

Menej častá príčina respiračného stridoru u novorodenca

MUDr. Tomáš Jurko, PhD.¹, doc. MUDr. Alexander Jurko Jr., PhD.², MUDr. Peter Olejník, PhD.^{3,4}, prof. MUDr. Mirko Zibolen, CSc.¹

¹Neonatologická klinika, Univerzita Komenského v Bratislave, Jesseniova lekárska fakulta v Martine, Univerzitná nemocnica Martin

²Ambulancia detskej kardiológie, Klinika detí a dorastu, Univerzita Komenského v Bratislave, Jesseniova lekárska fakulta v Martine, Univerzitná nemocnica Martin

³Národný ústav srdcovocievnych chorôb, Detské kardiocentrum, Bratislava

⁴Klinika detskej kardiológie, Lekárska fakulta UK, Bratislava

Respiračný stridor predstavuje závažný klinický problém u novorodencov. Najčastejšími príčinami respiračného stridoru v novorodeneckom období sú tracheomalácia, laryngomalácia a anomálie aortálneho oblúka (cievne prstence). Cievny prstenec vzniká dôsledkom poruchy embryonálneho vývoja aorty a jej segmentov. Klinický obraz pacienta s cievny prstencom závisí od stupňa kompresie dýchacích ciest a pažeráka. Cievne prstence sú v mnohých prípadoch asymptomatické, najčastejšími príznakmi sú respiračný stridor, dyspnoické dýchanie a vracanie. Autori príspevku opisujú kazuistiku ľahko nezrelého novorodenca, ktorý mal od narodenia závažné respiračné ťažkosti, ktoré vyžadovali dlhšie trvajúcu umelú pľúcnu ventiláciu. Pomocou viacerých zobrazovacích vyšetrení (CT angiografia, tracheobronchoskopia) sa zistilo, že nepriaznivý klinický stav novorodenca spôsobila dextropozícia srdca s následnou kompresiou priedušnice dislokovanými vetvami aortálneho oblúka. Po vykonaní aortopexie v Detskom kardiocentre v Bratislave sa zdravotný stav pacienta postupne upravil.

Kľúčové slová: respiračný stridor, cievny prstenec, echokardiografia

Less common cause of respiratory stridor in newborn

Respiratory stridor is a serious clinical problem in newborns. The most common causes of respiratory stridor in the neonatal period are tracheomalacia, laryngomalacia, and anomalies of the aortic arch (vascular rings). The vascular ring is the result of a disorder in the embryonic development of the aorta and its segments. The clinical picture of a patient with a vascular ring depends on the degree of compression of the airways and esophagus. The vascular rings are in many cases asymptomatic, the most common symptoms are respiratory stridor, dyspnoic breathing and vomiting. The authors describe a case report of an immature neonate who had severe respiratory difficulties from birth requiring prolonged artificial lung ventilation. Using several imaging examinations (CT angiography, tracheobronchoscopy), it was found that the unfavorable clinical condition of the newborn was caused by dextroposition of the heart with subsequent compression of the trachea by the dislocated branches of the aortic arch. After performing aortopexy at the pediatric cardiocenter, the patient's health gradually improved.

Key words: respiratory stridor, vascular ring, echocardiography

Pediatr. prax, 2020;21(6):260-262

Úvod

Respiračný stridor je u novorodencov relatívne zriedkavý, ale môže predstavovať závažný zdravotný problém v novorodeneckom a neskoršom dojčenskom veku. Najčastejšími príčinami respiračného stridoru novorodencov sú vrodené vývojové chyby dýchacích ciest, predovšetkým tracheomalácia a laryngomalácia (1).

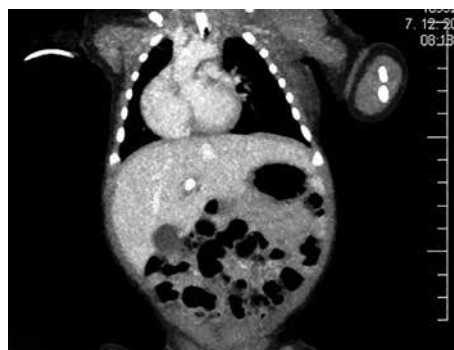
Okrem toho môže stridor spôsobovať aj anomália aortálneho oblúka alebo jeho vetiev, ktorá vytvára rôznu stupeň útlaku dýchacích ciest. V takom prípade hovoríme o cievnych prstencoch, ktoré vznikajú poruchou embryonálneho vývoja aortálneho kmeňa alebo jeho segmentov. Rozlišujeme kompletné a nekompletné cievne prstence. Kompletný cievny prstenec vzniká v prípade, keď abnormálne cievne

štruktúry vytvárajú uzavretý kruh okolo priedušnice alebo hlavných priedušiek. Príkladom kompletného cievneho prstenca je dvojitý aortálny oblúk, ako aj ľavostranný aortálny oblúk s pravostrannou *a. subclavia* a pravostranným *ductus arteriosus*. Nekompletný cievny prstenec vzniká, keď abnormálne cievne štruktúry nevytvárajú uzavretý kruh, ale do určitej miery môžu utláčať priedušnicu či pažerák. Príkladom nekompletného cievneho prstenca je pulmonálny *sling* (2, 3). Symptomatika cievnych prstencov závisí od stupňa útlaku dýchacích ciest a pažeráka, pričom často sú asymptomatické. Najčastejšími klinickými príznakmi sú respiračný stridor, dyspnoické dýchanie a vracanie (4). Okrem toho môžu cievne prstence spôsobovať časté respiračné infekcie, ako aj aspiračné príhody (5).

Kazuistika

Pacientom je ľahko nezrelý novorodenec narodený v ukončenom 35. gestačnom týždni cisárskym rezom pre intrauterinnú hypoxiu s kraniofaciálnou dysmorfiou a so zhoršenou popôrodnou adaptáciou vyžadujúcou kardiopulmonálnu resuscitáciu. Pre respiračnú insuficienciu novorodenec vyžadoval dlhodobo umelú pľúcnu ventiláciu pri pravidelnej analgosedácii. Vzhľadom na opakované neúspešné pokusy o extubáciu sa realizovala CT angiografia s cieľom vylúčenia vrodených vývojových chýb srdca a veľkých ciev. Vyšetrením sa zistila dextropozícia srdca a subtotálna stenóza priedušnice (obrázok 1, 2, 3).

Echokardiografickým vyšetrením sa potvrdila dextropozícia srdca a zároveň vylúčili vrodené štrukturálne chyby srdca. Následne bola zrealizovaná tra-

Obrázok 1. CT angiografia – nález dextropozície srdca

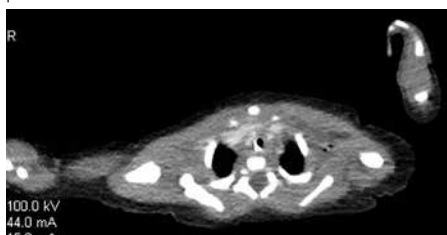
cheobronchoskopia, ktorá preukázala stenotizáciu dolnej tretiny priedušnice približne na 30 až 40 % priemeru lúmenu. Okrem toho bol viditeľný pulzujúci útlak v ľavej prednej časti steny priedušnice a zároveň jej deviácia doprava a dozadu. Po zrealizovaní tracheobronchoskopie bolo dieťa extubované, následne vyžadovalo neinvazívnu ventilačnú podporu, pričom bol počuteľný významný respiračný stridor. Na základe tracheobronchoskopického nálezu bol pacient preložený do Detského kardiocentra v Bratislave s cieľom dodiagnostikovania stavu a následnej predpokladanej chirurgickej liečby. CT angiografia potvrdila nález dextropozície srdca a zároveň odhalila, že útlak priedušnice bol spôsobený naliehaním vetiev aortálneho oblúka spredu na priedušnicu (obrázok 4).

Vzhľadom na uvedený nález sa vykonala totálna tymektómia s následnou aortopexiou ascendentnej aorty a transverzálneho aortálneho oblúka k sternu. Po chirurgickom výkone bol pacient krátkodobo na umelej pľúcnej ventilácii, následne prechodne pokračovala neinvazívna ventilačná podpora, ktorá bola po niekoľkých dňoch ukončená. V ďalšom priebehu hospitalizácie bolo dieťa kardiopulmonálne kompenzované, pričom dýchanie bolo eupnoické, bez počuteľného respiračného stridoru.

Pre tracheomaláciu utláčanej časti sa začala liečba betanecholom, ktorý zvyšuje tonus priedušnice. Genetické vyšetrenie realizované pre kraniofaciálnu dysmorfiiu neodhalilo patologický nález.

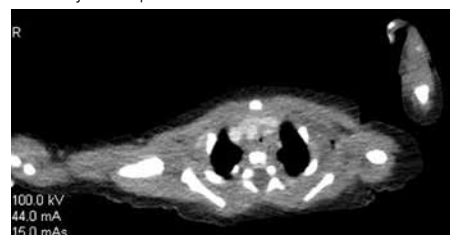
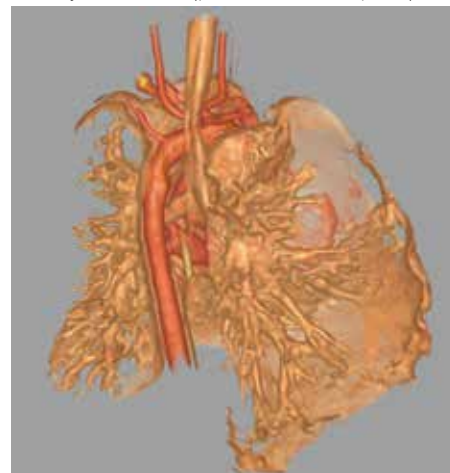
Diskusia

Respiračný stridor predstavuje relatívne zriedkavý problém v novorodeneckom veku, ale často môže znamenať významné zdravotné riziko. V predkla-

Obrázok 2. CT angiografia – normálny prierez priedušnice

danej kazuistike bol respiračný stridor spojený so závažnou respiračnou insuficienciou, ktorá vyžadovala dlhšie trvajúcu umelú pľúcnu ventiláciu. Najčastejšími príčinami respiračného stridoru novorodenca sú vrodené chyby dýchacích ciest, predovšetkým tracheomalácia či laryngomalácia (1). Medzi ďalšie príčiny respiračného stridoru patria cievne prstence, ktoré môžu byť úplné alebo neúplné, a často vyžadujú chirurgickú korekciu (6). V diferenciálnej diagnostike príčiny respiračného stridoru môže pomôcť echokardiografické vyšetrenie veľkých ciev, ale najdôležitejšiu úlohu zohrávajú zobrazovacie vyšetrenia, ako CT angiografia či tracheobronchoskopia (7). U pacienta v našej kazuistike nebol respiračný stridor spôsobený cievny prstencom, ale útlakom priedušnice dislokovanými vetvami aortálneho oblúka pri súčasnej dextropozícii srdca.

V diferenciálno-diagnostickom postupe bola najskôr zrealizovaná CT angiografia s nálezom subtotálnej stenotizácie priedušnice a dextropozície srdca, ktorú potvrdilo aj echokardiografické vyšetrenie. Následnou tracheobronchopiou sa dokumentovala stenotizácia priedušnice s viditeľnou pulzáciou v jej stene. Definitívnu diagnózu potvrdila až CT angiografia v detskom kardiocentre, po ktorej nasledovalo chirurgické odstránenie týmusu a aortopexia. Úspešnosť chirurgickej korekcie cievnych prstencov je veľmi vysoká a u väčšiny pacientov dochádza postupne k úplnému vymiznutiu klinických príznakov (3). Hoci v našej kazuistike nešlo o cievny prstenec, ale o dislokáciu vetiev aortálneho oblúka pri dextropozícii srdca, rovnako sa klinický stav pacienta po aortopexii postupne úplne upravil. Pacient bol veľmi rýchlo extubovaný a po niekoľkých dňoch bez potreby ventilačnej podpory, pričom auskultačne už nebol počuteľný respiračný stridor.

Obrázok 3. CT angiografia – stenotizácia v dolnej časti priedušnice**Obrázok 4.** Virtuálna 3D rekonštrukcia srdcovo-cievneho systému a tracheobronchiálneho stromu – útlak priedušnice naliehajúcim aortálnym oblúkom a jeho vetvami (pohľad zozadu a sprava)

Tracheobronchoskopické vyšetrenie realizované bezprostredne po chirurgickej korekcii u väčšiny pacientov s anomáliou aortálneho oblúka preukázalo tracheomaláciu alebo bronchomaláciu príslušnej časti dýchacích ciest, ktorá bola komprimovaná abnormálne prebiehajúcou cievnu štruktúrou (8). Vzhľadom na tracheomalatické zmeny komprimovanej časti dýchacích ciest bola u nášho pacienta po aortopexii začatá liečba betanecholom, ktorý účinkuje parasymptomimeticky a jedným z jeho účinkov je zvyšovanie napätia hladkého svalstva (9).

Záver

Respiračný stridor novorodenca je relatívne zriedkavý, ale klinicky významný problém. Najčastejšími príčinami sú vrodené vývojové chyby dýchacích ciest, predovšetkým laryngomalácia a tracheobronchomalácia. Respiračný stridor môže byť spôsobený aj anomáliami aortálneho oblúka (cievnymi prstencami). Stanovenie definitívnej diagnózy cievneho prstenca si vyžaduje multidisciplinárny prístup, pričom kľúčovú úlohu zohrávajú zobrazovacie vyšetrenia, ako CT angiografia či tracheobronchoskopia (7). V našej kazuistike CT

angiografia odhalila, že stridor s respiračnou insuficienciou bol spôsobený útlakom priedušnice dislokoványmi vetvami aortálneho oblúka pri dextropozícii srdca.

Autor nie je v konflikte záujmov.

Literatúra

1. Bluher AE, Darrow DH. Stridor in a newborn. *Pediatr Clin North Am.* 2019;66(2):475-488.
2. Yoshimura N, Fukahara K, Yamashita A, et al. Congenital vascular ring. *Surg Today.* 2020 Oct;50(10):1151-1158.
3. Backer CL, Mongé MC, Popescu AR, et al. *Semin Pediatr Surg.* 2016;25(3):165-75.
4. Robson EA, Scott A, Chetcuti P, et al. Vascular ring diagnosis following respiratory arrest. *BMJ Case Rep.* 2014.
5. Ma G, Li Z, Li XF, et al. Congenital vascular rings: a rare cause of respiratory distress in infants and children. *Chin Med J (Engl).* 2007;120(16):1408-12.
6. Riggle KM, Rice-Townsend SE, Waldhausen JH. Thoracoscopic division of vascular rings. *J Pediatr Surg.* 2017;52(7):1113-1116.
7. Young AA, Hornberger LK, Haberer K, et al. Prenatal Detection, Comorbidities, and Management of Vascular Rings. *Am J Cardiol.* 2019;123(10):1703-1708.
8. Langenbach J, Stiller B, Kroll J, et al. Bilateral Arterial Ducts Causing Airway Compression by a Vascular Ring. *Ann Thorac Surg.* 2018 Feb;105(2):89.
9. Hysinger E, Friedman N, Jensen E, et al. Bronchoscopy in neonates with severe bronchopulmonary dysplasia in the NICU. *J Perinatol.* 2019;39(2):263-268.

MUDr. Tomáš Jurko, PhD.

Univerzita Komenského
v Bratislave, Jesseniova lekárska
fakulta v Martine, Neonatologická
klinika,
Univerzitná nemocnica Martin
Kollárova 2, 036 59 Martin
jurkotom@gmail.com

