

Kasuistik

Ugeskr Læger 2022;184:V03220196

Idiopatisk subglottisk trakealstenose

Lisette Hvid Hovgaard & Thorbjørn Hermanrud

Øre-, Næse-, Hals- og Kæbekirurgisk Afdeling, Sjællands Universitetshospital, Køge

Ugeskr Læger 2022;184:V03220196

Subglottisk trakealstenose (SS) defineres som en forsnævring af det subglottiske rum, som strækker sig distalt for plica vocales til den nedre grænse af cartilago cricoidea [1].

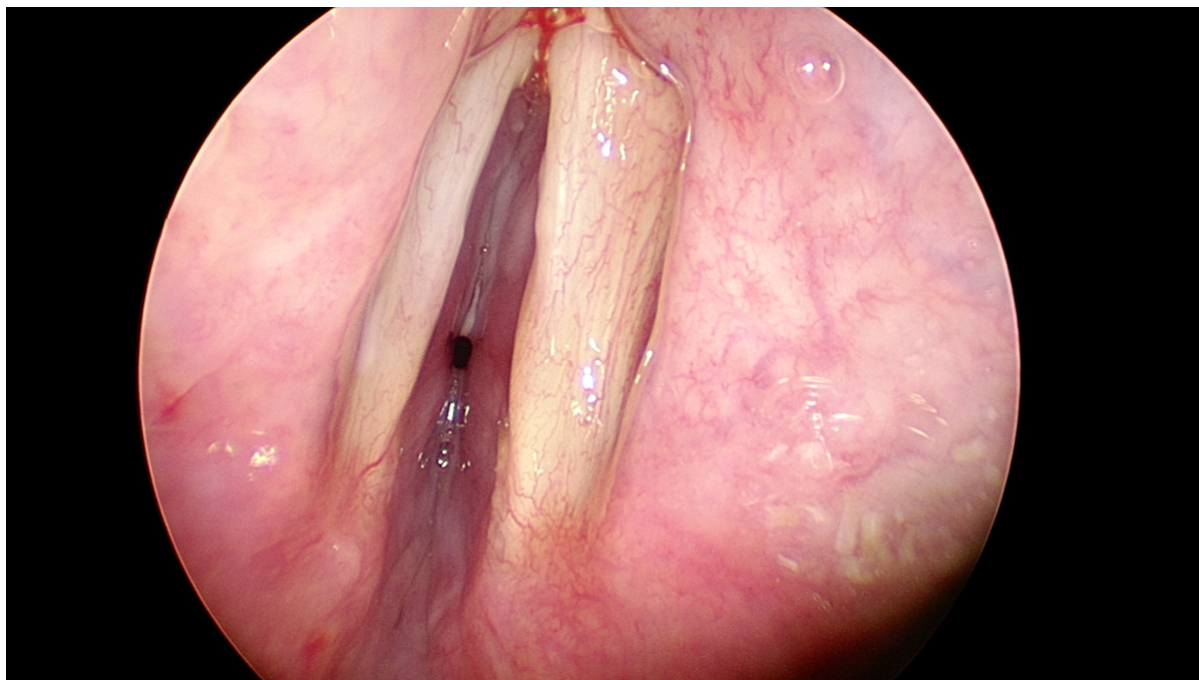
Iatrogene traumer (intubation, trakeostomi) er den hyppigste årsag til SS [1-4], mens sjældnere årsager omfatter infektiøse tilstande og reumatologiske sygdomme såsom granulomatose med polyangiitis (GPA). Betegnelsen idiopatisk subglottisk stenose (ISS) anvendes ved stenoser uden en identificerbar årsag [1, 2, 4]. Korrekt udredning og diagnose er vigtig, idet behandlingen afhænger af den underliggende årsag.

SYGEHISTORIE

En 49-årig kvinde med hypertension blev indlagt med akut respirationsinsufficiens og mistanke om uerkendt KOL i eksacerbation. Hun var tidligere ryger (30 pakkeår) og havde længe haft tendens til åndenød og hvæsende vejrtrækning, men var ikke udredt for lungelidelse.

Ved ankomsten til hospitalet var hun akut respiratorisk påvirket med en perifer iltmætning på 93% og hviledyspnø trods nasalt ilttilskud på 1,5 l/min. Hun var afebril, og blodprøverne viste let forhøjede infektionstal (leukocytter $13,5 \times 10^9/l$, CRP 10 mg/l) samt forhøjede nyretal (kreatinin 140 $\mu\text{mol/l}$, karbamid 11 mmol/l). En arteriel blodgasanalyse viste delvist kompenseret respiratorisk acidose. Der blev forsøgt iltbehandling på et intensivt afsnit, men pga. tiltagende konfusion og hyperkapni blev der fundet indikation for intubering og respiratorbehandling. Ved intubationsforsøg konstateredes der en impassabel subglottisk stenose, hvorfor der blev udført en akut kirurgisk trakeotomi på en operationsstue af en øre-næse-hals (ØNH)-læge. Den efterfølgende dag blev der taget biopsi fra og ballondilatation af stenosen i generel anæstesi.

Histologiundersøgelsen viste uspecifik inflammation samt små nekroseområder, der kunne være udtryk for GPA, men ikke var diagnostiske herfor. Efter dilatationen var der fortsat behov for nasalt ilttilskud, og to dage efter dilatationen viste en fiberlaryngoskopi begyndende restenosering uden behov for ny dilatation. Ved udskrivelse var respirationen normaliseret. Trakealkanylen havde været proppet i et døgn og blev fjernet.



Subglottisk trakealstenose før ballondilatation.

På mistanke om en underliggende GPA blev patienten udredt i nefrologisk og reumatologisk regi med blodprøver, højresolutions-CT (HRCT) og nyrebiopsi. Anamnestisk og objektivt blev der ikke fundet symptomer eller manifestationer på reumatologisk sygdom. Nyretallene var fortsat forhøjede, myeloperoxidase-antineutrofil cytoplasmisk antistof (ANCA) var lidt over nedre referencegrænse (9,3 kU/l), imens proteinase-3-ANCA var under referenceinterval (< 0,7 kU/l). HRCT'en blev beskrevet som værende uden overbevisende tegn på GPA, og nyrebiopsien viste uspecifik interstitiel inflammation, men var uden glomerulonefritisforandringer. GPA blev afkræftet, og man vurderede, at patienten havde ISS. Mod den interstitielle inflammation og nyreinsufficiensen påbegyndte man prednisolonbehandling i nefrologisk regi.

Patienten var ved en opfølgende ØNH-kontrol i klinisk bedring trods delvis restenosering og blev udtrappet af prednisolonbehandling.

DISKUSSION

ISS forekommer overvejende hos kaukaside kvinder i alderen 30-60 år [2]. Symptomerne omfatter funktionsdyspnø, stridor og hvæsende vejrtrækning, der oftest optræder sent i sygdomsforløbet [2].

ISS er en udelukkelsesdiagnose, hvorfor det er vigtigt at afklare eventuel tilgrundliggende ætiologi. Udredningen er baseret på en grundig anamnese samt objektiv undersøgelse, biokemi, CT, endoskopisk undersøgelse og biopsi [2-5]. Hos patienten i sygehistorien havde man mistanke om GPA, en ANCA-associeret vaskulitis, der påvirker en triade af organsystemer: øvre luftveje, lunger og nyrer [5]. 73% af patienterne med GPA debuterer med symptomer fra ØNH-området, og SS ses hos ca. 16% [4, 5]. Behandlingen af GPA er systemiske immunsuppressiva, men kirurgisk intervention er ofte nødvendig ved SS [5]. Den hyppigste kirurgiske behandling er ballondilatation, men recidivrisikoen er stor, og der er ofte behov for redilatation med 6-12 måneders mellemrum [1-3]. Åben kirurgi med resektion af stenosen forekommer sjældent, men anbefales ved komplekse stenoser [3].

SS er en sjælden sygdom, men en vigtig differentialdiagnose, da symptomerne kan forveksles med hyppigere luftvejssygdomme som astma og KOL. Respiratorisk påvirkede patienter med stridorøs vejrtrækning bør snarest

efter ankomst til hospital få foretaget fiberlaryngoskopi ved en ØNH-læge for vurdering af øvre luftveje, således at den korrekte behandling og evt. kirurgisk intervention kan iværksættes. På hospitaler uden ØNH-afdeling bør en anæstesiolog involveres i den akutte vurdering og konferere med den vagthavende ØNH-læge ift. videre håndtering.

Korrespondance *Lisette Hvid Hovgaard*. E-mail: lisette@hovgard.dk

Antaget 21. juni 2022

Publiceret på ugeskriftet.dk 8. august 2022

Interessekonflikter ingen. Forfatterens ICMJE-formularer er tilgængelige sammen med artiklen på ugeskriftet.dk

Referencer findes i artiklen publiceret på ugeskriftet.dk

Artikelreference Ugeskr Læger 2022;184:V13220196

SUMMARY

Idiopathic subglottic tracheal stenosis

Lisette Hvid Hovgaard & Thorbjørn Hermanrud

Ugeskr Læger 2022;184:V03220196

Subglottic stenosis (SGS) is a rare condition. The aetiology of SGS can be congenital, iatrogenic, idiopathic or caused by infectious and vascular diseases. In this case report, a 49-year-old woman was admitted to the hospital due to acute respiratory insufficiency. During intubation attempt SGS was found, and acute tracheotomy was performed. Biopsies from SGS and serology did not support an underlying vascular disease and the patient was diagnosed with an idiopathic SGS. SGS is a rare cause of acute respiratory insufficiency but is important to consider as a differential diagnosis.

REFERENCER

1. D'Andrilli A, Venuta F, Rendina EA. Subglottic tracheal stenosis. *J Thorac Dis.* 2016;8(Suppl 2):S140-147.
2. Aravena C, Almeida FA, Mukhopadhyay S et al. Idiopathic subglottic stenosis: a review. *J Thorac Dis.* 2020;12(3):1100-1111.
3. Hasan W, Gullane P. Laryngeal split and rib cartilage interpositional grafting: treatment option for glottic and subglottic stenosis in adults. *Thorac Surg Clin.* 2018;28(2):189-197.
4. Agrawal A, Baird BJ, Madariaga MLL et al. Multi-disciplinary management of patients with benign airway strictures: a review. *Respir Med.* 2021;187:106582.
5. Erickson VR, Hwang PH. Wegener's granulomatosis: current trends in diagnosis and management. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2007;15(3):170-176.