

Uno strano caso di stridore inspiratorio e disfagia

An unusual case of inspiratory stridor and dysphagia

Riassunto

L'insorgenza di stridore inspiratorio e disfagia può essere determinata da numerose cause e per tale motivo a volte può essere difficoltoso giungere alla diagnosi ed al corretto approccio terapeutico.

Nel presente lavoro descriviamo il caso di un paziente di 72 anni, maschio, caucasico, con una stenosi tracheale concentrica associata ad ipomobilità bilaterale delle corde vocali e aspirazione polmonare di cibo secondaria ad ictus ischemico e reflusso gastro-esofageo.

Il paziente è stato inizialmente sottoposto ad un trattamento medico intensivo che purtroppo non ha evitato il progressivo peggioramento della condizione anatomica e della sintomatologia. Siamo infine giunti alla diagnosi corretta dopo un complesso iter diagnostico ed infine è stata eseguita una ventricolo-cordectomia posteriore destra tramite laser a diodi.

Summary

There are a number of causes which can lead to the onset of inspiratory stridor and dysphagia and it is sometimes difficult to achieve diagnosis and correct therapeutic approach. We describe the case of a 72-year old man, caucasian, with subglottic concentric tracheal stenosis associated with bilateral vocal chord hypomobility and chronic tracheal and pulmonary aspiration of food material as a result of a stroke and gastro-oesophageal reflux. The patient was initially subjected to intensive medical treatment which however did not prevent progressive worsening of the anatomic condition and the symptoms. We arrived at the diagnosis after conducting a number of tests.

A diode laser-assisted right posterior ventriculocordectomy was then carried out which made it possible to improve the clinical condition.

Introduzione

Esistono numerose condizioni che determinano lo sviluppo di stridore inspiratorio e disfagia. Tali cause sono a volte complesse, eterogenee (di tipo infettivo e non, congenite ed acquisite, iatrogeniche ed altre ancora) (Tabelle 1a, 1b) e possono rendere difficoltosa la corretta diagnosi e di conseguenza il giusto approccio terapeutico.

In questo lavoro riportiamo il caso di un paziente con una grave stenosi subglottica concentrica associata ad ipomobilità bilaterale delle corde vocali, aspirazione tracheale e polmonare cronica di materiale alimentare come conseguenza di un pregresso ictus ischemico e reflusso gastro-esofageo. Tutto questo ha comportato un complesso e difficoltoso iter diagnostico ed infine un delicato intervento di chirurgia endoscopica delle alte vie respiratorie.

Caso clinico

Giunge alla nostra attenzione un paziente maschio, 72 anni, caucasico, ex fumatore (30 pack/year) da 5 anni che presenta dispnea, tirage e malessere da alcuni mesi.

In anamnesi ictus ischemico con secondaria emiparesi successivamente regredita, lieve ipostenia dell'arto inferiore, difficoltà nella deglutizione con comparsa di tosse e disartria. Il paziente non era mai stato sottoposto ad intubazione oro-tracheale precedentemente.

Il primo ricovero avviene in aprile 2008. All'ingresso il paziente presentava una saturazione ossiemoglobinica del 97% in aria ambiente, con presenza all'esame emocromocitometrico di leucocitosi neutrofila (13670/mm³) ed eosinofilia periferica (23,10%). Tutti i tests immuno-reumatologici, compresi p-ANCA



Giorgio Vezzani (foto)
Francesco Menzella
Roberto Saetti*
Luigi Zucchi

S.C. Pneumologia, Arcispedale Santa Maria Nuova, Reggio Emilia; * U.O. di Otorinolaringoiatria dell'I.R.C.C.S. "Casa Sollievo della Sofferenza", San Giovanni Rotondo (FG)

Responsabile Programma Attività Formativa ECM FAD:
Giorgio Vezzani

Parole chiave

Disfagia • Stridore • Stenosi tracheale • Ventricolo-cordectomia

Key words

Dysphagia • Stridor • Tracheal stenosis • Ventriculocordectomy

Accettato il 29-7-2010.



Giorgio Vezzani
S.C. Pneumologia, Arcispedale Santa Maria Nuova
v.le Risorgimento, 80
42100 Reggio Emilia
giorgio.vezzani@asmn.re.it

e c-ANCA per escludere eventuali vasculiti, erano risultati negativi, così come negativi erano risultati i markers neoplastici, l'intradermoreazione di Mantoux ed il dosaggio dell'ACE sierico. Nella norma la funzionalità renale.

Abbiamo quindi eseguito numerose indagini funzionali e di imaging, a partire dalle prove di funzionalità respiratoria, le quali mostravano una sindrome disventilatoria restrittiva lieve, con la curva flusso-volume ad indicare una ostruzione delle alte vie respiratorie (Figura 1).

La condizione era compatibile con una flogosi suppurativa secondaria ad aspirazione cronica di materiale di tipo alimentare.

Alla fibrobroncoscopia abbondante essudato purulento nei seni piriformi ed una stenosi tracheale concentrica cicatriziale a livello subglottico con estensione cranio-caudale di 4-5 cm, diametro massimo di 7-8 mm (Figura 2A). La mucosa era iperemica, facilmente sanguinante, con presenza di depositi xantomatoidi al

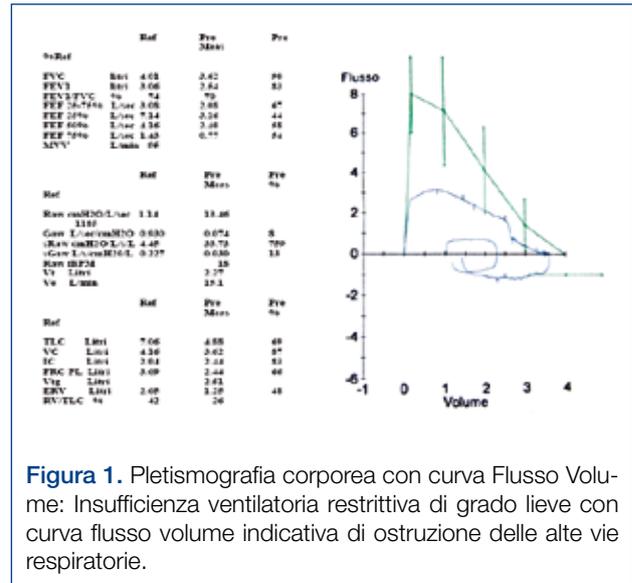
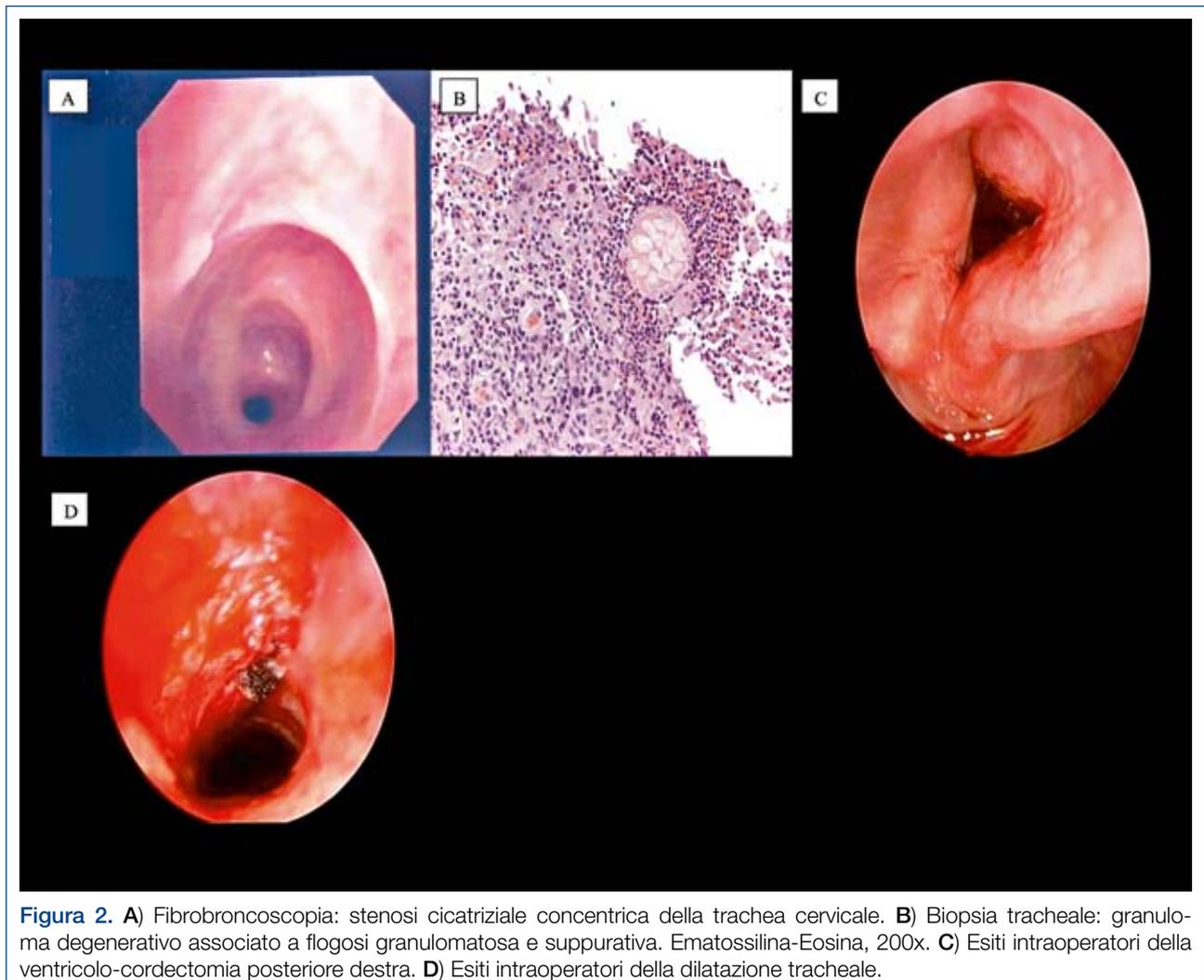


Figura 1. Pletismografia corporea con curva Flusso Volume: Insufficienza ventilatoria restrittiva di grado lieve con curva flusso volume indicativa di ostruzione delle alte vie respiratorie.

di sotto della stenosi stessa e secrezioni purulente a livello tracheo-bronchiale.

Sono quindi state effettuate delle biopsie bronchiali a livello delle pareti tracheali ed in corrispondenza della stenosi; le relative indagini istologiche



evidenziavano una infiammazione purulenta e xantogranulomatosa aspecifica (Figura 2B), con rilievo focale di fibre vegetali e negatività per la ricerca di infezioni di tipo batterico tramite colorazione di Grocott. La condizione era quindi compatibile con una flogosi suppurativa secondaria ad aspirazione cronica di materiale di tipo alimentare. I successivi esami colturali per flora batterica, micotica e micobatterica sull'esudato bronchiale erano risultati negativi mentre la TC del collo mostrava stenosi serrata della trachea cervicale subglottica con estensione di 4-5 cm (Figura 3C). La successiva CT/PET mostrava una diffusa iperfissazione del tracciante 18F-FDG a livello della stenosi tracheale.

Abbiamo quindi sottoposto il paziente a valutazione foniatrica, dalla quale era emersa marcata ipomobilità delle corde vocali (prevalentemente a destra) con importante adduzione e ridotta abduzione, ma lume respiratorio residuo sufficiente. La rinofibroscopia dopo assunzione orale di gel colorato era risultata nella norma, così come l'esame cineradiografico non mostrava evidenti alterazioni della fase orale e faringea della deglutizione, ma solo inalazione tracheale di piccole quantità di bario non percepita dal paziente e senza riflesso della tosse (Figura 4).



Figura 3. A-D Immagini TC: stenosi serrata a livello della trachea subglottica (2-C).



Figura 4. La freccia mostra l'aspirazione del mdc nella via respiratoria.

L'esofago-duodeno-gastroscoopia mostrava un muscolo cricofaringeo che permetteva il passaggio dell'endoscopio senza lesioni macroscopiche, mentre all'esame istologico delle biopsie esofagee era apprezzabile esofagite con flogosi cronica erosiva, da reflusso.

Il paziente ha rifiutato la biopsia osteomidollare e l'agoaspirato midollare, al fine di studiare la clonalità della serie eosinofila per escludere un ipereosinofilia idiopatica.

Abbiamo quindi intrapreso terapia mediante antibiotici a largo spettro, steroidi sistemici ed inibitori di pompa protonica ad alto dosaggio, con miglioramento delle condizioni cliniche.

La fibrobroncoscopia, dopo tale trattamento, mostrava una riduzione della flogosi e tumefazione della stenosi, con un profilo acuto delle aritenoidi e cospicua riduzione dell'infiltrato xantomatoide ma, soprattutto, le abbondanti secrezioni purulente dei seni piriformi sembravano scomparse con pervietà del lume comunque invariata.

A questo punto il paziente è stato sottoposto ad un ciclo di riabilitazione foniatrica, dopo il riscontro di persistente iporeflessia del faringe che, insieme alla vorace assunzione di cibi e liquidi riferita in anamnesi e al reflusso gastro-esofageo, era stata ritenuta come possibile causa di aspirazione di materiale alimentare.

Dopo consultazione multidisciplinare, abbiamo ritenuto opportuno proporre l'approccio chirurgico alla stenosi (resezione tracheale e anastomosi tracheo-tracheale) optando per uno stretto follow-up, anche in considerazione del buon compenso respiratorio in questa fase e della ancora non chiara eziologia della stenosi e del deficit sensitivo-motorio laringeo.

Nel luglio 2008, il paziente veniva nuovamente ricoverato presso il nostro reparto per ipertensione e presenza al radiogramma toracico di un addensamento polmonare basale destro compatibile con un nuovo episodio di broncopneumite ab-ingestis. Era presente inoltre tirage con disfonia, marcata leucocitosi neutrofila ($30.000/mm^3$) ma non ipossiemia. Il successivo esame colturale dell'escreato per germi comuni, miceti e micobatteri risultò ancora una volta negativo. Il paziente venne quindi sottoposto nuovamente ad un ciclo di terapia antibiotica a largo spettro, con successivo miglioramento del quadro clinico e regressione radiologica dell'addensamento, ma la fibrobroncoscopia evidenziò un peggioramento dell'entità della stenosi della trachea, la quale presentava un lume residuo di 5 mm, per cui venne aggiunta terapia steroidea sistemica con un parziale miglioramento del quadro.

A questo punto il paziente veniva inviato al Centro di Chirurgia delle alte vie aeree dell'Ospedale di Padova, dove è stato sottoposto a ventricolo-cordectomia posteriore destra con laser a diodi in video-laringoscopia (Figura 2C). Durante la manovra si ottenne una dilatazione tracheale progressiva fino a 12 mm, con miglioramento significativo della sintomatologia e della condizione anatomica (Figura 2D). Ad oggi il paziente non ha più avuto necessità di ulteriori ricoveri ospedalieri o trattamenti antibiotici.

Discussione

Le cause di stridore inspiratorio nell'adulto sono numerose, di tipo infettivo e non, iatrogeniche, congenite ad altre ancora, con modalità di insorgenza di tipo acuto e cronico (Tabelle IA, IB).

La stenosi tracheale negli adulti può essere raramente una conseguenza della aspirazione tracheo-bronchiale cronica, come nei casi di disfagia.

La stenosi tracheale negli adulti compare quasi sempre come conseguenza di neoplasie o condromalacia; altre possibilità sono infezioni, vasculiti, esiti post-operatori, traumi cervicali e, meno frequentemente, policondrite ricorrente. Può essere raramente una conseguenza della aspirazione tracheo-bronchiale cronica, come nei casi di disfagia secondaria a progresso stroke ischemico acuto, associata a sua volta a possibili deficit motori e del linguaggio.

Una percentuale compresa fra il 23 ed il 50% dei soggetti con stroke infatti sviluppa disfagia¹. In percentuali ancora più basse, esiste la possibilità di stenosi tracheali idiopatiche². Le metodiche di screening più utilizzate per la valutazione della disfagia sono la video fluoroscopia (VF), la cineradiografia o il test dell'acqua³. La valutazione della deglutizione, attraverso le varie fasi: orale, velofaringea e faringea, dovrebbe essere attuata in ogni paziente con ictus, poiché l'aspirazione silente rappresenta un grave rischio per tali pazienti. In uno studio su 114 pazienti con ictus, l'aspirazione silente, evidenziata alla VF, aumentava di 5,5 volte il rischio relativo di pneumopatie⁴.

Per quanto riguarda la disfagia, essa ha una alta prevalenza nella popolazione⁵. Nella fase acuta, la ricerca dei rischi di aspirazione è essenziale per prevenire complicazioni, ma anche il follow-up del paziente cronico ha la stessa importanza, proprio perché la possibilità di aspirazione di cibo è elevata e spesso silente sia clinicamente che radiologicamente⁶. A maggior ragione in pazienti affetti da reflusso gastro-esofageo e/o da iporefflessia del faringe.

La disfagia ha una alta prevalenza nella popolazione.

Valutate quindi tutte queste possibilità, l'eziologia della stenosi tracheale nel nostro caso non è ascrivibile ad un'unica ma a più cause.

Il paziente non era mai stato sottoposto ad intubazione oro-tracheale e la policondrite ricorrente era stata esclusa, non esistendo interessamento delle cartilagini tracheali.

L'assenza di sintomi sistemici e la negatività degli ANCA escludeva con buona probabilità una Granulomatosi di Wegener. L'assenza di contatti tubercolari, la

Tabella IA. Cause acute di stridore inspiratorio.

Non infettive	Infettive
<ul style="list-style-type: none"> • Corpi estranei • Edema angioneurotico • Traumi • Ustioni 	<ul style="list-style-type: none"> • Laringo-tracheobronchite • Spasmo laringeo • Epiglottite • Tracheite batterica • Ascesso peritonsillare • Ascesso retrofaringeo • Difterite

Tabella IB. Cause croniche di stridore inspiratorio.

Congenite	Acquisite
<ul style="list-style-type: none"> • Laringomalacia • Emangiomi • Paralisi delle corde vocali • Stenosi subglottica • Anelli vascolari • Malformazioni esofagee 	<ul style="list-style-type: none"> • Cicatrici post-intubazione • Masse mediastinico • Cause cardiovascolari • Papillomi

negatività della reazione intradermica di Mantoux, l'assenza di tubercolosi polmonare, il miglioramento degli indici di flogosi, dei sintomi, della deglutizione e la mucosa a livello della stenosi dopo trattamento steroideo ed antibiotico aspecifico oltre alla negatività della ricerca di micobatteri permetteva di escludere una forma tubercolare, mentre l'assenza di eosinofili e di cellule di Langerhans nel granuloma a livello della biopsia tracheale escludeva un granuloma eosinofilo.

I granulomi stessi non avevano le caratteristiche morfologiche compatibili con una sarcoidosi ed inoltre non esistevano altre manifestazioni polmonari ed extrapolmonari.

Sulla base di quanto detto finora, sembra ragionevole pensare che l'aspirazione cronica di cibo (secondaria all'iporefflessia laringo-tracheale e alla lieve disfagia come esiti dell'ictus, associata al reflusso gastro-esofageo) possa essere stata direttamente responsabile dell'infiammazione cronica e dello sviluppo della stenosi, peraltro presente solo al di sotto del piano glottico.

Abbiamo privilegiato la scelta di un approccio terapeutico endoscopico piuttosto che chirurgico della stenosi.

Per quanto riguarda il trattamento di queste condizioni, in letteratura non esistono tecniche standard, e quindi è necessario un approccio personalizzato^{7,8}. Noi abbiamo privilegiato la scelta di un approccio terapeutico endoscopico piuttosto che chirurgico (anastomosi tracheo-tracheale) della stenosi, considerate anche le indicazioni di letteratura e l'età del paziente⁹.

Si è quindi optato per una ventricolo-cordectomia posteriore destra con laser a diodi per trattare il blocco laringeo e per la stenosi tracheale è stato eseguito un trattamento endoscopico con progressiva dilatazione meccanica ed i successivi controlli a 3, 6 e 18 mesi dimostravano sostanziale stabilità clinica ed endoscopica.

Dopo un attento esame endoscopico, le considerazioni che hanno guidato le decisioni terapeutiche sono state le seguenti:

- la difficoltà respiratoria era, secondo noi, determinata sia dalla paralisi laringea, trattata quindi con la cordectomia laser, che dalla marcata stenosi sottoglottica;
- la stenosi aveva una considerevole estensione cranio-caudale (circa 5 cm) e determinava una riduzione del lume del 70% nel punto di massimo restringimento.

Le considerazioni precedenti, la storia clinica e la natura multifattoriale della patologia ci hanno indirizzati, in prima scelta, verso un atteggiamento conservativo (trattamento endoscopico vs altre tecniche più invasive), pur necessitante di un accurato follow-up per valutare la stabilità dei risultati ottenuti in quanto la stenosi potrebbe recidivare, soprattutto se le cause ipotizzate (inalazione cronica) non si fossero risolte. In tal caso sarebbe possibile ripetere il trattamento endoscopico o, se ritenuto strettamente necessario (poiché l'approccio chirurgico demolitivo potrebbe presentare rischi di ulteriori complicanze a livello tracheale), eseguire un trattamento di seconda linea più invasivo come una resezione tracheale con anastomosi e quindi tracheoplastica con posizionamento di stent endoluminale, con o senza tracheotomia. Tutto ciò eventualmente accompagnato o preceduto dal posizionamento di PEG per prevenire o ridurre il rischio di inalazione di bolo alimentare. A tale proposito va ricordato che il nostro paziente era stato sottoposto ad un prolungato ciclo di riabilitazione foniatrica e della deglutizione.

In conclusione, il grande numero di cause eziologiche potenzialmente responsabili della condizione clinica del nostro paziente ha portato ad un complesso iter diagnostico e terapeutico, il quale ha infine permesso un notevole miglioramento del quadro. Sarà necessa-

rio comunque un attento e lungo follow-up per valutare la persistenza dell'attuale stabilità dei risultati ed escludere le sempre possibili recidive.

Rigraziamenti

Gli Autori ringraziano il dott. A. Cavazza (UO di Anatomia Patologica, Arcispedale S. Maria Nuova - Reggio Emilia) per la immagine della sezione istologica ed il dott. L. Agostini (Endoscopia Toracica, Arcispedale S. Maria Nuova, Reggio Emilia), autore della indagine fibroendoscopica pre-intervento.

Bibliografia

- 1 Singh S, Hamdy S. *Dysphagia in stroke patients*. Postgrad Med J 2006;82:383-91.
- 2 Mark EJ, Meng F, Kradin RL, et al. *Idiopathic tracheal stenosis: a clinicopathologic study of 63 cases and comparison of the pathology with chondromalacia*. Am J Surg Pathol 2008;32:1138-43.
- 3 Gates J, Hartnell GG, Gramigna GD. *Videofluoroscopy and swallowing studies for neurologic disease: a primer*. Radiographics 2006;26:e22.
- 4 Horner J, Massey EW. *Silent aspiration following stroke*. Neurology 1988;38:317-9.
- 5 White GN, O'Rourke F, Ong BS, et al. *Dysphagia: causes, assessment, treatment, and management*. Geriatrics 2008;63:15-20.
- 6 Mukhopadhyay S, Katzenstein AL. *Pulmonary disease due to aspiration of food and other particulate matter: a clinicopathologic study of 59 cases diagnosed on biopsy or resection specimens*. Am J Surg Pathol 2007;31:752-9.
- 7 Motta G, Cappello V, Cavaliere M, et al. *Le stenosi laringotracheali*. Atti LXXXVIII Congresso Nazionale AOOI, Genova 23-26 maggio 2001.
- 8 Cotton RT, Andrews TM. *Laryngeal stenosis*. In: Bailey BJ, ed. *Head and Neck Surgery – Otolaryngology*. 2nd ed. Philadelphia: Lippincott-Raven 1998, pp. 1115.
- 9 Cosano Povedano A, Muñoz Cabrera L, Cosano Povedano FJ, et al. *Endoscopic treatment of central airway stenosis: five years' experience*. Arch Bronconeumol 2005;41:322-7.

Gli Autori dichiarano di non avere alcun conflitto di interesse con l'argomento trattato nell'articolo.

Piano Formativo AIPO 2011 - Provider Accreditato n. 442

QUESTIONARIO ECM FAD

Percorso Formativo 442-3463

Crediti formativi ottenibili: 1

1) La diagnosi di stridore inspiratorio e disfagia è:

- particolarmente facile
- impossibile
- spesso difficile
- mai raggiungibile

2) Le cause di stridore inspiratorio nell'adulto:

- sono pochissime
- possono essere acute
- sono assenti
- possono essere per cause urologiche

3) Nel caso clinico presentato i granulomi erano tipici:

- della sarcoidosi
- della tubercolosi
- della istoplasmosi
- nessuno dei precedenti

4) Direttamente responsabile dell'infiammazione cronica e dello sviluppo della stenosi sub-glottica è stata ipotizzata:

- l'aspirazione cronica di cibo
- una malattia intestinale
- una infezione broncopolmonare
- una sarcoidosi delle vie aeree

5) La pletismografia corporea e la curva flusso-volume mostravano:

- una grave s. disventilatoria restrittiva
- un quadro normale
- insufficienza ventilatoria restrittiva di grado lieve ed ostruzione delle alte vie respiratorie
- un quadro tipico di asma bronchiale

Nome..... Cognome.....

Firma..... e-mail.....

Per la verifica dell'apprendimento e l'attribuzione del credito formativo Ti chiediamo di restituire, dal 1 aprile al 31 luglio 2011, il presente questionario compilato in ogni sua parte al numero di fax 02/67382337 o all'indirizzo e-mail: aipoecm@aiporicerche.it. Il Provider si riserva n. 4 settimane di tempo per la valutazione

