

Lewostronna torakoskopia celem usunięcia uchyłka tchawicy i nawrotowej przetoki tchawiczo-przełykowej

Left thoracoscopic approach to remove tracheal diverticulum and recurrent tracheo-esophageal fistula

Sylwester Gerus¹, Mateusz Palczewski¹, Katarzyna Świątek¹, Andrzej Józwiak², Anna Piaseczna-Piotrowska², Dariusz Patkowski¹

¹ Katedra i Klinika Chirurgii i Urologii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego we Wrocławiu, ul. Curie-Skłodowskiej 52, 50-369 Wrocław, PL,

² Klinika Chirurgii i Urologii Dziecięcej z Pododdziałem Oparzeń Instytutu Centrum Zdrowia Matki Polki, ul. Rzgowska 281/289, 93-338 Łódź, PL

Streszczenie

Wstęp: Zarośnięcie przełyku jest rzadką wadą wrodzoną, która ciągle stanowi wyzwanie dla chirurga. Wśród typów zarośnięcia najczęściej występuje typ III charakteryzujący się obecnością przetoki przełykowo-tchawiczej od dolnego odcinka. Zabieg polega na zamknięciu przetoki, a następnie zespoleniu obu zarośniętych odcinków. W części przypadków dochodzi do rozwoju powikłań, wśród których najczęstsze są: zwężenie przełyku w miejscu zespolenia, nieszczelność w miejscu zespolenia, a także nawrót przetoki przełykowo-tchawiczej.

Opis przypadku: Autorzy przedstawiają opis diagnostyki i leczenia dziewczynki operowanej z powodu zarośnięcia przełyku t. III, u której doszło do rozwoju dużego uchyłka tchawicy oraz nawrotu przetoki przełykowo-tchawiczej. Wybrano nietypowy dostęp operacyjny przez lewą jamę opłucnową z zastosowaniem techniki torakoskopowej.

Wnioski: Lewostronna torakoskopia pozwala na bezpieczne i skuteczne usunięcie uchyłka tchawicy oraz nawrotowej przetoki tchawiczo-przełykowej

Słowa kluczowe: torakoskopia, zarośnięcie przełyku, nawrotowa przetoka tchawiczo-przełykowa, uchyłek tchawicy

Abstract

Background: Esophageal atresia (EA) is a rare congenital disorder which is still a challenge for a surgeon. Among types of EA, type III is most common where a tracheoesophageal fistula (TEF) is to the distal pouch. Surgery is based on fistula closure and performing anastomosis between atretic ends. In some cases there are complications like: esophagus narrowing on a level of anastomosis, leaking or fistula recurrence.

Case Report: A case of female newborn with type III of EA is presented. During her treatment large trachea diverticulum was developed and TEF recurred. Unusual surgery approach was chosen — left-sided thoracoscopy.

Conclusions: Left-sided thoracoscopy allows for safe and successful removal of trachea diverticulum and tracheoesophageal fistula.

Key words: thoracoscopy, esophageal atresia, recurrent tracheo-esophageal fistula, tracheal diverticulum

Otrzymano: 1–10–2016 → Zaakceptowano: 1–10–2016 → Opublikowano: 8–10–2016

✉ Sylwester Gerus, Katedra i Klinika Chirurgii i Urologii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego we Wrocławiu, ul. Curie-Skłodowskiej 52, 50-369 Wrocław, tel. 71 770 30 01, email: sylwestergerus@gazeta.pl

Wstęp

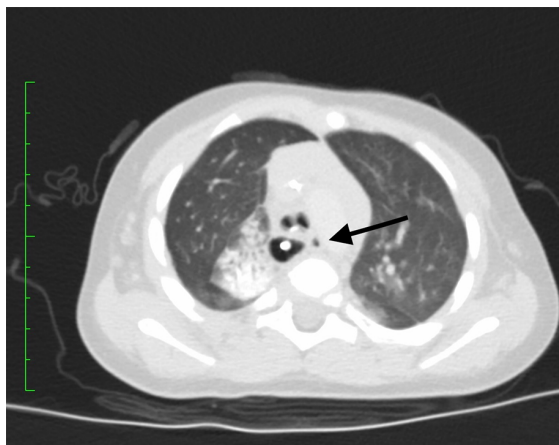
Zarośnięcie przełyku należy do rzadko występujących, ciężkich wad wrodzonych wymagających interwencji chirurgicznej w pierwszych dniach życia, stanowiące ogromne wyzwanie dla chirurga. Najczęściej występuje typ III wady, któremu obok przerwania ciągłości przełyku, towarzyszy przetoka tchawiczoprzętkowa łącząca światło tchawicy ze światłem dalszego końca zarośniętego przełyku. Leczenie operacyjne polega na zamknięciu przetoki oraz zespoleniu obu końców przełyku. Zabieg operacyjny wykonuje się klasycznie przez prawą jamę opłucnową, lub w wiodących ośrodkach coraz częściej techniką torakoskopową. Autorzy przedstawiają przypadek dziecka operowanego techniką torakoskopową, u którego kolejno wystąpiły wszystkie trzy powikłania. Ponadto rozpoznano u niego obecność dużego uchyłka tchawicy będącego pozostałością kanału przetoki tchawiczoprzętkowej. Do tego uchyłka nastąpił nawrót przetoki. Z uwagi na długotrwały drenaż prawej jamy opłucnowej, stwierdzone w badaniach obrazowych zmiany włóknisto-zapalne w tkance prawego płuca oraz ryzyko masywnych zrostów w jamie opłucnowej wybrano nietypowy dostęp operacyjny przez lewą jamę opłucnową z zastosowaniem techniki torakoskopowej.

Opis przypadku

Noworodek płci żeńskiej z CIPI urodził się drogą cięcia cesarskiego (wskazania ortopedyczne ze strony matki) w 40 tygodniu ciąży, z masą ciała 2980 g, oceniony na 10 punktów w skali Apgar. Prenatalnie stwierdzono wielowodzie u matki, zastosowano również cykl sterydoterapii przed porodem. W pierwszej dobie po urodzeniu obserwowano u dziecka masywne ulewania wodami płodowymi z domieszką spienionej śliny, saturację na poziomie 80–90%, sporadyczną bradykardię. W wykonanym zdjęciu RTG klatki piersiowej stwierdzono zagęszczenia śródmiąższowe, jednolite zacinienie górnego pola płucnego prawego, zmiany niedodmowo-zapalne, serce niepowiększone. Po podaniu środka kontrastowego przez założoną sondę uwidoczono poszerzony proksymalny odcinek przełyku, bez przechodzenia kontrastu do dalszych odcinków przewodu pokarmowego. W objętym badaniu fragmencie nadbrzusza stwierdzono obecność powietrza, co odpowiadało zarośnięciu przełyku typu III. W V dobie życia wykonano zabieg zespolenia przełyku — podczas prawostronnej torakoskopii zaklipsowano i podkłu-to przetokę przełykowo-tchawiczą dolnego odcinka przełyku, a następnie zespolono zarośnięte końce przełyku pod miernym napięciem. Założono również dren do prawej jamy opłucnowej. Po zabiegu dziewczynkę przekazano do oddziału intensywnej terapii, w którym, podczas trzymiesięcznej hospitalizacji, obserwowano trzy rodzaje problemów: oddechowe, chirurgiczne oraz infekcyjne. W przebiegu pooperacyjnym wystąpiły objawy nieszczelności zespolenia, potwierdzone badaniem radiologicznym z zaciekiem kontrastu do prawej jamy opłucnowej. Założono kolejny dren do jamy opłucnowej, sondę Replogle'a, włączono antybiotykoterapię parenteralną. W 10 dobie życia dziecko

ekstubowano, zastosowano wentylację nieinwazyjną, jednakże ze względu na duży wysiłek oddechowy pacjentka została ponownie zaintubowana. Wtedy też zaobserwowano obrzęk i zmiany naczyniowe na kończynie dolnej prawej, wykonano USG Doppler, w którym stwierdzono skrzeplinę w żyłę biodrowej wewnętrznej prawej ze znacznym upośledzeniem przepływu krwi. Zastosowano heparynę drobnocząsteczkową oraz Acetylisę, jednak leczenie musiało zostać przerwane ze względu na działania niepożądane pod postacią krwawienia z miejsc wkucia i krwiaka okolicy łopatki prawej. W 18 dobie życia samostatna ekstubacja, włączono wentylację nieinwazyjną, nebulizację. Od tego momentu stwierdzano pogorszenie stanu ogólnego, wzrost parametrów zapalnych, narastający wysiłek oddechowy, częste desaturacje, co wymagało ponownego zaintubowania. W kolejnych dobach obserwowano poprawę stanu ogólnego, włączono minimalną podaż enteralną pokarmu. W wykonanym kontrolnym badaniu kontrastowym przełyku w 37 dobie życia nie uwidoczono zacieku kontrastu poza światło przełyku, wobec czego usunięto drenaż jamy opłucnowej. Cztery dni później kolejne pogorszenie stanu ogólnego, wymioty brunatną treścią. Wstrzymano żywienie enteralne, pobrano krew na posiew, z którego wyhodowano *S. epidermidis*. Zmodyfikowano antybiotykoterapię, uzyskano poprawę stanu ogólnego, stopniowe obniżenie wykładników stanu zapalnego. W kolejnych dniach zmniejszano parametry wentylacji, w 45 dobie życia wykonano planową ekstubację, a od 48 doby życia dziewczynka pozostawała na oddechu własnym, z prawidłowymi parametrami gazometrycznymi. Stopniowo zwiększano podaż enteralną pokarmu, od 59 doby życia żywiona była wyłącznie w ten sposób. W trakcie pobytu w oddziale czterokrotnie wykonano poszerzania przełyku — w 52., 59., 70., 80. dobie życia, stwierdzono również masywny odpływ żołądkowo-przełykowy leczony inhibitorem pompy protonowej. W trakcie ostatniego zabiegu poszerzania przełyku usunięto sondę dojelitową pozostawioną pierwotnie na stałe. Z innych problemów należy wspomnieć o epizodach drgawek i oligurii, które pojawiały się podczas pogorszenia stanu ogólnego. W 95 dobie życia, w stanie ogólnym dobrym, dziewczynka została wypisana do domu. W 122 dobie życia wykonano kolejne poszerzanie przełyku bez powikłań, w kontrolnym badaniu przeglądowym klatki piersiowej stwierdzono utrzymujące się zacinienie górnego płata płuca prawego. Z tego względu dziewczynka była hospitalizowana w oddziale chorób układu oddechowego dla dzieci, gdzie w wykonanej tomografii komputerowej klatki piersiowej uwidoczono miąższowe zagęszczenia niedodmowo-zapalne płuca prawego, z komponentą zwłókniającą. W trakcie hospitalizacji dziewczynka ulewała, miała napadowy kaszel, osłuchowo furczenia i rzężenia. Po zastosowaniu leczenia objawy minęły, dziewczynkę wypisano do domu. Dziesięć dni później w stanie ciężkim została przyjęta do oddziału pediatrii, skąd po 3 dniach przeniesiona do oddziału intensywnej terapii ze względu na nasilające się zaburzenia oddychania. Dziewczynkę zaintubowano, włączono żywienie pozajelitowe, oraz antybiotykoterapię. W wykonanym badaniu kontrastowym górnego odcinka przewodu pokarmowego uwidoczono niewielkie przedostawanie się środka kontrastowego poza obręb światła przełyku, sugerujące nawrót

przetoki, które jednak nie było jednoznaczne i mogło stanowić artefakt. Wykonano również dwukrotnie tomografię komputerową klatki piersiowej, w której potwierdzono obecność komory powietrznej zlokalizowanej po lewej stronie i równoległej do tchawicy, o długości około 30 mm, a także rozległe obszary niedomowe i niedomowo-zapalne po stronie prawej.



Rysunek 1: Tomografia komputerowa klatki piersiowej z widocznymi zmianami w obrębie prawego płuca oraz powietrzną komorą po stronie lewej tchawicy (strzałka)

Wysunięto podejrzenie, że opisywana komora może być pozostałością po nieszczelności zespolenia lub uchylkiem tchawicy jako pozostałości zbyt nisko zamkniętego kanału przetoki tchawiczno-przełykowej. W 204. dobie życia dziewczynka została przekazana do Kliniki Chirurgii i Urologii Dziecięcej we Wrocławiu celem dalszej diagnostyki i leczenia. Wykonano pasaż przełyku pod monitorem Rtg, który był prawidłowy. Wykonano bronchoskopię, podczas której uwidoczniło się cechy tracheomalacji oraz duży uchylek tchawicy bez cech przetoki przełykowo-tchawicznej. Wykonano także ezofagoskopię, w której nie wykazano zwężenia przełyku. Przyjęto, że przyczyną powtarzających się zaburzeń oddychania może być stwierdzona tracheomalacja oraz uchylek. Ponownie rozpoczęto karmienie doustne, jednak z powodu nasilenia dolegliwości przy karmieniu powtórzono pasaż przełyku, podczas którego, w końcowej fazie badania, uwidoczniło się zacieki kontrastu do drzewa oskrzelowego, co jednak potwierdzało wcześniejsze podejrzenie nawrotowej przetoki. Dziewczynkę zakwalifikowano do leczenia operacyjnego — usunięcia uchylka i zamknięcia nawrotowej przetoki. Z uwagi na przeszłość chorobową — długotrwały drenaż prawej jamy opłucnowej oraz duże prawdopodobieństwo masywnych zrostów po stronie prawej, zdecydowano się na nietypowy dostęp — torakoskopię lewostronną, podczas której usunięto uchylek tchawicy, do którego uchodziła także nawrotowa przetoka tchawiczno-przełykowa. W 15 dobie po zabiegu, w stanie ogólnym dobrym, z ustąpieniem występujących wcześniej dolegliwości, dziewczynka została wypisana do domu.

Dyskusja

Zarośnięcie przełyku jest rzadką wadą wrodzoną (częstość występowania ocenia się na 1,27–4,55:10000 żywo urodzo-

nych noworodków), w której stwierdza się brak anatomicznej ciągłości przełyku. Wśród 4 typów zarośnięcia najczęściej występuje typ III, który charakteryzuje się obecnością przetoki przełykowo-tchawicznej odchodzącej od dolnego odcinka zarośniętego przełyku (około 86% wszystkich przypadków, [1]). Zabieg, który jest wykonywany u noworodków w pierwszych dobach życia, polega na zamknięciu przetoki przełykowo-tchawicznej oraz zespoleniu zarośniętych odcinków przełyku. Może być wykonany klasycznie — drogą prawostronnej torakotomii, lub w wiodących ośrodkach technikami chirurgii małoinwazyjnej (prawostronna torakoskopia). W większości przypadków przebieg pooperacyjny jest gładki, jednakże wśród powikłań, jakie mogą się pojawić, możemy wyróżnić: nieszczelność zespolenia, zwężenie w miejscu zespolenia, nawrotową przetokę tchawiczno-przełykową. Ryzyko wystąpienia zwężenia przełyku ocenia się na 18–50%, ryzyko nieszczelności od 7% [2] do 15–30%, ryzyko nawrotowej przetoki przełykowo-tchawicznej na 6–10% [1, 3, 4]. Realne występowanie nawrotu przetoki jest trudne do oceny, gdyż ocenia się, iż w części przypadków nie jest to nawrót, lecz nierozpoznana przetoka idąca z górnego odcinka. Dlatego też uważamy, iż każdy zabieg zespolenia przełyku, bez względu na wybór techniki operacyjnej, powinien być poprzedzony wykonaniem bronchoskopii, podczas której można ocenić obecność przetoki/przetok oraz ich położenie. W przypadku opisywanej pacjentki nie wykonano bronchoskopii, jednakże podczas zabiegu przy preparowaniu górnego odcinka nie stwierdzono obecności przetoki od górnego odcinka. Wśród czynników predysponujących do nawrotu przetoki należą: wcześniactwo, niska masa urodzeniowa, bezpośrednie przyleganie do siebie miejsca zespolenia oraz zamknięcia przetoki oraz nieszczelność w miejscu zespolenia. Uważa się, iż nieszczelność zespolenia występuje u około 68% pacjentów u których stwierdza się nawrót przetoki przełykowo-tchawicznej [5]. Spośród tych czynników u naszej pacjentki wystąpiła jedynie nieszczelność zespolenia, gdyż urodziła się ona o czasie, z prawidłową masą ciała, a miejsce zespolenia było oddzielone od zamkniętej przetoki od dolnego odcinka przez żyłę bezimienną. U większości dzieci z nawrotową przetoką przełykowo-tchawiczną występują objawy — krztuszenie podczas karmienia, ulewania, wymioty, kaszel, nawrotowe infekcje układu oddechowego, jednakże nie są one charakterystyczne tylko dla tej jednostki chorobowej. Wymagają różnicowania z objawami tracheomalacji lub odpływu żołądkowo-przełykowego, które często występują u dzieci po zabiegu z powodu zarośnięcia przełyku. Metodami diagnostycznymi są: badanie kontrastowe przełyku, podaż błękitu metylenowego do tchawicy i następnie ezofagoscopia, tomografia komputerowa klatki piersiowej, bronchoskopia z oceną tchawicy. Jednakże żadna z tych metod nie jest doskonała i nie zawsze daje możliwość jednoznacznej diagnozy. Dlatego też czas rozpoznania nawrotu przetoki waha się od kilku miesięcy do nawet kilkunastu lat [5]. W naszym przypadku dopiero kolejny pasaż przełyku wskazywał na obecność przetoki, której nie uwidoczniło się w bronchoskopii, natomiast w tomografii komputerowej rozpoznano obecność uchylka tchawicy. Leczenie nawrotowej przetoki przełykowo-tchawicznej stanowi duże wyzwanie dla chirurga. Wśród możli-

wości terapeutycznych możemy wyróżnić metody endoskopowe, podczas których podaje się środki obliterujące (skuteczność tych metod ocenia się na 60–90% [5], jednakże średnio wymagane jest dwukrotne podanie środka) lub operacyjne zamknięcie przetoki drogą torakotomii lub torakoskopi. Zabiegi te są trudne technicznie, gdyż zwykle nawrót przetoki jest efektem nieuszczelnienia zespolenia, co wywołuje stan zapalny oraz masywne zrosty w miejscu wykonanego zabiegu. W opisywanym przypadku z uwagi na położenie uchyłka po stronie lewej tchawicy oraz długotrwały drenaż jamy opłucnowej spowodowany nieuszczelnieniem zespolenia zdecydowano się na nietypowy dostęp techniką torakoskopową poprzez lewą jamę opłucnową. Wykonane wcześniej badania obrazowe tomografii komputerowej pozwoliły na precyzyjną lokalizację anatomiczną uchyłka i zaplanowanie dojścia operacyjnego do lewego śródpiersia i uchyłka pomiędzy kręgosłupem a przebiegającą w pobliżu aortą. Uchyłek usunięto w całości zamykając jego kanał od strony tchawicy klipsami tytanowymi, a nawrotową przetokę od strony przełyku poprzez podkucie jej światła i podwiązanie.

Wnioski

1. W każdym przypadku patologicznych objawów z układu oddechowego oraz pokarmowego u dzieci po zabiegu z po-

wodu zarośnięcia przełyku należy, w diagnostyce różnicowej, brać pod uwagę obecność nawrotowej przetoki przełykowo-tchawiczej.

2. Przedoperacyjna tomografia komputerowa pozwala na dokładną anatomiczną lokalizację zmiany oraz zaplanowanie dostępu operacyjnego.
3. Lewostronna torakoskopia pozwala na bezpieczne usunięcie uchyłka tchawicy oraz zamknięcie nawrotowej przetoki tchawiczoprzełykowej.

Bibliografia

1. Spitz L. *Oesophageal atresia*. Orphanet J Rare Dis, 2007. 2:24.
2. Koivusalo A.I., Pakarinen M.P., Rintala R.J. *et al.* *Outcomes of oesophageal atresia: single centre experience over the last twenty years*. J Pediatr Surg, 2013. 48:297–303.
3. Ghandour KE. *Recurrent tracheo-oesophageal fistula: experience with 24 patients*. J Paediatr Child Health, 1990. 26:89–91.
4. Kovesi T. i Rubin S. *Long-term complications of congenital oesophageal atresia and/or tracheoesophageal fistula*. Chest, 2004. 126:915–25.
5. Bruch S.W., Hirschl R.B. i Corn A.G. *The diagnosis and management of recurrent tracheoesophageal fistulas*. J Pediatr Surg, 2010. 45:337–40.

Wkład autorów/authors' contribution: Sylwester Gerus – główny autor; Mateusz Palczewski – redakcja artykułu, współautor; Katarzyna Świątek – leczenie, prowadzenie historii; Andrzej Józwiak – współautor; Anna Piaseczna-Piotrowska – nadzór merytoryczny, konsultacja; Dariusz Patkowski – współautor, korekta artykułu, nadzór merytoryczny

Autorzy

PATKOWSKI Dariusz prof. dr hab. n. med.

ur. w 1961 r.



Dziedzina nauki: chirurgia dziecięca, urologia dziecięca.

Studia: Akademia Medyczna we Wrocławiu, Wydział Lekarski (1986).

Doktorat: Akademia Medyczna we Wrocławiu (1992).

Habilitacja: Akademia Medyczna we Wrocławiu (2007 r.).

Tytuł profesora: prof. zwyczajny (2013 r.).

Przebieg pracy zawodowej:

- 1992–1994 asystent, a od 1994 roku adiunkt w Klinice Chirurgii i Urologii Dziecięcej;
- 1.02.2002 do 6.01.2003 dyrektor ds. lecznictwa, w Dziecięcym Szpitalu Klinicznym;
- w okresie od 10.05.2007 do 31.05.2008 zastępca dyrektora ds. Logistyki Klinik Pediatrycznych w SPSK nr 1 we Wrocławiu;

- od 1.10.2008 kierownik Katedry i Kliniki Chirurgii i Urologii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego we Wrocławiu.

Dorobek naukowy: Autor techniki endoskopowej operacji przepukliny pachwinowej u dzieci nazwanej PIRS, wykonywanej zarówno w kraju jak i zagranicą. Jako pierwszy w Polsce wykonał techniką torakoskopową zespolenie zarośniętego przełyku u noworodka. Wielokrotnie zapraszany jako wykładowca kursów chirurgii endoskopowej na całym świecie oraz jako chirurg wykonujący szkoleniowe zabiegi w Kraju i za granicą (Szwajcaria, Hiszpania, Portugalia, Kuwejt, Rumunia, Indie, Ukraina). Jest jedynym polskim chirurgiem pośród wykładowców prestiżowego ośrodka szkoleniowego chirurgii endoskopowej w Strasburgu, Francja. Dorobek naukowy wynosi 834 pkt KBN oraz 35,525 Impact Factor.

Działalność w organizacjach:

- (1) od 2003 roku konsultant Wojewódzkiego Oddziału Chirurgii Dziecięcej w Kielcach;
- (2) od roku 2008 członek kolegium redakcyjnego czasopisma „Videosurgery and other miniinvasive techniques”;
- (3) 2014–2015 prezes Polskiego Towarzystwa Chirurgów Dziecięcych.

Języki obce: angielski, niemiecki.

Zainteresowania: motoryzacja, jogging, fotografia, akwarystyka, ogród.