

Fiberskopi fastställer orsak till höga andningshinder hos små barn

Vanligaste remissorsakerna sömnapné syndrom och inspiratorisk stridor

Utredning och behandling av luftvägsproblematik hos spädbarn är ett av många områden där synsätten har förändrats. Uppfattningen att vanliga symptom som ljudlig andning och andningsuppehåll inte behöver ha negativa konsekvenser för ett barns hälsotillstånd har ifrågasatts och ersatts av ett mer aktivt förhållningssätt.

Den ökade uppmärksamheten på andningsproblem hos småbarn har medfört att allt fler barn remitteras för utredning. Vid Astrid Lindgrens barnsjukhus finns en specialiserad enhet för utredning av andningsstörningar hos barn. Antalet barn som remitteras dit har successivt ökat till omkring 170 per år. Majoriteten av patienterna är spädbarn med anamnes på ansträngd andning eller andningsuppehåll under sömn.

Fakta om sömnpolygrafi och lungmekanik

En standardutrustning för undersökning av andningsfunktion under sömn bör kunna registrera sömnstadier, kroppsläge, andningsfrekvens och -amplitud, andningsarbete, hjärtfrekvens samt syrgas- och koldioxidnivå. Olika tekniker används för registrering av dessa variabler.

Vi använder hjärtfrekvensvariabilitet i kombination med en rörelsesensor för att gradera sömnstadier. Induktionspletysmografi (trådtöjningsgivare) används för att mäta andningsfrekvens och -amplitud; vektoranalys av bröst- och bukanvändning ger ett mått på andningsarbete. Pulsoxymetri mäter snabba fluktuationer i syresättning, medan transkutana elektroder används för att följa mer långsamma trender i syresättning och koldioxidnivå.

Vid en lungmekanisk undersökning mäts andningsvolym, total luftvägsresistans, maxflöden och lungcompliance med s k »single point occlusion». Undersökningen, som tar 15 minuter, utförs under viloandning när barnet sover. Detta förfaringsätt är föga störande för barnet och gör att undersökningen utförs under standardiserade betingelser och kan upprepas ofta.

Standardutredning

Standardutredningen vid enheten är nattlig polysomnografi, ibland kombinerad med lungmekanisk undersökning (se separat ruta). Med dessa undersökningar kan man påvisa konsekvenserna av ett andningshinder såsom sänkt syresättning, koldioxidretention och andningsuppehåll. Tekniken tillåter dock inte en exakt anatomisk lokalisering av hindret; för detta krävs en direkt visuell inspektion av luftvägen under naturlig sömn. En sådan visualisering under sömn är inte tekniskt möjlig för närvarande, men övre luftvägen kan inspekteras i vaket tillstånd under spontan andning, och den undersökningen kan ge värdefull information om luftvägens anatomi och funktion.

Fram till för ett antal år sedan har direkt laryngoskopi under generell narkos men med bibehållen spontanandning varit gängse metod för att visualisera larynx och subglottiska rummet vid misstanke om högt andningshinder [1].

Metod och utrustning

Tack vare de senaste årens utveckling av fiberskopiutrustning och videoteknik är det nu möjligt att via näsan i lokalbedövning undersöka de övre luftvägarna inkluderande näskaviteter, epifarynx, svalg och larynx hos spädbarn [2].

För att i detalj kunna bedöma undersökningsfynden är det nödvändigt att spela in laryngoskopin på videoband. Man kan därvid minimera undersökningstiden och i efterhand detaljstudera undersökningsfynden. Videosekvensen kan spelas upp i »slow motion», även en bild i taget, s k »frame-by-frame». Vanligen är inspirationsfasen så kort att det kan vara svårt att hinna utvärdera stämbandets rörlighet och eventuell patologi i subglottiska rummet utan en granskning av inspelningen i »slow motion». Videofilmen kan dessutom visas genast och är ett utmärkt pedagogiskt hjälpmedel i informationen till föräldrarna. Patologiska fynd kan visas och diskuteras med ansvarig pediatriker eller annan laryngolog.

På foniatriska avdelningen, Karolinska sjukhuset, har vi tillgång till två fiberskop: Olympus ENF-P3 med dia-

Författare

GUNNAR BJÖRCK
ST-läkare, foniatriska avdelningen,
Karolinska sjukhuset, Stockholm
E-mail: gunnar.bjorck@ks.se

STEFAN JOHANSSON
ST-läkare, Astrid Lindgrens barn-
sjukhus, Stockholm

JOSEF MILERAD
docent, vid tiden för studiens genomförande överläkare vid Astrid Lindgrens barnsjukhus; nu medicinsk chefredaktör, Läkartidningen

MIRIAM KATZ-SALAMON
docent, andningsfysiolog, Astrid Lindgrens barnsjukhus

STELLAN HERTEGÅRD
docent, överläkare, foniatriska kliniken, Huddinge sjukhus

RICHARD KUYLENSTIERNA
docent, överläkare, ÖNH-kliniken, Karolinska sjukhuset; ansvarig ÖNH-läkare på Astrid Lindgrens barnsjukhus.

meter 3,4 mm samt Pentax FNL-7RP2 med diameter 2,4 mm. Ett instrument med 1 mm diameter (Cook Rapiscope) finns också att tillgå. Fiberskopen är kopplade till videokamera och S-VHS-bandspelare. Filmen arkiveras för att kunna jämföras med tidigare eller senare undersökningar.

Undersökningen görs polikliniskt och utan sedering. Barnet får sitta i förälderns knä under undersökningen (Figur 1). En sköterska är avdelad att kontrollera barnets allmäntillstånd samt saturationen via pulsoxymeter. Syrgas samt sug finns på undersökningsrummet. Barnets näsa sprayas med ex tempore-beredd Nafazolin/Lidokain (0,17 + 34 mg/ml) för bedövning och avsvällning. Färdigberedd Xylocain-spray 10 mg/dos lämpar sig inte för näsanestesi eftersom den innehåller etanol, och av denna orsak är mycket retande.

Resultat

Tillgången till utrustning, liksom goda erfarenheter av tidigare barnun-

Sammanfattat

- Symtom som ljudlig andning och apnéer är vanligt hos små barn. En ökad uppmärksamhet på sådana symtom har medfört att fler barn remitteras till ÖNH- och barnkliniker för bedömning.
- Med fiberskopisk teknik (flexibel videolaryngoskopi, FVL) är det möjligt att i lokalbedövning göra en anatomisk och funktionell bedömning av övre luftvägen ned till stämbandsplanet. Undersökningen kan utföras redan i neonatalperioden. FVL bör ingå i utredningen av andningsproblem när det finns misstanke om ett anatomiskt eller funktionellt hinder i övre luftvägen.
- I ett samarbetsprojekt mellan foniatriska avdelningen, Karolinska sjukhuset, och andningsmottagningen, Astrid Lindgrens barnsjukhus, har 43 barn yngre än 2 år undersökts med flexibel videolaryngoskopi. De två vanligaste remissorsakerna var sömnapné syndrom och inspiratorisk stridor.
- Hos 21 av 43 barn var flexibel videolaryngoskopi diagnostisk. De vanligaste diagnoserna var laryngomalaci, prominent tungbas och stämbands pares. I fem fall krävdes laryngoskopi i narkos för ytterligare kartläggning och terapi.
- Samarbetet har utvecklats till ett regelrätt teamarbete kring barn med övre luftvägshinder av oklar genes. I teamet ingår foniater, ÖNH-läkare, barnläkare/neonatolog och plastikkirurg. Flexibel videolaryngoskopi ingår som en rutinundersökning i utredningen.

Figur 1. Barnet sitter i förälderns knä under undersökningen. TV-kamera, monitor och videobandspelare till höger i bild.

dersökningar på annan indikation, gav incitamentet att evaluera det diagnostiska värdet av flexibel videolaryngoskopi (FVL) hos småbarn och spädbarn med sömnapnéer och/eller ljudlig andning.

Våra erfarenheter av FVL på barn under 2 års ålder hade dessförinnan varit begränsade, och målsättningen var att utröna den diagnostiska nyttan samt att se om undersökningen var praktiskt möjlig att genomföra redan i nyföddhetsperioden. En första serie om sexton utredningar gjordes i form av ett pilotprojekt mellan andningsmottagningen, Astrid Lindgrens barnsjukhus, och foniatriska avdelningen, Karolinska sjukhuset.

Eftersom det diagnostiska utfallet av FVL föreföll högt har vi nu sammanställt resultaten för samtliga barn yngre än 2 år undersökta med metoden fram till oktober 1999.

Under tiden februari 1997 till och med oktober 1999 undersöktes sammanlagt 43 barn yngre än 2 år med FVL (Tabell I), varav tio barn var yngre än åtta levnadsveckor vid undersökningen.

Perinatale data var okomplicerade för alla utom för tre barn, som var extremt underburna med förlossning i 26:e graviditetsveckan. Medianvärden för födelsevikt respektive graviditetslängd var 3 405 gram respektive 38 + 1

veckor. Sju barn var förlösta med kejsarsnitt.

Komplicerande sjukdom fanns i tolv fall fördelade på följande diagnoser. Läpp-käk-gomspalt (fyra barn), utvecklingsförsening av oklar genes (tre), Fallots tetrad (ett), mikrognati (ett), status post hydrotorax och trattbröst (ett), status postoperativ esofagusatresi (ett) samt Cornelia de Langes syndrom (ett).

Drygt hälften av patienterna remitterades från andningsmottagningen; förutom två barn med klar inspiratorisk stridor hade dessa barn genomgått en föregående utredning med lungmekanisk undersökning och/eller polysomnografi, med fynd talande för högt and-

Tabell I. Resultat av FVL-undersökning av 43 barn (32 pojkar, 11 flickor). ALTE = »apparent life threatening event»; CLD = »chronic lung disease (of prematurity)».

Inremitterandes kliniska diagnos, antal barn	Positiv fiberskopidiagnos, antal barn	Positiv lungmekanik av antal undersökta	Positiv polysomnografi av antal undersökta
Stridor 19	Laryngomalaci 12	10/10	17/19
Sömnapné 16	Prominent tungbas 3		
ALTE 4	Stämbands pares bilateralt 2		
Oregelbunden andning 1	Nästappa 2		
Aspirationstillbud 1	Stämbands pares ensidig 1		
CLD 1	Subglottiskt hemangiom 1		
Nästappa 1			

ningshinder. Övriga barn kom på remiss från andra barnkliniker och från öronkliniker.

De i särklass vanligaste kliniska diagnoserna var sömnapné syndrom (19 barn) och inspiratorisk stridor (16).

FVL kunde genomföras utan problem på alla barn utom ett. Två barn hade så trånga näsgångar att 3,4 mm-fiberskopet inte gick att föra in, men på det ena barnet kunde undersökningen genomföras med ett fiberskop med 2,4 mm diameter. Några komplikationer i anslutning till undersökningarna har ej inträffat.

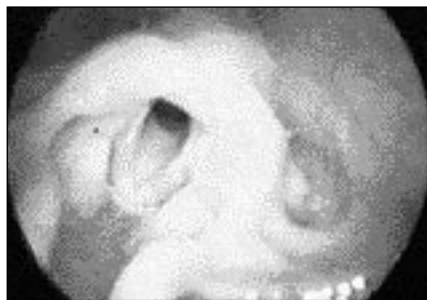
Hos 21 av de 43 barnen var FVL diagnostiskt och gav en förklaring till den kliniska symtombilden (Tabell I). Den vanligaste diagnosen var laryngomalaci (12 barn). De tre barn som var extremt underburna undersöktes när de var äldre än 1 år; två av dessa barn hade bilateralt orörliga stämband. Orsaken till den dåliga rörligheten antogs vara bilateral recurrenspares eller intubationsskada med efterföljande stelhet i krikotryteoidlederna.

Efter FVL behövde fem barn senare genomgå laryngoskopi i narkos för vidare diagnostik och behandling. Denna grupp omfattade ett barn med subglottiskt hemangiom, de två barnen med orörliga stämband bilateralt samt två barn med grav laryngomalaci. De två barnen med laryngomalaci opererades med gott resultat. En s k epiglottoplastik utfördes därvid, med delning av plica aryepiglottica samt delresektion av laterala epiglottis [3].

Fortsatta erfarenheter

Tack vare det goda diagnostiska utfallet har samarbetet mellan andningsverksamheten och foniatriska avdelningen utvecklats till ett mer regelrätt teamarbete kring barn med övre luftvägshinder av oklar genes. I teamet ingår foniater, ÖNH-läkare, barnläkare/neonatalog och plastikkirurg.

FVL används nu rutinmässigt vid utredning av barn med högt andningshinder av oklar genes.



Figur 2. Normalt larynx hos en 2 månader gammal pojke. Strukturen subglottiskt anterior utgörs av normalt membran krikotryteoida och krikoidbrusk. Figur 2–4 är tagna via fiberendoskop under lokalbedövning utan premedicinering.

Fall 1: laryngomalaci och farynxteratom med gomspalt

Barnet var en flicka född i vecka 40. Normal graviditet och partus. Efter hemkomsten uppstod svårigheter med matningen, jämte andningsproblem. Modern noterade asymmetri i mjuka gommen, läkarundersökning visade en högersidig gomspalt med en polypliknande förändring i spalten. Sömnregistrering visade tecken på högt andningshinder i form av paradoxal andning och upprepade övre luftvägsobstruktioner.

Fiberskopisk undersökning visade att epiglottis vid inspiration kollaberade, drogs bakåt–nedåt mot larynxingången och obstruerade därigenom andningsvägen (Figur 3). Barnet sövdes senare utan intubationsproblem, och en 2 cm stor förändring parafaryngealt kunde avlägsnas i två seanser. PAD visade ett benigt teratom.

Efter operationen upphörde andningssvårigheterna. Troligen hade teratomet påverkat luftflödet och den neuromuskulära styrningen till larynx med obstruktion av larynxingången som följd.

Fall 2: Subglottiskt hemangiom

Patienten var en pojke född i normal tid utan graviditets- eller partusproblem. Komjölksintolerant. Vid drygt

fem månaders ålder insjuknade han i bilden av falsk krupp i samband med en övre luftvägsinfektion. Besvären avklingade men återkom flera gånger under två månader. Pojken vårdades på barnklinik och gavs sedvanlig kruppbehandling i form av adrenalininhalationer och perorala steroider.

På grund av det långdragna förloppet utfördes fiberskopi, dock utan föregående sömnregistrering. En bilateral subglottisk svullnad kunde visualiseras. Bilden bedömdes förenlig med subglottiskt hemangiom (Figur 4).

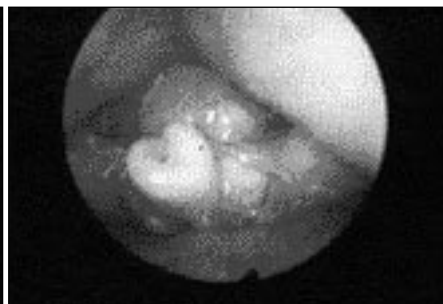
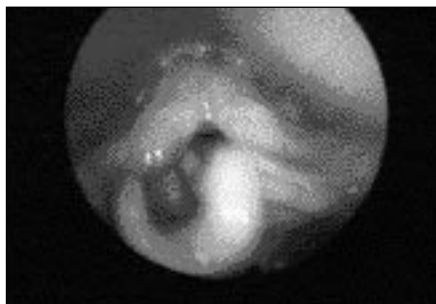
Pojken sövdes senare, och eftersom diagnosen ställts preoperativt kunde föräldrar och anestesilog informeras om alternativa terapival. Steroidinjektion i högdos gav i hemangiomet och barnet hölls intuberat under en vecka på barnintensivvårdsavdelning [4]. Postoperativt tillstötte pneumoni, som behandlades. Vid efterkontroll en månad senare hade den stridorösa andningen helt avklingat.

Ofta svår gränsdragning

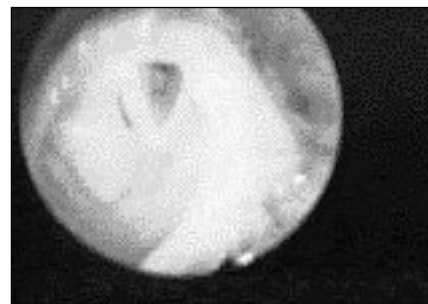
Ljudlig andning, ökat andningsarbete och oregelbunden andning med apnéer under sömn är relativt vanliga symptom hos barn. Även om många barn med ljudlig andning saknar allmänsymtom och utvecklas normalt, finns i gruppen ett inte obetydligt antal barn där konsekvenserna av luftvägsobstruktioner under sömn har klar klinisk signifikans. Prevalensen för enbart ljudlig andning ligger relativt nära motsvarande incidenssiffror för vuxna. Omkring 10 procent av alla förskolebarn snarkar [5, 6], under det att ca 1 procent av alla småbarn har symptom förenliga med obstruktiv sömnapné syndrom, OSAS [7].

Barn med OSAS har ofta anhöriga med samma symptom [8, 9], deras föräldrar röker oftare [10] och det finns en koppling till atopisk hereditet [11]. Mer exakta siffror avseende prevalens och svårighetsgrad hos barn under 1 års ålder finns ej, men kan antas ligga på ungefär samma nivå.

Kliniska tecken på störd andning un-



Figur 3. Laryngomalaci under expirium (t v) samt inspirium (t h) hos en 1 månad gammal flicka (fall 1). Under inspiriet kollaberar epiglottis och dras nedåt–bakåt mot larynxingången så att luftvägen obstrueras. Även arytenoidbrusken faller in mot stämbanden och bidrar till obstruktionen.



Figur 4. En 7 månaders pojke med subglottiskt hästskoformat hemangiom (fall 2). Diagnosen verifierades senare under generell narkos. Pojken behandlades med steroidinjektion med gott resultat.

ANNONS

der sömn hos barn korrelerar dock inte alltid till graden av ventilationsinskränkning. För en objektiv utvärdering krävs någon form av andningsregistrering under sömn, jämte påvisande av avvikelser som andningsuppehåll i kombination med hypoventilation, sänkt syresättning och koldioxidretention. Gränsdragningen mot mer lindriga former, ofta benämnda UARS, »upper airway resistance syndrome» [12], kan vara svår, då just denna grupp varken har andningsuppehåll, sänkt SaO₂ eller förhöjt PCO₂, som är lätta att mäta. Barn med UARS kan i stället ha ett mycket högt inandningsmotstånd, vilket är svårare att objektivisera om man inte gör en lungmekanisk undersökning, eventuellt med mätning av esofagstryck.

Viktigt komplement

Även om flertalet sömnapné syndrom anses ha funktionella orsaker – som otillräcklig muskeltonus i tunga och övre luftvägar – kan man i denna grupp finna patienter med anatomiska andningshinder. Vår undersökning visar att symptomatologin hos dessa liknar symtomen hos barn med funktionella hinder, vilket innebär att en sömnstudie inte är tillräcklig för att differentiera mellan funktionella och anatomiska orsaker till andningsproblemen.

FVL bjuder nya möjligheter att bedöma arten av andningshinder. Förutom vid de diagnoser vi ställde i vårt material kan FVL vara till hjälp vid utredning av misstänkt koanalatesi, juvenilt larynxpapillom, larynxweb och subglottisk stenosis [13].

Tonsillektomi, med eller utan abrasio, är en vanlig och oftast framgångsrik åtgärd mot sömnapnéer under förskoleåren. På Karolinska sjukhuset och Danderyds sjukhus utfördes under 1998 knappt 600 sådana operationer på barn under 7 år med sömnapnéer. Endast fyra av dessa barn var under 2 år vid tiden för operation.

Tonsillektomi med eller utan abrasio är en ovanlig operation hos barn mellan 0 och 2 år. Detta kan bero antingen på ett restriktivt förhållningssätt hos öronläkare eller på att hypertrofi av tonsiller och adenoid ej har så stor betydelse för andningsstörningar i denna åldersgrupp.

Vår uppfattning är att barn under 2 år med oklar andningsproblematik bör utredas mer grundligt, dels med FVL, dels i förekommande fall även med polysomnografi innan tonsillektomi eller abrasio utförs.

FVL ersätter inte laryngoskopi i narkos, men minskar behovet av denna undersökning och ger ofta värdefull information inför sövning. Operatören kan preoperativt informera sig om anatomi

och patologi, och därigenom bättre planera de diagnostiska och terapeutiska åtgärderna inför laryngoskopi i narkos.

Trakeomalaci med kollaps av trakealväggen kan inte diagnostiseras med FVL. Som regel kan man inte bedöma anatomi och funktion nedom ringbrosket. I sådana fall krävs bronkoskopi i narkos med bibehållen spontanandning, alternativt röntgengenomlysning [14].

Förslag till handläggning

Eftersom många barn har symtom som talar för höga andningshinder söker också många föräldrar läkare för detta. Sannolikt sker de flesta konsultationer på barnavårdscentraler och inom primärvården.

Vilka barn skall då remitteras vidare, och vem bör handlägga ärendet?

På basis av våra erfarenheter föreslår vi nedanstående handläggning av barn i olika åldersgrupper med misstänkta funktionella eller anatomiska höga luftvägshinder.

- Barn äldre än 2 år med tydlig anamnes på sömnapnéer (snarkande andning nattetid med klart oregelbunden andning och andningsuppehåll) remitteras till ÖNH-klinik för undersökning och ställningstagande till tonsillektomi och abrasio.
- Barn under 2 års ålder med stridor, ökat andningsarbete och/eller ljudlig oregelbunden andning under sömn bör utredas mer grundligt. En sådan utredning bör omfatta vanligt fysikallt status, ÖNH-status samt FVL. Om andningsstörningens grad och art behöver närmare kartläggas, eller om störningen bedöms som grav, bör barnet genomgå lungmekanisk undersökning och/eller nattlig polysomnografi.
- Samtliga barn, oavsett ålder, med komplex problematik, jämte de fall där given behandling inte givit önskat resultat, bör remitteras vidare till specialiserade team liknande vårt vid Astrid Lindgrens barnsjukhus och Karolinska sjukhuset.

Referenser

1. Benjamin. An atlas of paediatric endoscopy. Oxford University Press, 1982.
2. Hawkins DB, Clark RW. Flexible laryngoscopy in neonates, infants and young children. Ann Otol Rhinol Laryngol 1987; 96: 81-5.
3. Zalzal GH, Anon JB, Cotton RT. Epiglottoplasty for the treatment of laryngomalacia. Ann Otol Rhinol Laryngol. 1987; 96(1 Pt 1): 72-6.
4. Meeuwis J, Bos CE, Hoeve LJ, van der Voort E. Subglottic hemangiomas in in-

fants: treatment with intralesional corticosteroid injection and intubation. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 1990; 19: 145-50.

5. Ali NJ, Pitson D, Stradling JR. Snoring, sleep disturbance and behaviour in 4-5 year olds. Arch Dis Child 1993; 68: 360-6.
6. Ali NJ, Pitson D, Stradling JR. Natural history of snoring and related behaviour problems between the ages of 4 and 7 years. Arch Dis Child 1994; 71: 74-6.
7. Gislason T, Benediktsdottir B. Snoring, apneic episodes and nocturnal hypoxemia among children 6 months to 6 years old. An epidemiological study of lower limit of prevalence. Chest 1995; 107: 963-6.
8. Redline S, Tishler PV, Tosteson TD, Williamson J, Kump K, Browner I et al. The familial aggregation of obstructive sleep apnea. Am J Respir Crit Care Med 1995; 151: 682-7.
9. Redline S, Tosteson TD, Tishler PV, Carskadon MA, Millman RP. Studies in the genetics of obstructive sleep apnea. Familial aggregation of symptoms associated with sleep-related breathing. American Review of Respiratory Diseases 1992; 145: 440-4.
10. Kahn A, Groswasser J, Sottiaux M, Kelmanson I, Rebuffat E, Franco P et al. Prenatal exposure to cigarettes in infants with obstructive sleep apneas. Pediatrics 1994; 93: 778-83.
11. McColley SA, Carroll JL, Curtis S, Loughlin GM, Sampson HA. High prevalence of allergic sensitization in children with habitual snoring and obstructive sleep apnea. Chest 1997; 111: 170-3.
12. Guilleminault C, Pelayo R, Leger D, Clerk A, Bocian RC. Recognition of sleep-disordered breathing in children. Pediatrics 1996; 98: 871-82.
13. Berkowitz RG. Neonatal upper airway assessment by awake flexible laryngoscopy. Ann Otol Rhinol Laryngol 1998; 107: 75-80.
14. Walner DL, Ouanounou S, Donnelly LF, Cotton RT. Utility of radiographs in the evaluation of pediatric upper airway obstruction. Ann Otol Rhinol Laryngol 1999; 108: 378-83.

Summary

Flexible videolaryngoscopy in diagnosing stridor in young children

Gunnar Björck, Stefan Johansson, Josef Milerad, Miriam Katz-Salamon, Stellan Hertegård, Richard Kuylenskierna

Läkartidningen 2000; 97: 2446-50.

Guidelines for the clinical investigation of young children with stridor and sleep apnea are presented.

Clinical examination and flexible videolaryngoscopy performed in local anaesthesia are the most important diagnostic tools for this group of children. If the impairment is severe or an objective evaluation is needed the child should also undergo nocturnal polygraphic recording and lung function tests.

Out of 43 children examined with flexible videolaryngoscopy 21 had positive findings, laryngomalacia being the most common diagnosis. Flexible videolaryngoscopy is a good complement to laryngoscopy under general anaesthesia. It can be performed as early as in the neonatal period.

Correspondence: Gunnar Björck, ENT Department, Karolinska sjukhuset, SE-171 76 Stockholm, Sweden.

E-mail: gunnar.bjorck@ks.se