

Subglotická cysta jako příčina dušnosti u kojence

**MUDr. Monika Debnárová¹, MUDr. Veronika Mohylová³, doc. MUDr. Karol Zeleník, Ph.D., MBA^{1,2},
doc. MUDr. Jan Pavlíček, Ph.D.³, MUDr. Ondřej Jor, Ph.D.⁴, prof. MUDr. Pavel Komínek, Ph.D., MBA^{1,2}**

¹Klinika otorinolaryngologie a chirurgie hlavy a krku, Fakultní nemocnice Ostrava

²Katedra kraniofaciálních oborů, Lékařská fakulta Ostravské univerzity v Ostravě

³Klinika dětského lékařství, Fakultní nemocnice Ostrava

⁴Klinika anesteziologie, resuscitace a intenzivní medicíny, Fakultní nemocnice Ostrava

Subglotická cysta je vzácné onemocnění hrtanu, vyskytující se v novorozeneckém nebo kojeneckém věku. Typickým projevem onemocnění je stridor. Diagnostika je založená na anamnéze a flexibilní laryngoskopii, v případě nejasností je indikována tra-cheobronchoskopie v celkové anestezii. Terapií je chirurgická excize, vzhledem k častým recidivám je nutné následné sledování. Cílem kazuistiky je poukázat na toto vzácné onemocnění a zařadit ho do diferenciální diagnostiky stridoru u dětí.

Klíčová slova: subglotická cysta, stridor, novorozenec, kojenec, intubace, endoskopie hrtanu.

Subglottic cyst as cause of the dyspnea in infants

Subglottic cyst is a rare disease of the larynx, which occurs to newborns or infants. The typical symptom is stridor. Diagnosis depends on anamnesis and flexible endoscopy, in a case of uncertainty the tracheobronchoscopy in general anesthesia is indicated. The main therapeutical modality is surgical excision. Regular check-up is necessary, because of often recurrence of the disease. Aim of this case report is to point out this rare disease and to add it to differential diagnosis of stridor in children.

Key words: subglottic cyst, stridor, newborn, infant, intubation, laryngoscopy.

Úvod

V hrtanu se mohou vzácně vyskytovat vrozené nebo získané cysty. Vrozené cysty hrtanu dělíme podle vzniku na duktální a sakulární. Duktální cysty vznikají uzávěrem vývodu submukózní žlázy, mohou se nacházet kdekoli v hrtanu a jsou lokalizovány povrchově ve sliznici. Sakulární cysty vznikají uzavřením a cystickou dilatací vchodu do ventrikulus laryngis. Podle lokalizace se cysty mohou vyskytovat v oblasti supraglotis, glotis nebo subglotticky. Příznaky závisí od lokalizace a velikosti cysty. Získané subglotické cysty mohou být pozánětlivé, poúrazové nebo vznikají po poranění hrtanu při chirurgickém výkonu. Jako nejčastější příčina vzniku subglotické cysty se uvádí následek intubačního poranění.

Získané subglotické cysty se vyskytují v novorozeneckém nebo kojeneckém věku, kdy nejrizikovější skupinou jsou nezralí novorozenci. Typickým klinickým projevem je dušnost a stridor. Cysty hrtanu mohou způsobit život ohrožující obstrukci dýchacích cest, proto je rozhodující časná diagnostika a terapie. V poslední době pacientů s touto diagnózou přibývá, a to díky lepší diagnostice a multiborové péči o předčasně narozené děti (1, 2).

Kazuistika

Dítě z první gravidity, pro podezření na HELLP syndrom (Hemolysis, Elevated Liver enzymes, Low Platelets) u matky byl porod indukován v 37 + 6 gestačním týdnem s nutností operačního vaginálního porodu, následně

bylo dítě krátce kříšeno. Z důvodu rozvoje metabolické acidózy a respiračního selhávání bylo dítě přeloženo do perinatologického centra s nutností umělé plicní ventilace. Postupně se stav stabilizoval a osmý den života byla možná extubace. Na následném MR mozku a EEG záznamu nebyla prokázána patologie.

V pěti měsících života bylo dítě vyšetřeno na ORL ambulanci pro 14 dní trvající stridor. Při endoskopickém vyšetření hrtanu (flexibilní laryngoskopie) byl nález v oblasti supraglotis a hlasivek bez patologie. S odstupem jednoho týdne bylo dítě hospitalizováno pro podezření na ALTE příhodu (apparent life-threatening events – příhoda náhlého ohrožení života) při gastroezofageálním refluxu s respiračním selháním a nutností intubace. Neurologické

vyšetření bylo v normě. Pro progresi inspiračně-expiračního stridoru byla provedena bronchoskopie s nálezem vyklenutí v oblasti zadní stěny subglotis, které téměř úplně uzavíralo průdušnici. Následně byla provedena rigidní laryngotracheoskopie v celkové anestezii, při které byla zjištěna subglotická cysta asi 0,5 cm pod hlasivkami, která z 90 % obturovala lumen průdušnice (Obr. 1, 2). Obsah cysty byl postupně aspirován a následně byla v jedné době provedena její marsupializace. V důsledku operace došlo k úplnému uvolnění lumen průdušnice (Obr. 3). Jako vedlejší nález byl popsán rozštěp hrtanu 1. stupně, bez nutnosti další intervence. Při kontrolní laryngotracheoskopii týden po operaci byl lokální nález klidný, subglotický lumen volný, na zadní stěně průdušnice byla

přítomná pouze mírná slizniční nerovnost (Obr. 4). Dítě je pravidelně sledováno v ORL ambulanci, je bez dechových potíží nebo stridoru. K recidivě cysty do 1 roku věku dítěte nedošlo, přetrvává mírná slizniční nerovnost zadní stěny subgloticky.

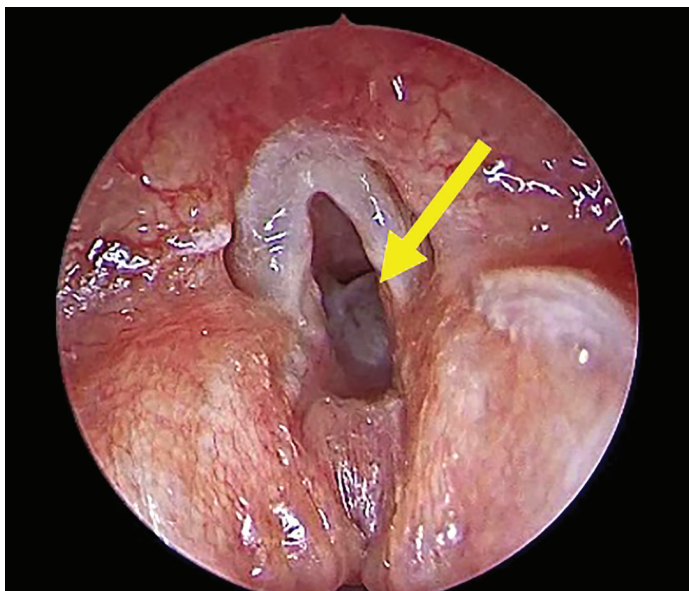
Diskuze

Subglotické cysty u dětí jsou ve většině případů získané, mohou ale být i vrozené. Jako nejčastější příčina se uvádí opakovaná intubace v novorozeneckém věku. Je náročné odlišit, zda byla cysta vrozená nebo získaná, protože novorozenec s respirační insuficiencí je většinou dříve intubován než laryngoskopicky vyšetřen. Získané cysty vznikají poraněním sliznice při intubaci. Poraněná sliznice se hojí

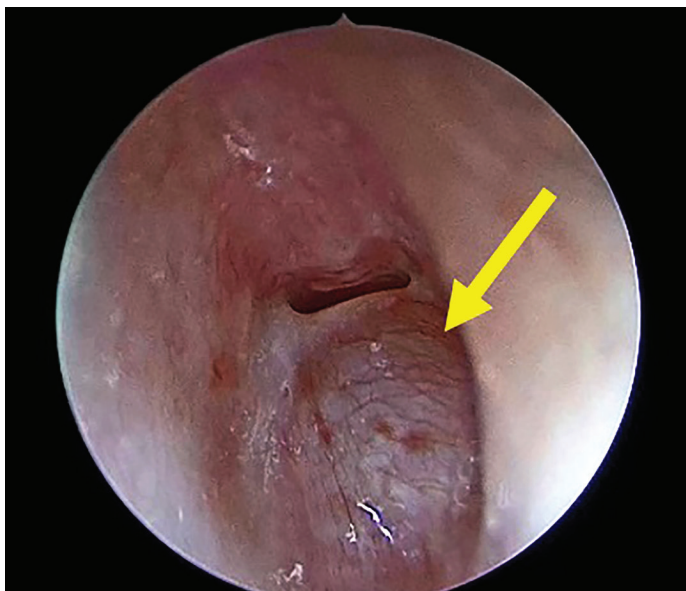
subepiteliální fibrózou, která uzavře vývod slinné žlázy, což vede ke vzniku retenční cysty v subglotis (2, 3, 4, 5, 6). Získané cysty se častěji nacházejí na levé straně, protože při intubaci pravou rukou je intubační endotracheální kanýla zaváděna zprava doleva (2).

Klinicky se subglotická cysta projeví typickými známkami obstrukce dýchacích cest. Dochází k postupnému rozvoji potíží jako inspiračně-expirační stridor, dyspnoe až apnoe, cyanóza a kvůli obstrukci dýchacích cest může náhle nastat smrt dítěte (2, 7). Růst cysty bývá v prvních týdnech až měsících zcela asymptomatický. Respirační potíže a stridor se zpravidla objevují několik týdnů až měsíců po intubaci, kdy dochází k významné obstrukci dýchacích cest (3).

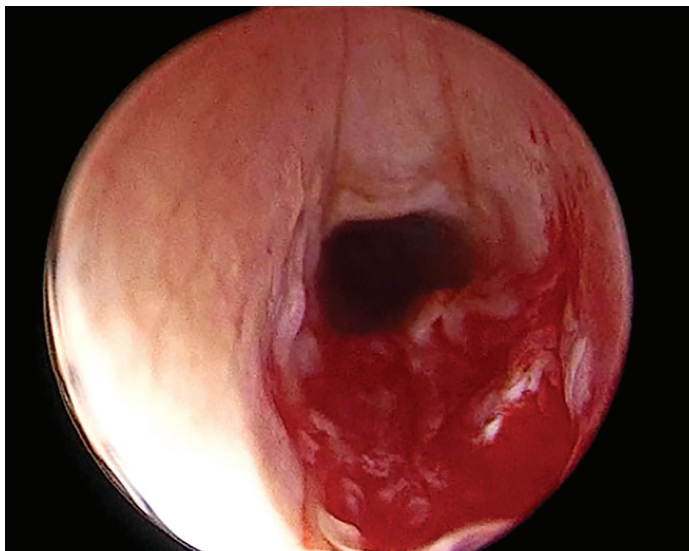
Obr. 1. Endoskopický pohled, viditelná subglotická cysta, která obturujelumen subglotis (šipka ukazuje na cystu)



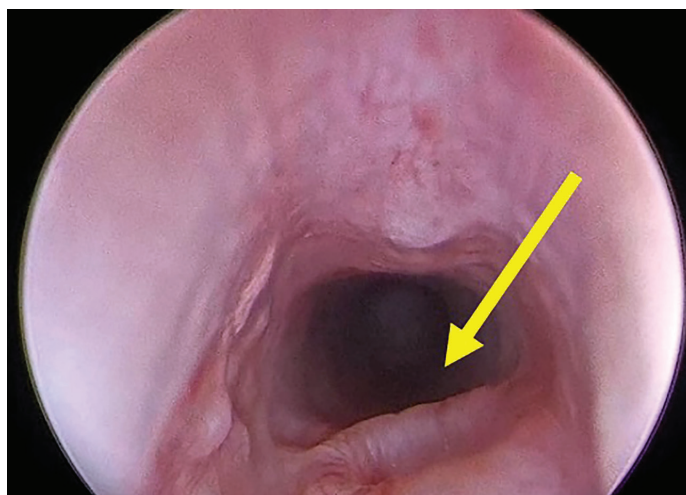
Obr. 2. Subglotická cysta, která z 90 % obturujelumen průdušnice (šipka), lumen je zachováno pouze v přední části v rozsahu 4 x 1 mm



Obr. 3. Endoskopický pohled, stav po aspiraci a odstranění stěny cysty



Obr. 4. Endoskopický pohled, kontrolní vyšetření týden po operaci, subglotický lumen volný, na zadní stěně průdušnice je přítomná pouze mírná slizniční nerovnost (šipka)



Tab. 1. Diferenciální diagnostika etiologie stridoru u dětí (8)

	Vrozené	Zánětlivé	Neoplastické	Neuromuskulární	Traumatické a jiné
Supraglotická oblast	laryngomalácie laryngokéla cysta epiglottis hemangiom lymfatická malformace	epiglottitida angioneurotický edém	papilom		cizí těleso strangulační poranění hematom
Glottická oblast	stenóza atrezie diafragma cysta hemangiom lymfatická malformace	laryngitida	papilom granulom	paréza hlasivek spasmus	hematom cizí těleso postintubační granulom zadní glottická stenóza
Subglottická oblast	stenóza cysta hemangiom	subglottická laryngitida	papilom		cizí těleso postintubační stenóza

Diagnostika subglottické cysty je založená na podrobné anamnéze (zejména dotaz na intubaci v novorozeneckém období) a flexibilní endoskopii hrtanu, event. doplnění zobrazovacích metod (2, 8). V případě diskrepance mezi závažností stridoru a nálezem při flexibilní endoskopii je indikováno endoskopické vyšetření hrtanu za použití optického kamerového systému v celkové anestezii (8).

Anamnesticky se zaměřujeme na průběh porodu, poporodní adaptaci dítěte a také nutnost endotracheální intubace. Zjišťujeme přítomnost a závažnost stridoru, jeho zhoršení při pláči nebo příjmu potravy, intenzitu a progresi respiračních potíží. Zajímá nás také promodrávání nebo potíže s krmením a nejspívání dítěte (8).

Flexibilní laryngoskopie je vyšetření dítěte bez celkové anestezie na ORL ambulanci. Flexibilním endoskopem zavedeným přes dutinu nosní lze vyšetřit hrtan a posoudit tvar epiglottis, známky laryngomalácie a hybnost hlasivek. Také lze odhalit papilomy nebo hemangiomy v oblasti supraglottis a glottis. Vyšetření subglottické oblasti je však u malých

dětí obtížné, proto nemusí subglottickou cystu odhalit. Pokud endoskopické vyšetření neprokáže patologii nad hlasivkami a je zřejmý výrazný stridor, je indikováno endoskopické vyšetření hrtanu a průdušnice v celkové anestezii (7, 8).

Stridor je typickým projevem subglottické cysty ale také mnoha dalších patologií v oblasti hrtanu a průdušnice. V diferenciální diagnostice (Tab. 1) je nutno myslet i na jiné nejčastější příčiny stridoru, a to laryngomalácii, poruchy hybnosti hlasivek, subglottický hemangiom a subglottickou stenózu (8, 9, 10).

Protože v případě našeho pacienta ambulantní ORL vyšetření neodhalilo patologii, v diferenciální diagnostice byla zvažována také ALTE příhoda při gastroezofageálním refluxu. ALTE příhoda se může projevovat typickými příznaky, jako je apnoe, změny barvy kůže, změny svalového tonu, kašel nebo vomitus (11).

Terapie subglottické cysty je chirurgická, endoskopická exstirpace nebo marsupializace cysty (2, 5). Výhodou je možnost využití tryskové ventilace. Operační pole je při pou-

žití tryskové ventilace přehlednější (nepřekáží endotracheální kanyla) a cystu lze odstranit šetrně a zároveň radikálně. Trysková ventilace také umožňuje provést operaci bez nutnosti dočasné tracheostomie.

Až 43 % subglottických cyst po odstranění recidivuje, mohou být také příčinou následné subglottické stenózy (2). Z důvodu časté recidivy je nutné kontrolní direktivní vyšetření hrtanu a následné sledování dítěte (3, 4, 5).

Závěr

Vzácnou příčinou stridoru v novorozeneckém a kojeneckém věku je subglottická cysta. Je nutné na ni myslet zejména u dětí, které byly před několika týdny až měsíci intubované. Endoskopické odstranění cysty je elegantním řešením s okamžitým efektem. Velkou výhodou je možnost využití tryskové ventilace při operaci. Po chirurgickém odstranění může dojít k recidivě cysty nebo vzniku subglottické stenózy, a proto je nezbytné následné sledování dítěte.

Podpořeno MZ ČR – RVO – FNOs/2022.

LITERATURA

- Agada FO, Bell J, Knight L. Subglottic cysts in children: a 10-year review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2006;70(8):1485-1488.
- Jakubíková J. Vrozené anomálie hlavy a krku. Praha: Grada; 2012.
- Ozmen S, Sahiner UM, Balaban I, et al. Subglottic cysts in a patient with recurrent stridor and respiratory distress. *Turk J Pediatr.* 2011; 53(6):684-686.
- Lim J, Hellier W, Harcourt J, Leighton S, et al. Subglottic cysts: the Great Ormond Street experience. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2003;67(5):461-465.
- Chandran A, Sagar P, Kumar R, et al. Addressing a rare cause of paediatric stridor: subglottic cyst BMJ Case Reports. CP 2020;13.
- Bruno CJ, Smith LP, Zur KB, et al. Congenital subglottic cyst in a term neonate. *Archives of Disease in Childhood – Fetal and Neonatal Edition.* 2009;94.
- Smith JD, Cotton R, Meyer CM. Subglottic Cysts in the Premature Infant. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1990;116(4):479-482.
- Klochanová I, Jankovičová A, Staníková A, et al. Diferenciální diagnostika inspiračního stridoru jako vrozené vývojové anomálie. *Pediatr. Prax.* 2015;16(2):57-61.
- Janoušek P, Kabelka Z, Marková M. Zúžení hrtanu a průdušnice u dětí. *Otorinolaryng a Foniatic (Prague).* 2006;55(3):161-167.
- Bodláková M, Jurovčík M, Katra R, et al. Stridor kongenitálního původu. *Otorinolaryng a Foniatic (Prague).* 2019;68(1):30-35.
- Kraus J. Náhlá a neočekávaná ohrožení života v dětské neurologii. *Pediatr. praxi.* 2011;12(5):332-335.