subglóticas adquiridas diagnosticadas de forma precoz, que aún mantienen una consistencia blanda o cartilaginosa, las dilataciones traqueales constituyen una buena opción terapéutica^(22,23). En nuestro centro dichas dilataciones se realizan actualmente de forma mayoritaria con la ayuda de tubos endotraqueales de calibre progresivo, si bien la dilatación con balón es una opción muy extendida en otros lugares. Tiene también su papel como complemento de la cirugía abierta⁽²⁴⁾, si tras la realización de la misma existe una recidiva de la estenosis. En nuestra serie, además de los tres pacientes que recibieron dilatación como tratamiento inicial, otros cinco pacientes requirieron dilataciones en el curso de su evolución, incluyendo a los dos pacientes con estenosis glotosubglótica en los que se realizó como cirugía inicial una PCTR con molde intratraqueal⁽²⁵⁻²⁸⁾.

El uso de *stents* o moldes intratraqueales está indicado en aquellos pacientes con estenosis subglótica grado III-IV que además asocian afectación glótica o comorbilidades importantes. La retirada del *stent* se realiza sobre las 4-6 semanas tras la cirugía inicial, a través de un abordaje endoscópico.

En el caso de las estenosis subglóticas congénitas, el papel de las técnicas endoscópicas es prácticamente nulo y se aboga por una cirugía reconstructiva de entrada, como una laringotraqueoplastia con injerto de cartílago costal⁽²⁹⁾. En nuestra muestra, los dos pacientes con este diagnóstico recibieron una laringotraqueoplastia, uno de ellos con injerto anterior y el segundo con injerto tanto anterior como posterior. En el segundo de los casos, se dejó además un *stent* intratraqueal.

Existen otras lesiones adquiridas relacionadas con la intubación, como la presencia de quistes o granulomas subglóticos. El tratamiento de los quistes se realiza a través de técnicas de microcirugía laríngea, realizando marsupialización de los mismos⁽³⁰⁾, como se aplicó en los cinco pacientes de nuestra serie. Los granulomas suelen ser lesiones más agudas, que pueden involucionar espontáneamente y ante las cuales la observación puede ser la actitud inicial, procediendo a la resección en casos de persistencia en el tiempo o repercusión clínica.

En conclusión, el desarrollo de equipos multidisciplinares especializados en el diagnóstico y tratamiento de esta patología y en el uso de las técnicas endoscópicas y quirúrgicas descritas ha abierto un nuevo horizonte para estos pacientes. Dada su escasa frecuencia, la centralización de los mismos en centros de alta especialización juega un papel fundamental.

BIBLIOGRAFÍA

1. Myer CM, O'Connor DM, Cotton RT. Proposed grading system for subglottic stenosis based on endotracheal tube sizes. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1994; 103: 319-26.
2. Choi SS, Zalzal GH. Changing trends in neonatal subglottic stenosis. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000; 122: 61-6.
3. Cotton RT. Management of subglottic stenosis. *Otolaryngol Clin North Am.* 2000; 33: 111-6.
4. Carretta A, Melloni G, Ciriaco P, et al. Preoperative assessment in patients with postintubation tracheal stenosis: rigid and flexible bronchoscopy versus spiral CT scan with multiplanar reconstructions. *Surg Endosc.* 2006; 20: 905-11.
5. Zalzal GH, Tran LP. Pediatric gastroesophageal reflux and laryngopharyngeal reflux. *Otolaryngol Clin North Am.* 2000; 33: 151-6.
6. Burton DM, Pransky SM, Katz RM, et al. Pediatric airway manifestations of gastroesophageal reflux. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1992; 101: 742-7.
7. Zalzal GH, Choi SS, Patel KM. The effect of gastroesophageal reflux on laryngotracheal reconstruction. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1996; 122: 297-302.
8. Quesnel AM, Lee GS, Nuss RC, et al. Minimally invasive endoscopic management of subglottic stenosis in children: Success and failure. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2011; 75: 652-6.
9. Monnier P, George M, Monod ML, et al. The role of the CO2 laser in the management of laryngotracheal stenosis: a survey of 100 cases. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2005; 262: 602-8.
10. Bakthavachalam S, McClay JE. Endoscopic management of subglottic stenosis. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008; 139: 551-9.
11. Cotton RT, Myer CM, O'Connor DM, et al. Pediatric laryngotracheal reconstruction with cartilage grafts and endotracheal tube stenting: the single stage approach. *Laryngoscope.* 1995; 105: 818-23.
12. Kim SM, Shin JH, Chang EY, et al. Slide thyrocricotracheoplasty for the treatment of high-grade subglottic stenosis in children. *J Pediatr Surg.* 2010; 45: 2317-21.
13. Hartley BE, Cotton RT. Pediatric airway stenosis: laryngotracheal reconstruction or cricotracheal resection? *Clin Otolaryngol.* 2000; 25: 342-7.
14. Deitmer T. Open surgical treatment of laryngotracheal stenosis in children. *Laryngorhinootologie.* 2001; 80: 90-7.
15. Cotton RT, Seid AB. Management of the extubation problem in the premature child: anterior cricoid split as an alternative to tracheostomy. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1980; 89: 508-15.
16. Eze NN, Wyatt ME, Hartley BE. The role of the anterior cricoid split in facilitating extubation in infants. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2005; 66: 843-6.

17. Cotton RT. Pediatric laryngotracheal reconstruction: 20 years experience. *Acta Otorhinolaryngol Belg.* 1995; 49: 367-72.
18. Maresh A, Preciado DA, O'Connell AP, Zalzal GH. A comparative analysis of open surgery vs endoscopic balloon dilation for pediatric subglottic stenosis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2014; 140: 901-5.
19. Zalzal GH, Cotton RT, McAdams AJ. The survival of costal cartilage graft in laryngotracheal reconstruction. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 1986; 94: 204-9.
20. Koltai PJ, Ellis B, Chan J, et al. Anterior and posterior cartilage graft dimensions in successful laryngotracheal reconstruction. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2006; 132: 631-8.
21. Zalzal GH. Rib cartilage grafts for the treatment of posterior glottic and subglottic stenosis in children. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1988; 97: 506-10.
22. Hautefort C, Teissier N, Viala P, et al. Balloon dilation laryngoplasty for subglottic stenosis in children: eight years' experience. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012; 138: 235-40.
23. Whigham AS, Howell R, Choi S, et al. Outcomes of balloon dilation in pediatric subglottic stenosis. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2012; 121: 442-8.
24. Bent JP, Shah MB, Nord R, et al. Balloon dilation for recurrent stenosis after pediatric laryngotracheoplasty. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2010; 119: 619-27.
25. Froehlich P, Truy E, Stamm D, et al. Role of long-term stenting in treatment of pediatric subglottic stenosis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1993; 27: 273-81.
26. Smith LP, Zur KB, Jacobs IN. Single- vs double-stage laryngotracheal reconstruction. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2010; 136: 60-5.
27. Jaquet Y, George M, Monnier P. Management of severe glotto-subglottic stenosis in children. *Laryngoscope.* 2012; 122: S75-6.
28. Bajaj Y, Cochrane LA, Jephson CG, et al. Laryngotracheal reconstruction and cricotracheal resection in children: recent experience at Great Ormond Street Hospital. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2012; 76: 507-11.
29. Okamoto M, Nishijima E, Arai H, et al. Strategy for surgical treatment of congenital subglottic stenosis in children. *Pediatr Surg Int.* 2012; 28: 1115-8.
30. Halimi C, Nevoux J, Denoyelle F, et al. Acquired subglottic cysts: management and long term outcome. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2012; 76: 589-92.