

گزارش یک مورد لارنگومالاسی شدید، اختلال بلع و ریفلاکس گاستروازوفازيال در نوزاد

*دکتر مرجانه زرکش (MD) - دکتر طاهره رستمی (MD)^۱

* نویسنده مسئول: رشت، دانشگاه علوم پزشکی گیلان، بیمارستان هفده شهریور

پست الکترونیک: zarkesh@gums.ac.ir

تاریخ دریافت مقاله: ۸۸/۲/۱۹ تاریخ پذیرش: ۸۸/۱۲/۱۵

چکیده

مقدمه: لارنگومالاسی شایع‌ترین علت استریدور در نوزادان از بین مالماسی راه‌های هوایی است که می‌تواند همراه با ریفلاکس گاستروازوفازيال باشد. از طرفی تاکنون موارد معدودی از اختلال بلع در نوزادانی که بیماری زمینه‌ای ندارند، گزارش شده که بعضاً همراه با لارنگومالاسی و ریفلاکس هم بوده است. هر سه این اختلال‌ها می‌توانند سبب بروز FTT و بستری مکرر نوزاد و شیرخوار شود. درمان بموقع سبب کاهش عوارض در بیماری می‌شود. در این مقاله یک نوزاد دچار لارنگومالاسی شدید و اختلال بلع با ریفلاکس را که نیاز به مداخله جراح پیدا کرد، معرفی می‌کنیم تا توجه پزشکان را به سیر بالینی این اختلال‌ها از لحظه تولد تا ترخیص جلب کنیم.

معرفی مورد: بیمار نوزاد پسر ترم حاصل زایمان طبیعی و بدون مشکل خاص طی دوران جنینی از پدر و مادر غیرمنسوب بود که با وزن تولد ۳۱۰۰ گرم و آپگار مناسب بدنیا آمد که پس از تولد در اتاق زایمان دچار استریدور خفیف دمی و رترکشن زیردنده و بالای استرنوم شده، به بخش مراقبت ویژه نوزادان منتقل شد. با انتوباسیون علائم وی بهتر شد سپس، چندین بار طی ۲/۵ ماه اول تولد اتوبه شد. وی به‌طور مکرر دچار پنومونی می‌شد که سرانجام با درمان ریفلاکس وضعیت ریه‌اش بهبود یافت. به‌دلیل ناتوانی در بلع، شیر گاواژ می‌شد ولی به‌رغم دریافت کالری کافی دچار FTT هم شد. در ۲/۵ ماهگی با تراکتوستومی وضعیت تنفسی وی بهبود یافت و در ۳ ماهگی گاستروستومی شد. در ۱۰۰ روزگی با حال عمومی خوب مرخص شد. زمان گزارش ۱۰ ماهه و با وزن ۹ کیلوگرم بود.

نتیجه‌گیری: اگرچه بعید است که لارنگومالاسی از بدو تولد علامت‌دار شود ولی باید همواره آن را به عنوان یک علت احتمالی دیسترس تنفسی از اتاق زایمان مد نظر داشت. گزارش دیسترس تنفسی از بدو تولد به همراه استریدور، ناتوانی در بلع شیر، پنومونی مکرر و FTT در نوزاد بدون بیماری زمینه‌ای، باید شک پزشک را به وجود همزمان اختلال بلع و لارنگومالاسی برانگیزاند که هر دوی این اختلال‌ها می‌تواند همراه ریفلاکس گاستروازوفازيال هم باشد. در صورت پاسخ‌ندادن به درمان طبی و مورد انتظار، نیاز به مداخله جراحی وجود خواهد داشت.

کلید واژه‌ها: اختلالات بلع / رفلوی معده به مری / لارنگومالاسی / نوزاد

مجله دانشگاه علوم پزشکی گیلان، دوره نوزدهم شماره ۷۶، صفحات: ۸۷-۸۳

مقدمه

کودک با سن متوسط ۶ ماهه که در این مطالعه بررسی شده‌بودند، ۶ نفر FTT داشتند (۲). البته نیاز به تراکتوستومی در نوزادانی که انسداد راه هوایی فوقانی یا نیاز به انتوباسیون طولانی مدت دارند از ۲/۷٪ در سال ۱۹۷۸ به ۰/۵۵٪ در سال ۲۰۰۱ کاهش یافته‌است (۴). از طرفی لارنگومالاسی می‌تواند همراه با ریفلاکس گاستروازوفازيال باشد که خود، انسداد راه هوایی را بیشتر می‌کند (۵).

در مطالعه‌ای در سال ۲۰۰۳، Heuschkel و همکاران طی یک بررسی ۱۰ ساله بر ۹ شیرخوار زیر ۲ ماهه که با اختلال بلع ایزوله و بدون بیماری زمینه‌ای مراجعه کرده بودند، لارنگومالاسی در یک بیمار، تراکتومالاسی در یک بیمار دیگر و ریفلاکس گاستروازوفازيال در ۵ بیمار را همزمان با وجود اختلال بلع گزارش کردند. سن متوسط شروع علائم 4 ± 9 روزگی بود. هیچ شیرخواری در معاینه ناهنجاری مادرزادی

شیوع مالماسی اولیه راه‌های هوایی در یک از هر ۲۶۰۰ مورد نوزاد سالم گزارش شده‌است. مالماسی ثانویه در نوزادانی که اختلال‌هایی چون آترزی مری یا برخی سندرم‌ها را دارند دیده می‌شود (۱). از مالماسی راه‌های هوایی، لارنگومالاسی شایع‌ترین علت استریدور در نوزادان و دلیل ۱/۲ تا ۲/۳ موارد تنفس صدادار در این گروه سنی است (۲). استریدور، دمی و با بی‌قراری تشدید شده است که در حالت استراحت کاملاً از بین می‌رود. گاهی ممکن است علائم در موقع تولد ظاهر شوند (۳). در ۱۰٪ موارد لارنگومالاسی شدید است و نیاز به مداخله جراحی دارد. در مطالعه‌ای در سال ۲۰۰۶، نشان داده‌شد که شایع‌ترین علت جراحی آن، وجود استریدور و رترکشن تنفسی، شدیدتر از آنچه در لارنگومالاسی انتظار می‌رود، می‌باشد. همچنین، درمان FTT (Failure To Thrive) و آپنه نیز از علل جراحی در لارنگومالاسی است. از ۱۰

گزارش فعلی جلب توجه پزشکان به سیر بالینی یک نوزاد است که همزمان دچار هر سه اختلال بود و از اتاق زایمان هم علامت‌دار شده بود.

معرفی بیمار

بیمار نوزادی پسر حاصل زایمان طبیعی با سن داخل رحمی ۳۸ هفته، بدون مشکل بخصوص طی دوران جنینی با وزن تولد ۳۱۰۰ گرم و آپگار ۸/۱۰ بود. پدر و مادر وی منسوب نبودند. پس از تولد وی در اتاق زایمان دچار استریدور خفیف دمی و رترکشن زیر دنده‌ای و بالای استرنوم شد. سایر معاینه‌ها طبیعی بود. بیمار سریعاً به بخش مراقبت ویژه نوزادان منتقل شد و به دلیل دیسترس تنفسی و $Co_2=85$ میلیمتر جیوه در اولین آزمایش گازهای خون شریانی، انتوبه و به ونتیلاتور وصل شد که علایم وی بهبود یافت. رادیوگرافی روز اول طبیعی بود ولی رادیوگرافی در روز چهارم پنومونی لوبر فوقانی ریه راست را نشان داد. در رادیوگرافی‌های ماه اول تولد پنومونی لوبر ریه راست (چند بار) و پنومونی لوب ریه چپ (یک بار) در حالی که نوزاد آنتی‌بیوتیک مناسب نیز دریافت کرده بود، گزارش شد. به رغم انتوباسیون، گاوآژ شیر به مقدار کم از روز دوم تولد شروع شد و بتدریج افزایش یافت. تغذیه کامل وریدی هم انجام شد. اینترا لیبید به دلیل عفونت ریه تجویز نشد. در ۴ روزگی برای بار اول از ونتیلاتور جدا و لوله تراشه خارج شد ولی در ۶ روزگی با برگشت دیسترس تنفسی و استریدور خفیف دمی و افزایش Co_2 شریانی مجدداً اینتوبه و به ونتیلاتور وصل شد. خواباندن به شکم اثر چندانی در وضعیت نوزاد نداشت. کلاً تا پایان ۲ ماهگی ۵ بار لوله تراشه خارج شد و هر بار با تابلوی فوق مجدداً انتوبه شد. آنزیم‌های عضلانی و سونوگرافی جمجمه نرمال بودند. از ۱۰ روزگی فقط انتوبه می‌شد (بدون آن به ونتیلاتور نیاز باشد) و با اینتوباسیون علایم دیسترس تنفسی کاملاً بهبود و Co_2 کاهش پیدا می‌کرد. هنگامی که لوله تراشه نداشت با گریه و بی‌قراری دچار استریدور خفیف دمی و سیانوز و دیسترس تنفسی می‌شد ولی در زمان خواب هیچ علامتی نداشت و قادر به بلع شیر نبوده، شیر را در دهان نگهداشته و همزمان دچار کاهش اشباع اکسیژن شریانی

نداشت. برای ۶ نفر از آنان گاستروستومی و برای ۳ نفر نیز تغذیه با لوله بینی-ژژونال انجام شد. اگرچه قبل از این مطالعه توصیه می‌شد گاستروستومی بعد از ۳-۶ ماه تغذیه با لوله بینی-معدده‌ای انجام شود، ولی در این مطالعه حتی برای نوزاد ۲۰ روزه هم گاستروستومی انجام شده بود. در ۷ نفر از آنان تا ۴۰ ماهگی بهبود خودبخود بلع بوجود آمد و پیش‌آگهی در آن‌ها عالی بود. تا پیش از این مطالعه، فقط ۱۶ مورد اختلال بلع ایزوله نوزادی در دنیا گزارش شده بود (۶).

در مطالعه‌ای دیگر در سال ۲۰۰۶ Lefton-Grief و همکاران در یک بررسی ۴ ساله بر ۱۹ کودک دچار اختلال بلع بدون عامل خطر که با علائم تنفسی مراجعه کرده بودند و سن متوسط ۱/۱۴ سال داشتند دیدند که در ۱۶ کودک اختلال بلع طی ۳ ماه اول تولد شروع شده بود و ۱۰ کودک همزمان ریفلاکس، ۸ کودک FTT یا وزن کم و ۱ کودک لارنگومالاسی خفیف داشتند. در ۵ کودک گاستروستومی انجام شد و اگرچه گفته می‌شد بهبود در ۳-۴ سالگی است ولی ۴ کودک تا بعد از ۹ سالگی هم مشکل بلع داشتند (۷). Sheikh و همکاران در مطالعه‌ای که در سال ۲۰۰۱ بر ۱۳ شیرخوار ترم سالم با اختلال بلع ایزوله و علائم تنفسی راجعه بدون ریفلاکس انجام شده بود، دریافتند متوسط سن شروع علائم در آنان $1/6 \pm 2$ ماهگی است. طی ویدئوفلوروسکوپی همگی آنان اسپیراسیون خاموش (بدون سرفه) داشتند و بهبود بلع در ۳-۹ ماهگی بود (۸). در مطالعه‌ای دیگر Newman و همکاران در سال ۲۰۰۱ نشان دادند که از ۹ شیرخوار زیر یکسال که به علت اختلال بلع به همراه بیماری زمینه‌ای دیگر دچار اسپیراسیون شده بودند، ۸ کودک در موقع اسپیراسیون سرفه نداشتند. لذا توصیه شد برای ارزیابی بلع در این شیرخواران از ویدئو فلوروسکوپ استفاده شود (۹).

بنابراین، اختلال بلع ایزوله نوزادی به صورت نادر در نوزادانی که در معاینه ناهنجاری مادرزادی و بیماری زمینه‌ای ندارند، گزارش شده است و می‌تواند همراه لارنگومالاسی یا ریفلاکس گاستروازوفازیال باشد. از طرفی لارنگومالاسی شدید که از بدو تولد علامت‌دار شده و نیاز به مداخله جراحی پیدا کند نیز یافته‌ای غیرمعمول است. از آنجا که تاکنون همراهی این موارد با هم گزارش نشده است، هدف از

معمولاً در نوزادانی دیده می‌شود که اختلال عصبی - عضلانی دارند (۳). ولی بیمار ما در عین حالی که حملات انسداد راه هوایی همراه با سیانوز را داشت از نظر معاینه عصبی - عضلانی و آنزیم‌های عضلانی و سیر تکاملی سالم بود. درمان انتظاری در بیشتر کودکانی که فقط لارنگومالاسی دارند و علایم آنها خفیف تا متوسط است طی سال اول عمر توصیه می‌شود و اغلب موارد کودک در این مدت به دلیل تکامل راه هوایی سوپراگلوتی بهبود می‌یابد (۵). خواباندن به شکم سبب بهبود علایم در لارنگومالاسی می‌شود. اختلال تغذیه در لارنگومالاسی نادر است (۳) اما بیمار ما با خواباندن به شکم تغییر چندانی نداشت و جزء ۱۰٪ از موارد لارنگومالاسی شدید بود که دچار حملات انسداد راه هوایی و FTT شده و نیاز به مداخله جراحی پیدا می‌کنند. این بیمار به رغم دریافت کالری کافی دچار FTT شد و شدت دیسترس تنفسی در زمان بی‌قراری و گریه به حدی بود که سیانوز می‌شد لذا بدون مداخله جراحی امیدی به بهبود وجود نداشت. علت دیگر برای FTT وی، وجود ریفلاکس گاستروازوفاژ بود.

ریفلاکس ممکن است با لارنگومالاسی همراه باشد و به علت افزایش فشار منفی داخل قفسه سینه ناشی از لارنگومالاسی، تشدید شده، باعث FTT شود (۱۰) لذا درمان ریفلاکس به بهبود FTT کمک می‌کند. ریفلاکس از علل پنومونی آسپیراسیون در نوزاد است (۳) (که گزارش رادیوگرافی‌های بیمار هم چندین بار به نفع پنومونی آسپیراسیون بود).

معمولاً ریفلاکس تا اواخر سال اول عمر بهبود می‌یابد ولی ممکن است تا سال دوم نیز ادامه پیدا کند (۵). از طرفی ریفلاکس باعث کاهش حساسیت حلق و حنجره و در نتیجه اختلال بلع می‌شود (۱۱). بیمار ما به رغم دریافت داروی مناسب ریفلاکس همچنان اختلال بلع داشت. اگرچه اختلال بلع در نوزادان در اثر اختلال CNS و تأخیر تکامل عصبی و برخی سندرم‌ها با درگیری سر و صورت دیده می‌شود ولی ممکن است به‌طور نادر بدون هیچ عمل خطرناکی به شکل ایزوله هم دیده شود (۷).

شایع‌ترین علت اختلال بلع ایزوله در نوزادان، نارس بودن آنهاست ولی در نوزادان ترم علت آن شناخته شده نیست. تاکنون موارد معدودی از آن در نوزادان گزارش شده که بعضاً

می‌شد. لذا تغذیه با لوله دهانی - معده‌ای انجام می‌شد. از هفته دوم تولد به دلیل وزن نگرافتن و گزارش پنومونی آسپیراسیون در عکس ریه و مشاهده ریفلاکس گاستروازوفاژ، از وفاژیل در سونوگرافی با تشخیص ریفلاکس گاستروازوفاژ، درمان با متوکلوپرامید همراه با وضعیت مناسب برای ریفلاکس شروع شد ولی در یک ماهگی همچنان ریفلاکس در سونوگرافی دیده می‌شد، در رادیوگرافی ریه پنومونی گزارش می‌شد و وزن‌گیری مناسب هم وجود نداشت لذا درمان ریفلاکس با دومپریدون و رایتیدین شروع شد. پس از آن وضعیت ریه بهتر و وزن‌گیری سرعت بیشتری یافت و سونوگرافی بعدی نرمال گزارش شد. در یک ماهگی به رغم گاوآش شیر در حد 180-200cc/kg روزانه، وزن بیمار به ۳۲۵۰ گرم رسید و دچار FTT شده بود. کلیه کشت‌ها منفی، فعالیت تریپسین مدفوع طبیعی بود و آنمی نداشت. از ۲ ماهگی لوله تراشه خارج شد ولی وی همچنان قادر به بلع شیر نبود و با بی‌قراری و گریه دچار دیسترس تنفسی شدید و استریدور خفیف می‌شد. در پایان ۲ ماهگی لبخند معنی‌دار داشت و در ۲/۵ ماهگی گردن می‌گرفت. در ۲/۵ ماهگی روزانه ۷۲۰ میلی‌لیتر شیر گاوآش می‌شد و وزن وی به ۴kg رسیده بود. با برونکوسکپی مستقیم، لارنگومالاسی تشخیص داده شد ولی تراشه سالم بود. در ۲/۵ ماهگی تراکتوستومی انجام شد و پس از آن وضعیت تنفسی بهبود یافت و حمله‌های دیسترس تنفسی تکرار شد ولی وی همچنان قادر به بلع شیر نبود و شیر را در دهان نگه می‌داشت و دچار کاهش درصد اشباع اکسیژن خون می‌شد. لذا در ۳ ماهگی گاستروستومی و در ۱۰۰ روزگی با حال عمومی خوب از بیمارستان مرخص شد. در زمان گزارش شیرخوار ۱۰ ماهه بود، و وزن وی به ۹ کیلوگرم رسیده و همچنان تراکتوستومی و گاستروستومی داشت.

بحث و نتیجه‌گیری

موارد شدید لارنگومالاسی معمولاً در دوره نوزادی بویژه در نوزادان وابسته به ونتیلاتور یا در داشتن حمله‌های انسداد راه هوایی همراه با سیانوز تشخیص داده می‌شود (۱).

البته انسداد شدید راه هوایی در لارنگومالاسی شایع نیست و

آمدن نوزاد انسان، وجود سر بزرگ او در مقایسه با خروجی کوچک لگن مادر است. حالت ایستادن در انسان سبب تغییر شکل و کوچک شدن خروجی لگن شده است (۵). بیمار معرفی شده ما، نشان می‌دهد که باید لارنگومالاسی را جزء علل نادر دیسترس تنفسی در اتاق زایمان دانست. همچنین، در نوزادی که قادر به بلع مناسب نیست و بیماری عصبی-عضلانی ندارد باید اختلال بلع ایزوله نوزادی را مدنظر داشت. همراهی همزمان این دو اختلال با هم و با ریفلاکس گاستروفازیال در نوزادی که مشکل تنفسی، FTT و اختلال بلع دارد را باید به‌عنوان موردی نادر در ذهن داشت. در صورت پاسخ ندادن به درمان طبی و درمان انتظاری، نیاز به مداخله جراحی وجود خواهد داشت تا علائم سریع‌تر بهبود یابند.

با لارنگومالاسی و ریفلاکس همراهی داشته است (۶). به نظر می‌رسد که بیمار ما هم جزء این موارد معدود بوده باشد و البته موردی از همراهی اختلال بلع ایزوله با لارنگومالاسی شدید گزارش نشده است.

در نوزادی که مشکلات مزمن تنفسی مانند استریدور-پنومونی مکرر دارد باید اختلال بلع را در نظر داشت. تصور می‌شود این اختلال حالتی از تأخیر هماهنگی عصبی-عضلانی باشد که خودبخود بهبود می‌یابد و پیش‌آگهی آن خوب است (۸). درمان مناسب و بموقع سبب کاهش موربیدیت آن می‌شود (۷). گفته شده که اگر طول دوره جنینی انسان از ۹ به ۲۱ ماه می‌رسید بسیاری از اختلال‌های اتولارنگولوژی مثل لارنگومالاسی و ریفلاکس کمتر دیده می‌شد. علت زود بدنیا

منابع

1. Boogard R, Huijsmans S H, Pijnenburg M W H, et al. Tracheomalacia and Bronchomalacia In Children. CHEST 2005; 128; 3391-3397.
2. Kay DJ, Gold Smith A J. Laryngomalacia: A Classification System and Surgical Treatment Strategy. Ear, Nose & Throat J 2006; 865): 328-31, 336.
3. Sprecher R C, Arnold J E. Upper Airway Lesions. In: Martin R J, Fanaroff AA, Walsh MC. Neonatal Perinatal Medicine. 8th Edition. Philadelphia; Mosby, 2006: 1151.
4. Pereira KD, Smith SL, Henry M. Failed Extubation In The Neonatal Intensive Care Unit. International J of Pediatric Otorhinolaryngology 2007; 71: 1763-1766.
5. Bluestone CD. Humans Are Born Too Soon: Impact On Pediatric Otolaryngology. International J of Pediatric Otorhinolaryngology 2005; 69:1-8.
6. Heuschkel RB, Fletcher K, Hill A, et Al. Isolated Neonatal Swallowing Dysfunction, Digestive Diseases and Sciences, 2003; 461): 30-5.
7. Lefton-Grief MA, Carroll JI, Loughlin GM. Long-Term Follow-Up of Oropharyngeal Dysphagia In Children Without Apparent Risk Factors. Pediatric Pulmonary 2006; 41: 1040-1048.
8. Sheikh Sh, Allen E, Shell R. Chronic Aspiration Without Gastroesophageal Reflux As A Cause Of Chronic Respiratory Systems In Neurologically Normal Infants. CHEST 2001; 120: 1190-1195.
9. Newman LA, Keckley C, Peterson MC, et Al. Swallowing Function and Medical Diagnosis In Infants Suspected Of Dysphagia Pediatrics 2007; 108(6): 14 15.
10. Graham JM, Scadding GK, Bull PD. Pediatric ENT, Springer, 2007: 204. Available From: <http://books.google.com>.
11. Dana L. Suskind, Dana M. Thompson, Martha Gulati, et Al. Improved Infant Swallowing After Gastroesophageal Reflux Disease. May 2006. Available From: <http://www.interscience.wiley.com/journal/121607445>.

A Case Report of Severe Laryngomalacia, Swallowing Dysfunction and Gastroesophageal Reflux in a Newborn

*Zarkesh M.(MD)¹ - Rostami T.(MD)¹

*Corresponding Address: 17 sharivar Hospital, Gilan University of Medical Sciences, Rasht, IRAN

E-mail: zarkesh@gums.ac.ir

Received: 11 Oct/2009 Accepted: 6/Mar/2010

Abstract

Introduction: Laryngomalacia is the most common cause of stridor between airways malacia in neonates. It can be accompanied by gastroesophageal reflux. Few cases of swallowing dysfunction were reported in neonates with no underlying disorders some of them had laryngomalacia and reflux too.

All three causes can lead to neonatal or infantile FTT or recurrent hospitalization.

Timely treatment decreased complications of diseases; we reported a case of a newborn that contracted severe laryngomalacia, swallowing dysfunction and gastroesophageal reflux which needed surgery, in order to attract physicians' attention to the aspect and clinical process of these complications, from birth to discharge.

Case Report: Patient was a full term baby boy who was born by normal vaginal delivery without special problem in his fetal status. His parents were not relative. His birth weight was 3100gr and he had appropriate apgar scores, he contracted mild respiratory stridor, subcostal and upper sternal retraction after birth at the delivery room and was referred to NICU.

After intubation his signs eliminated, he was intubated several times during the first 2.5 months after birth. He got pneumonia repeatedly and his lung condition improved with reflux treatment. Because of disability in swallowing, milk was gavage for him. But in spite of enough intake calories, he contracted FTT. His respiratory condition improved with tracheostomy in 2.5 months, and gastrostomy was done in 3 months old.

He released with a good condition in 100 days old. He was 10 months and his weight was 9kg.

Conclusion: Although, it is impossible that laryngomalacia have got signs at birth but it should be concerned as probable cause of respiratory distress in labor room. A report of respiratory distress at birth in company with stridor, disability in milk ingestion, recurrent pneumonia and FTT (without co-existing disease) should get physicians suspicious of coincident swallowing dysfunction and laryngomalacia. Both two disturbances can be accompanied by gastroesophageal reflux too. If there was no response to expected medical management, surgical interventions should be necessary.

Key words: Deglutition Disorders/ Gastroesophageal Reflux/ Infant, New born/ Laryngomalacia

Journal of Gilan University of Medical Sciences, No: 83-87