

# Rezecție de trahee pentru stenoză subglotică post-intubație la o pacientă cu granulomatoză cu poliangeită (Wegener)

Radu Stoica<sup>1</sup>,  
Irina Negru<sup>1</sup>,  
Radu Matache<sup>2</sup>,  
Miruna Todor<sup>3</sup>

1. Secția de Anestezie și  
Terapie Intensivă, Institutul de  
Pneumoftiziologie „Marius Nasta”  
București

2. Clinica de Chirurgie Toracică,  
Institutul de Pneumoftiziologie  
„Marius Nasta” București

3. Secția de Pneumologie, Institutul  
de Pneumoftiziologie „Marius  
Nasta” București

Correspondență:

Dr. Radu Stoica, Secția ATI, Institutul  
de Pneumoftiziologie „Marius Nasta”  
București, Șos. Viilor 90, sector 5  
e-mail: raduati1957@yahoo.com  
Tel: +40 723 309 419

## Abstract

**Tracheal resection for post-intubation subglottic stenosis in a patient with granulomatosis with polyangiitis (Wegener)**  
*Granulomatosis with polyangiitis (GPA or Wegener) is a systemic autoimmune disease with inflammation of small- and medium-size vessels. It can affect practically any organ or system, but renal, respiratory and joint systems are most frequently damaged. Positive pANCA antibodies can raise the suspicion of diagnosis. Subglottic stenosis is relatively frequent, in a quarter of patients, especially in the third decade women. The case presented is of an 80-year-old woman, recently diagnosed with pulmonary, renal and systemic manifestations of GPA and with a subglottic stenosis rapidly evolving towards endotracheal intubation, tracheostomy with mechanical ventilation and renal failure. Further evolution has been favorable under corticoid therapy. After weaning from the mechanical ventilation and 30 days after the suppression of the tracheostomy, the patient developed a tracheal stenosis with mixed etiology, secondary to vasculitis and prolonged intubation with tracheostomy. Tracheal resection with termino-terminal anastomosis was performed in emergency with simple post-operative evolution and without late complications.*  
**Keywords:** granulomatosis with polyangiitis, subglottic stenosis, tracheal resection

## Rezumat

*Granulomatoza cu poliangeită (GPA sau Wegener) este o afecțiune sistemică, autoimună, caracterizată de un proces inflamator al vaselor mici și medii. Poate afecta, practic, orice organ sau sistem, dar cele mai frecvente manifestări clinice sunt cele renale, pulmonare și articulare. Anticorpul pANCA pozitiv susține diagnosticul. Stenoza subglotică este o manifestare relativ frecventă, apare la aproximativ un sfert de cazuri, în special la femei în a treia decadă. Cazul prezentat este cel al unei femei în vârstă, diagnosticată neobișnuit de tardiv, la 80 de ani, cu GPA cu manifestări pulmonare, renale și sistemice, cu stenoză subglotică care a evoluat grav, cu intubație oro-traheală, apoi traheostomie și ventilație mecanică și insuficiență renală. Evoluția ulterioară a fost lent favorabilă sub terapie cortizonică. După sevrajul de ventilator și la 30 de zile de eliminare a traheostomei a dezvoltat o stenoză traheală. Etiologia acesteia a fost mixtă (leziuni de vasculită și postintubație) și a impus intervenția chirurgicală de urgență, care a constat în rezecție traheală cu anastomoză termino-terminală. Evoluția postoperatorie a fost simplă și lipsită de complicații.*  
**Cuvinte-cheie:** granulomatoză cu poliangeită, stenoză subglotică, rezecție de trahee

## Introducere

Stenozele traheale, indiferent de cauză, devin urgențe amenințătoare de viață atunci când determină insuficiență respiratorie. Datorită acestui fapt, atunci când diametrul lumenului traheal este sub 50%, intervenția terapeutică este o provocare pentru pneumolog, bronhoscopist, anestezist și, în final, dacă leziunea se pretează la reconstrucție laringo-traheală, și pentru chirurgul toracic. În ciuda faptului că etiologia și măsurile de profilaxie ale acestor leziuni au fost precizate cu mai bine de 30 de ani în urmă, stenozele traheale postintubație continuă să dețină locul întâi în ceea ce privește indicația pentru rezecție și reconstrucție traheală. Practic, ele reprezintă leziuni cicatriciale ale căii aeriene principale datorate unor „defecte” de tehnică sau material folosit în cazul unor intubații prelungite de necesitate. Incidența stenozelor laringo-traheale postintubație se situează între 6% și 21%<sup>1</sup>, iar a celor post-traheostomie,

între 0,6% și 21%<sup>2</sup>. Deși aceste lucruri sunt cunoscute, atunci când leziunile traheale sunt consecința mai multor factori, evoluția lor este imprevizibilă, atât ca atitudine terapeutică, cât și ca prognostic.

## Prezentare de caz

Pacienta F.M, de 80 de ani, este admisă în terapie intensivă prin transfer dintr-o clinică medicală, cu insuficiență respiratorie severă și suspiciunea de reactivare de tuberculoză pulmonară. Pacienta a fost internată timp de 3 zile, cu patologie complexă cardiovasculară, renală și respiratorie. Din antecedentele patologice reținem hipertensiune arterială, stadiul III O.M.S. (cu valori maxime 200/120mmHg), sechele AVC lacunar parietal stâng, infecții urinare repetate, insuficiență renală cronică (creatinină 1,86 mg/dl, ureea 71,4 mg/dl în urmă cu 5 luni), anemie cronică, glaucom cu unghi închis la



**Figura 1.** Rx pulmonar la internare (debut)



**Figura 2.** Rx pulmonar după intubarea oro-traheală (a treia zi de la debut)

ambii ochi, cataractă bilaterală operată, hipoacuzie, obezitate.

**La internare** pacienta se prezenta cu stare generală precară, cu tuse cu expectorație hemoptoică, odinofagie, dispnee cu ortopnee la cele mai mici eforturi (32 respirații/ min.), SaO<sub>2</sub> 90% sub oxigenoterapie, TA=130/70 mmHg, AV= 80 b/min., ritm sinusal. Radiografia pulmonară evidențiază opacități alveolare diseminate bilateral, cu tendință la confluare (Figura 1). Din punct de vedere biologic: Hgb 7,1-8,1g/dl (după transfuzia a două unități de MER), Ht 22,7%, MCV 79,9fl, Leucocite 10 500/mmc neutrofile 85%, trombocite 286000/mmc, Creatinină 6,5 mg/dl - 4,7 mg/dl, Uree 137 mg/dl - 163mg/dl, TGP 13 u/l, TGO 15u/L, Glicemie 111 mg/dl, VSH 115 mm/1h, Na seric 138 mmol/l, K seric 5mmol/L. Examenul de urină: densitate 1015, ph 6, Proteinurie 100 mg/dl. pANCA pozitiv 31 UI. Examenul fibrobronhoscopic a evidențiat laringe cu dinamică prezentă, aspect bronșitic bilateral, sânge în cantitate moderată, aerat, difuz bilateral, predominant la nivelul bronșiei lobare medii. Microlavajul bronhoalveolar: fără celule tumorale, numeroase hematii, macrofage 2,4%, limfocite 1,6%, neutrofile 92,2%, eozinofile 3,8%. BAAR negativ.

Sindromul hemoragic alveolar, însoțit de sindrom inflamator sever și afectare renală de tip glomerulonefrită rapid progresivă a sugerat o vasculită asociată cu ANCA, confirmată de anticorpii pANCA pozitivi (anti-neutrophil cytoplasmic antibodies), dar cu anticorpii antimembrană bazală glomerulară negativi.

**Diagnosticul în această etapă:** vasculită sistemică cu determinări pulmonare și renale (Wegener) însoțită de insuficiență respiratorie acută, insuficiență renală acută, anemie hipocromă secundară, HTA stadiul III O.M.S.

**Evoluție.** Din cauza prognosticului vital grav și în context diagnostic, se inițiază pulsterapie cu Solumedrol 1g/zi, protecție gastrică, diuretic, antibioticoprofilaxie, antihipertensive. Se administrează două unități de MER și oxigenoterapie cu FiO<sub>2</sub> ridicat sub cort tip Helmet. Evoluția rămâne gravă sub aspectul insuficienței respiratorii, după 3 zile de la internare pacienta fiind intubată oro-traheal și ventilată mecanic în mod asist/control (Figura 2). În contextul insuficienței renale acute și a vasculitei sistemice, după încă două zile este transferată într-un serviciu de terapie intensivă și nefrologie, în vederea ședințelor de epurare extrarenală și plasmafereză. După ședințele de plasmafereză, terapie cortizonică și ventilație artificială pe sondă IOT și apoi pe traheostomă timp de 26 zile, pacienta este extubată, cu evoluție favorabilă.



**Figura 3.** Rx pulmonar înaintea intervenției chirurgicale (66 de zile de corticoterapie)

genoterapie cu FiO<sub>2</sub> ridicat sub cort tip Helmet. Evoluția rămâne gravă sub aspectul insuficienței respiratorii, după 3 zile de la internare pacienta fiind intubată oro-traheal și ventilată mecanic în mod asist/control (Figura 2). În contextul insuficienței renale acute și a vasculitei sistemice, după încă două zile este transferată într-un serviciu de terapie intensivă și nefrologie, în vederea ședințelor de epurare extrarenală și plasmafereză. După ședințele de plasmafereză, terapie cortizonică și ventilație artificială pe sondă IOT și apoi pe traheostomă timp de 26 zile, pacienta este extubată, cu evoluție favorabilă.

**La două luni de la debutul acut, la 36 de zile de la deconectarea de ventilația mecanică și la 30 zile de la suprimarea traheostomei,** pacienta este readmisă în terapia intensivă respiratorie cu semne de insuficiență



**Figura 4.** Piesa de rezecție traheală

respiratorie prin obstrucție traheală (stenoză), imaginea radiologică pulmonară fiind normală (Figura 3).

**La internarea în vederea intervenției chirurgicale** pacienta este cu stare generală bună, echilibrată hemodinamic, cu diureză prezentă, SaO<sub>2</sub> de 97% cu oxigen suplimentar în flux redus și stridor inspirator. Examenul bronhoscopic relevă o stenoză traheală strânsă cu debut la al doilea cartilaj traheal extinsă pe o lungime de două cartilajii cu granuloame congestionate stenoză de gradul III (clasificarea Cotton Mayer). Stenoza se proiectează pe linia fostei stome de traheostomie. Tramentul preoperator cu Prednison 30 mg/zi, Coryol 6,25 mg/zi, Norvasc 5 mg/zi, Aspenter și Omeprazol 40 mg este suplimentat cu o heparină cu moleculă joasă (Fraxiparin 5000 u s.c) pentru profilaxia trombembolismului venos. Din punct de vedere biologic, prezintă anemie cronică cu o valoare a hemoglobinei de 8,7g/dl și a hematocritului de 27,7%, creatinina serică 3,7 mg/dl și uree serică 111 mg/dl. Pacienta este operată de urgență în ziua reinternării și se practică rezecția a 4 inele traheale (circa 2,5 cm) cu anastomoză traheală termino-terminală (Figura 4). Anestezia generală a fost secvențială, cu ventilație suprastenotică combinată cu ventilație cu jet cu frecvență înaltă, apoi prin plaga operatorie a fost intubată traheea distală și, în final, ventilația a fost realizată pe sonda de intubație oro-traheală. Examenul anatomopatologic al piesei de rezecție evidențiază: perete traheal acoperit de un epiteliu metaplaziat scuamos ulcerat cu abundent

țesut de granulație în corionul mucoasei și submucoasei asociat cu prezența de fibroză difuză în toate straturile peretelui traheal descris. Evoluția postoperatorie a fost favorabilă, pacienta externându-se a șasea zi postoperator, cu recomandările de tratament aferente afecțiunilor medicale.

### Discuții

Granulomatoza cu poliangeită (GPA) sau Granulomatoza Wegener, așa cum se cunoaște, este o vasculită cu afectarea vaselor mici și medii (Chapel Hill Consensus Conference)<sup>3</sup>. Este o boală autoimună în care afectarea traheală cu stenoză subglotică apare în 16-23% din cazurile de GPA, mai frecvent la femei, la o vârstă medie de 26 de ani(!)<sup>4</sup>. Patogenia propriu-zisă este încă speculativă, stenoza subglotică putând apărea și în absența bolii sistemice sau sunt autori care susțin că în fiecare puseu inflamator sistemic apar leziuni subglotice subclinice care ulterior se vindecă cu cicatrice circumferențiale<sup>5</sup>. Dispneea – inițial la eforturi mici, apoi în repaus – este cel mai frecvent simptom, în aproximativ 80% din cazuri<sup>6</sup>, putând fi însoțită de disfonie și stridor. Examenul fibrobronhoscopic este obligatoriu, dacă hipoxemia o permite. Alte examene complementare care se pot efectua sunt computer tomograf cu reconstrucție, probele ventilatorii cu flux/volum ș.a., care pot da referințe asupra întinderii și gradului de îngustare a traheii. Diagnosticul de certitudine este

histopatologic și evidențiază afectarea vasculară, eventual cu granulomatoză necrozantă și celule gigante. Din păcate, doar 5-15% din biopsiile traheale prelevate de la pacienții cu stenoză subglotică și anticorpi pANCA sunt diagnostice pentru GPA<sup>4,6</sup>. Biopsiile mucoasei nazale au o sensibilitate mult mai bună, de 82%<sup>6</sup>.

Atunci când stenozele sunt strânse și sufocante, este necesară traheostomia, care se practică la 8-60% din cazuri<sup>4,7</sup>. Medicația obișnuită în GPA este imunosupresivă și cuprinde corticosteroizii, ciclofosamidă sau azathioprină. Aceasta reduce stenoza traheală doar în 22-26% din cazuri, 49% din pacienți sunt diagnosticați cu un grad de obstrucție subglotică, chiar dacă se află sub terapie imunosupresoare<sup>4</sup>. Este normal ca în aceste situații să se apeleze la intervenții invazive de bronhologie intervențională (rezeccii endobronșice, montaj de stenturi sau dilatații) sau de chirurgie laringo-traheală. Într-un studiu al lui Gluth și colab., din 27 de pacienți cu granulomatoză Wegener (GPA) și stenoză subglotică, 11 (40,7%) au fost traheostomizați și 13 (48,1%) au suferit intervenții chirurgicale multiple. 12 pacienți au suferit rezeccii endotraheale cu laser, iar 7 (25,9%) au suferit operații reconstructive laringo-traheale cu graft costal. Evoluția acestora din urmă a fost bună, astfel încât, după 76,8 luni, toți au fost decanulați<sup>6</sup>. Autorii recomandă ca pacienții să fie operați doar în perioadele de remisiune ale bolii (titrare a Ac pANCA, Proteina C reactivă, VSH), până atunci rămânând traheostomizați.

Intervențiile bronhoscopice sunt un subiect de controversă, în cazul stenozelor subglotice având un caracter mai mult paleativ. Critica lor se explică prin leziunile cicatriceale pe care le creează și care pot accentua ulterior obstrucția sau prin migrarea stenturilor, în ambele situații fiind necesare intervenții multiple, repetate<sup>8,9,10</sup>. Pe de altă parte, pacienții cu intubație oro-traheală prelungită sau cei cu traheostomie sunt expuși unor leziuni traheale care pot duce la stenoze între 0,1-20% din

cazuri<sup>11,12</sup>. În aceste situații, cel mai frecvent se practică rezeccia cu reconstrucție traheală și doar în stenozele foarte strânse sau etajate se apelează la dilatații sau la rezeccii pe cale bronhoscopică<sup>13</sup>. Anestezia este dificilă, necesitând personal antrenat și dotări speciale (de exemplu, ventilație cu jet cu frecvență înaltă) pentru a asigura în fiecare timp chirurgical schimburi gazoase adecvate<sup>14</sup>. Evident că asocierea unei vasculite de tip GPA (Wegener), cu potențial stenozant subglotic, cu intubație oro-traheală prelungită urmată de traheostomie cumulează factori care pot genera obstrucție severă traheală cu potențial vital, în special după decanulare.

## Concluzii

Cazul prezentat se referă la o pacientă vârstnică, de 80 de ani, cu debut tardiv al unei vasculite sistemice, probabil GPA (Wegener), având criteriile de diagnostic: infiltrate pulmonare bilaterale, hemoragie intraalveolară, glomerulonefrită rapid progresivă spre IRC, stenoză traheală, hipoacuzie, însoțite de prezența anticorpilor pANCA. Din punct de vedere respirator, evoluția inițială a fost cu insuficiență respiratorie severă, care a necesitat ventilație mecanică și ulterior traheostomie. Sub corticoterapie aceasta s-a remis treptat, permițând suprimarea traheostomiei. La 30 de zile este readmisă cu stenoză traheală strânsă, care a determinat intervenția chirurgicală de urgență (rezeccie cu reconstrucție de trahee) cu evoluție lipsită de complicații.

## Particularitățile cazului

Un caz neobișnuit de granulomatoză cu poliangeită diagnosticată pentru prima oară la 80 de ani, cu evoluție spre stenoză subglotică, în etiologia căreia sunt implicate atât leziunile vasculitice, cât și cele postintubație și traheostomie. Rezeccia de trahee cu reconstrucție, efectuată în urgență, a fost o soluție mai puțin obișnuită în cazul stenozelor subglotice la pacienții cu PGA (Wegener). ■

## Bibliografie

- Whited RE: A prospective study of laryngotracheal sequelae in long-term intubation. *Laryngoscope* 1984; 94: 367-377.
- Andrews MJ: The incidence and pathogenesis of tracheal injury following tracheostomy with cuffed tube and assisted ventilation. Analysis of a 3-year prospective study. *Br J Surg* 1971;58: 749-755.
- Bruce IN, Bell AL. "A comparison of two nomenclature systems for primary systemic vasculitis". *Br. J. Rheumatol.* 1997 36(4): 453-458.
- Langford et al. Clinical features and therapeutic management of subglottic stenosis in patients with Wegener's granulomatosis. *Arthritis Rheum.* 1996; 39(10):1754-60.
- Shokkenbroek et al. Dilatation tracheoscopy for laryngeal and tracheal stenosis in patients with Wegener's granulomatosis. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2008; 265(5):549-55.
- Gluth B, Shinnars PA, Kasperbauer JL. Subglottic stenosis associated with Wegener's granulomatosis. *Laryngoscope* 2003; 113:1304-1307.
- Alaani et al. Wegener's granulomatosis and subglottic stenosis: management of the airway. *J Laryngol Otol.* 2004; 118(10):786-790.
- Hoffman, Thomas-Golbanov CK, Chan J et al. Treatment of subglottic stenosis, due to Wegener's granulomatosis, with intralesional corticosteroids and dilation. *J Rheumatol.* 2003; 30(5):1017-1021.
- Shvero Shitrit D, Koren R, et al. Endoscopic laser surgery for subglottic stenosis in Wegener's granulomatosis. *Yonsei Med J.* 2007; 48(5):748-753.
- Watters K, Russel G. Subglottic stenosis in Wegener's granulomatosis and the nitinol stent. *Laryngoscope.* 2003; 113:2222-2224.
- Papla B, Dyduch G, Frasik W et al. Post-Intubation Tracheal Stenosis - Morphological-Clinical Investigations. *Pol J Pathol* 2003; 54, 261-266.
- Stauffer JL, Olson DE, Pett TL. Complications and consequences of Endotracheal Intubations and Tracheostomy. A Prospective Study of 150 Critically Ill patients. *Am J Med* 1981; 70:65-76.
- Stoica R, Cordoș I. Surgical and anesthetic coordination during tracheal and carinal resections and reconstruction. *Chirurgia.* 2007; 102(6):681-687.
- R. Stoica, G Cadar, I Ion. Anestezia în chirurgia traheii și a bronhiilor mari, în Recomandări în anestezie, terapie intensivă și medicină de urgență, 161-174, sub redacția D. Sandesc et al., Ed Mirton, Timișoara, 2011.