

Đặc điểm lâm sàng và hình ảnh nội soi phế quản u máu hạ thanh môn ở trẻ em tại Bệnh viện Nhi Trung ương

Nguyễn Thị Thu Nga^{*}, Lê Thị Hồng Hạnh¹, Phạm Thu Nga², Phùng Đăng Việt¹, Lê Thanh Chương¹,
Đặng Thị Kim Thanh¹, Phạm Thị Thanh Tâm¹, Nguyễn Thị Minh Phương¹

¹Bệnh viện Nhi Trung ương

²Trường Đại học Y Hà Nội

Ngày nhận bài 22/5/2023; ngày chuyển phản biện 25/5/2023; ngày nhận phản biện 31/5/2023; ngày chấp nhận đăng 5/6/2023

Tóm tắt:

Mục tiêu: Mô tả đặc điểm lâm sàng và hình ảnh nội soi phế quản của bệnh nhân u máu hạ thanh môn (UMHTM). **Đối tượng nghiên cứu:** 25 bệnh nhân được chẩn đoán và điều trị UMHTM tại Bệnh viện Nhi Trung ương từ 1/6/2018 đến 30/5/2023. **Phương pháp nghiên cứu:** Mô tả cắt ngang hồi cứu và tiến cứu. **Kết quả:** Tuổi trung vị 2,7 tháng, dao động từ 20 ngày tuổi đến 20 tháng, tỷ lệ nữ/nam là 2,1/1. Tuổi khởi phát tiếng thở rít 30,7±20,6 ngày. Thời gian kéo dài triệu chứng thở rít trung bình 51,3±47,5 ngày. **Đặc điểm lâm sàng:** Thở rít (80%), co kéo hõm trên ức (76%), suy hô hấp (72%), ho (36%), u máu ngoài da (8%), ăn sặc (8%). **Kết quả nội soi phế quản (NSPQ):** 92% khối u có màu đỏ, thành nhẵn. Vị trí khối u: 36% bao quanh chu vi, 32% khối u xuất phát từ thành bên phải, 28% từ thành bên trái, 4% từ thành sau hạ thanh môn, 8% u lan xuống dưới khí quản 1 cm. Về kích thước khối u, chủ yếu hẹp độ III (60%) và độ II (32%). **Kết luận:** UMHTM là một trong những bệnh lý hiếm gặp, gây thở rít khởi phát sớm ở trẻ dưới 6 tháng, đặc điểm thở rít kéo dài, tái diễn, có thể gây khó thở thanh quản. Chẩn đoán chủ yếu dựa vào nội soi phế quản, quan sát màu sắc, đặc điểm hình thái, kích thước khối u.

Từ khóa: dị tật thanh môn, thở rít, u máu hạ thanh môn.

Chỉ số phân loại: 3.2

Đặt vấn đề

UMHTM là một bệnh lý tăng sinh tế bào nội mạch máu, tạo thành khối lành tính ngay dưới dây thanh, gây tắc nghẽn đường thở từ vừa đến nặng. Bệnh xuất hiện ở giai đoạn sơ sinh, tiến triển kéo dài trong 12-18 tháng qua 3 giai đoạn: tăng sinh, ổn định và thoái triển [1].

U máu nói chung có thể gặp 4-5% ở trẻ sơ sinh [2]. UMHTM ít gặp hơn, chiếm 1,5% các bất thường bẩm sinh đường thở [3]. Tỷ lệ mắc bệnh nữ/nam là 2/1, thường hay gặp ở trẻ sinh non, nhẹ cân [4]. Triệu chứng hay gặp nhất là thở rít thì hít vào hoặc hai thì, với 85% các trường hợp biểu hiện thở rít dưới 6 tháng tuổi có thể gây suy hô hấp tiến triển nhanh trong giai đoạn u tăng sinh. Tỷ lệ tử vong do tắc nghẽn đường thở có thể lên tới 50% nếu không được điều trị kịp thời [4]. Vì vậy, cần chẩn đoán sớm UMHTM để có phác đồ điều trị thích hợp, cũng như tiên lượng trước, sau điều trị.

Trên thế giới có nhiều báo cáo về UMHTM, tuy nhiên chủ yếu là các báo cáo về ca bệnh đơn lẻ hoặc chùm ca bệnh, do đây là bệnh hiếm gặp. Tại Việt Nam, nghiên cứu về UMHTM cũng chưa có nhiều. Với mong muốn giúp các bác sĩ lâm sàng chẩn đoán sớm và tránh bỏ sót bệnh lý UMHTM, chúng tôi tiến hành nghiên cứu với mục tiêu tìm hiểu các đặc điểm lâm sàng và hình thái của UMHTM qua nội soi phế quản.

^{*}Tác giả liên hệ: Email: thungabs@gmail.com

Đối tượng và phương pháp nghiên cứu

Đối tượng

Bệnh nhân được chẩn đoán xác định UMHTM tại Bệnh viện Nhi Trung ương từ 1/6/2018 đến 30/5/2023.

Tiêu chuẩn chẩn đoán UMHTM: Trẻ có triệu chứng thở rít kéo dài, khởi phát sớm dưới 6 tháng tuổi, được tiến hành nội soi phế quản ống mềm. Quan sát thấy hình ảnh khối màu hồng, đỏ hoặc tím, thành nhẵn, căng bóng, mềm, phát triển dưới dây thanh, được xác định bởi các bác sĩ nội soi phế quản có kinh nghiệm tại Khoa Khám thăm dò chức năng hô hấp, Bệnh viện Nhi Trung ương.

Tiêu chuẩn chẩn đoán mức độ hẹp đường thở của UMHTM theo thang phân loại của Myer-Cotton [5]: i) Độ I: mức độ hẹp 0-50%; ii) Độ II: mức độ hẹp 51-70%; iii) Độ III: mức độ hẹp 71-99%; iv) Độ IV: không xác định được lỗ hẹp.

Phương pháp nghiên cứu

Nghiên cứu mô tả cắt ngang hồi cứu và tiến cứu.

Phân tích số liệu

Các số liệu được xử lý và phân tích bằng phần mềm SPSS 20.0.

Clinical features and endoscopic images of hemoptysis and subglottic mass in children at Vietnam National Children's Hospital

Thi Thu Nga Nguyen^{1*}, Thi Hong Hanh Le¹,
 Thu Nga Pham², Dang Viet Phung¹,
 Thanh Chuong Le¹, Thi Kim Thanh Dang¹,
 Thi Thanh Tam Pham¹, Thi Minh Phuong Nguyen¹

¹Vietnam National Children's Hospital
²Hanoi Medical University

Received 22 May 2023; revised 31 May 2023; accepted 5 June 2023

Abstract:

Objectives: To describe clinical characteristics and endoscopic image of patients with subglottic hemangioma. **Subjects:** 25 patients were diagnosed subglottic hemangioma at Vietnam National Children's Hospital from 1st June, 2018 to 30th May, 2023. **Methods:** Retrospective and prospective cross-sectional studies. **Results:** median age was 2.7 months, ranged from 20 days to 20 months, female/male ratio: 2.1/1, mean age of stridor breathing onset was 30.7±20.6 days. The mean of prolonged and recurred stridor breathing was 51.3±47.5 days. **Clinical features:** stridor breathing (80%), suprasternal depression (76%), respiratory failure (72%), cough (36%), skin hemangioma (8%), choking (8%). **Bronchoscopy results:** The most common characteristic of the subglottic hemangioma was red with smooth wall (92%). The location of subglottic hemangioma included the following: circumferential lesion (36%), the right wall (32%), the left wall (28%), posterior wall (4%), and 8% of those spread to 1 cm below the trachea. The range of subglottic narrowing tumour was grade III (60%) and grade II (32%). **Conclusions:** Subglottic hemangioma is one of the rare diseases, causing early onset stridor breathing in children under 6 months. The most outstanding presentation is prolonged, recurrent stridor, which can cause laryngeal dyspnea. Diagnosis is mainly based on bronchoscopy to evaluate the colour, morphology, and tumour size.

Keywords: glottis malformation, subglottic hemangioma, wheezing.

Classification number: 3.2

Kết quả

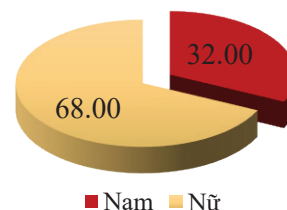
Đặc điểm chung của nhóm nghiên cứu

Trong thời gian từ 1/6/2018 đến 30/5/2023 có 25 trẻ đủ tiêu chuẩn chẩn đoán UMHTM được đưa vào nghiên cứu, trung bình mỗi năm có 5 trẻ chẩn đoán UMHTM.

Bảng 1. Đặc điểm tuổi của nhóm đối tượng nghiên cứu (n=25).

Đặc điểm	Trung bình (SD)
Tuổi trung bình (tháng)	4,0 (4,3)
Trung vị (tháng)	2,7 (2,0-3,4)
Min-max (tháng)	0,8-20
Nhóm tuổi	n (%)
<2 tháng	6 (24,0)
Từ 2 đến 6 tháng	17 (68,0)
Trên 6 tháng	2 (8,0)

Kết quả bảng 1 cho thấy, tuổi trung bình của nhóm bệnh nhân thời điểm phát hiện UMHTM trung bình 4 tháng, trung vị 2,7 tháng, nhỏ nhất 20 ngày tuổi, lớn nhất 20 tháng, trong đó chủ yếu là nhóm dưới 6 tháng chiếm 92%. Tỷ lệ nữ/nam là 2,1/1 (hình 1).

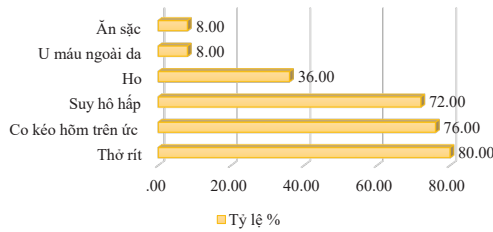


Hình 1. Phân bố giới tính của nhóm nghiên cứu (n=25).

Bảng 2. Đặc điểm tuổi khởi phát và thời gian kéo dài thở rít.

Đặc điểm	n (%)
Tuổi khởi phát thở rít	
Tuổi trung bình (ngày)	30,7±20,6
Min-max (ngày)	3-75
Phân nhóm tuổi khởi phát thở rít	
Trong 1 tháng đầu	17 (68,0)
Từ 1 đến 3 tháng	8 (32,0)
Thời gian kéo dài thở rít (liên tục hoặc gián đoạn)	
Thời gian trung bình (ngày)	51,3±47,5
Min-max (ngày)	10-240

Kết quả bảng 2 cho thấy, tuổi khởi phát thở rít sớm, trung bình 30,7±20,6 ngày tuổi, sớm nhất 3 ngày tuổi, muộn nhất 75 ngày tuổi, trong đó nhóm khởi phát sớm ≤1 tháng chiếm 68,0%. Thời gian kéo dài triệu chứng thở rít từ thời điểm khởi phát đến lúc được chẩn đoán trung bình 51,3±47,5 ngày, ngắn nhất 10 ngày, dài nhất 240 ngày.



Hình 2. Phân bố triệu chứng lâm sàng tại thời điểm chẩn đoán.

Triệu chứng thở rít (stridor), co kéo hõm trên ức hay gặp nhất. Gần 3/4 số bệnh nhân nhập viện có tình trạng suy hô hấp (hình 2).

Kết quả nội soi phế quản

Kết quả bảng 3 cho thấy, khối u máu quan sát qua nội soi phế quản có màu đỏ, hồng, thành nhẵn. Vị trí khối u xuất phát ngay dưới thanh môn thành bên trái, bên phải, bao quanh chu vi với tỷ lệ gần tương đương nhau (28, 32 và 36%); 2/25 bệnh nhân u phát triển xuống khí quản. Mức độ hẹp chủ yếu độ III, độ II (60 và 32%).

Bảng 3. Đặc điểm cấu trúc, hình thái khối u máu trên nội soi phế quản.

Đặc điểm	n (%)
Màu sắc, tính chất u máu	
Đỏ, nhẵn	23 (92,0)
Hồng, nhẵn	2 (8,0)
Vị trí xuất phát	
Thành bên trái hạ thanh môn	7 (28,0)
Thành bên phải hạ thanh môn	8 (32,0)
Thành sau hạ thanh môn	1 (4,0)
Bao quanh chu vi hạ thanh môn	9 (36,0)
Kéo dài xuống khí quản	2 (8)
Phân độ hẹp	
Độ I	2 (8,0)
Độ II	8 (32,0)
Độ III	15 (60)
Độ IV	0

Bàn luận

UMHTM được Morrell Mackenzie mô tả lần đầu tiên vào năm 1864. Tỷ lệ mắc UMHTM chưa được xác định trong bất kỳ nghiên cứu chính thức nào. Một phân tích từ cơ sở dữ liệu hệ thống Thông tin Y tế Nhi khoa của 37 bệnh viện trong giai đoạn 5 năm 2000-2005 cho thấy, trong số 2890 bệnh nhân u máu nhập viện, có 337 bệnh nhân (gần 12%) đã cần phải hỗ trợ đường thở trong ít nhất 1 lần [6]. Do đó, trung bình, các bệnh viện trong nhóm nghiên cứu này điều trị ít hơn 3 trẻ u máu có triệu chứng hô hấp mỗi năm.

Theo một nghiên cứu hồi cứu về điều trị UMHTM ở Anh tại 3 trung tâm nhi khoa từ năm 1980 đến năm 2002 cho thấy, tổng cộng có 116 trẻ bị UMHTM đã được xác định, trong đó

78 trẻ nữ và 38 trẻ nam. Tuổi tại thời điểm xuất hiện dao động từ 1 đến 18 tháng (tuổi trung bình là 4,7 tháng) [7].

Trong nghiên cứu của chúng tôi, trong 5 năm (2018-2023) có 25 trẻ được chẩn đoán UMHTM với 17 trẻ nữ, 8 trẻ nam. Tuổi trung bình của nhóm bệnh nhân thời điểm phát hiện UMHTM dao động từ 20 ngày tuổi đến 20 tháng, trong đó chủ yếu là nhóm ≤6 tháng chiếm 92%. Có 2 bệnh nhân được chẩn đoán lúc 15 và 20 tháng tuổi, tiền sử thở rít - suy hô hấp tái diễn, kéo dài, 1 trẻ đã được mở canuyl lúc 3 tháng, 1 trẻ mở canuyl lúc 8 tháng. Nghiên cứu của chúng tôi cũng tương tự với báo cáo của X. Ding và cs (2020) [8] khi phân tích hồi cứu trên 16 trẻ được chẩn đoán và điều trị UMHTM tại Trung tâm Nhi khoa của Bệnh viện Nhân dân Hồ Nam từ tháng 11/2012 đến tháng 5/2018, trong đó có 10 trẻ nam và 6 trẻ nữ. Các trường hợp từ 15 ngày tuổi đến 8 tuổi, với 3 trường hợp dưới 2 tháng, 6 trường hợp 2-4 tháng, 4 trường hợp 4-6 tháng và 3 trường hợp trên 6 tháng.

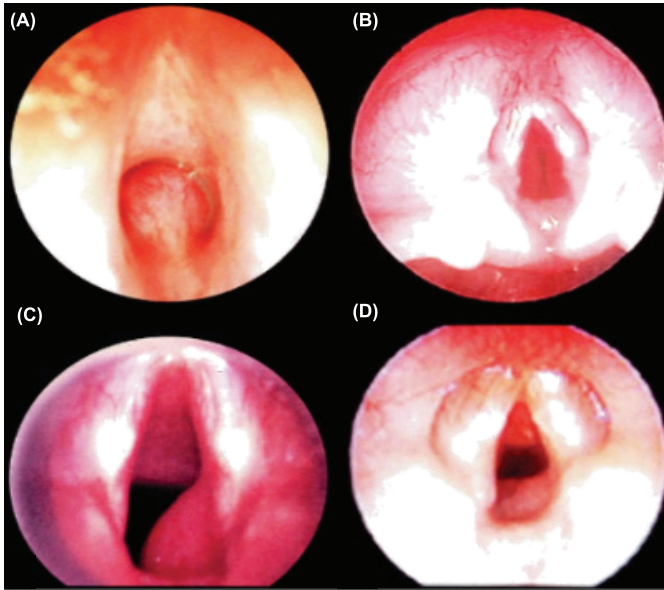
Các bệnh nhân của chúng tôi phần lớn nhập viện vì lý do thở rít thì hít vào, hoặc hai thì kéo dài hoặc tái diễn. Thời điểm khởi phát tiếng thở bất thường diễn ra sớm, trung bình 30,7±20,6 ngày tuổi, sớm nhất 3 ngày tuổi, muộn nhất 75 ngày tuổi, với 68% bệnh nhân khởi phát từ giai đoạn sơ sinh dưới 1 tháng tuổi, 32% bệnh nhân khởi phát thở rít từ thời điểm 1 tháng- 3 tháng. Thời gian kéo dài triệu chứng thở rít từ thời điểm khởi phát đến lúc được chẩn đoán trung bình 51,3±47,5 ngày, dao động 10-240 ngày. Theo y văn, triệu chứng thở rít tái phát hoặc kéo dài liên tục tăng dần từ giai đoạn sơ sinh có thể được xem như là một “dấu hiệu cờ đỏ” chẩn đoán UMHTM [9].

Tại thời điểm được nội soi phế quản chẩn đoán xác định, ngoài dấu hiệu thở rít (80%), bệnh nhân có dấu hiệu co kéo hõm trên ức (76%), suy hô hấp mức độ từ nhẹ đến nặng (72%), biểu hiện khó thở thanh quản. Trong đó, 18/25 trẻ đã nhập viện ít nhất 1 lần ở tuyến trước với các chẩn đoán viêm phổi, viêm tiểu phế quản, viêm thanh quản cấp, mềm sụn thanh quản, theo dõi dị vật thanh quản...

Các triệu chứng ít gặp: u máu vùng môi, cằm (8%), ăn sặc (8%). Trong nghiên cứu của S.J. Orlow và cs (1997) [10] về mối liên quan giữa u máu ngoài da vùng “bộ râu” (vị trí quanh môi, cằm) với UMHTM, trong 529 bệnh nhân u máu có 187 trẻ u máu vùng đầu cổ; 16/187 trên có u máu vùng “bộ râu”, trong 16 trẻ này có tới 10 trẻ có biểu hiện triệu chứng thở rít, 4 trong số 10 trẻ phải mở khí quản. Do vậy, nếu trẻ có u máu vùng “bộ râu” luôn phải chú ý các triệu chứng hô hấp, tránh bỏ sót UMHTM.

Nội soi phế quản dưới gây mê được coi là tiêu chuẩn vàng chẩn đoán UMHTM. Hình ảnh u máu là một khối màu đỏ, hồng hoặc tím, thành nhẵn. Hầu hết UMHTM nằm ngay dưới dây thanh, có thể phát triển trên dây thanh, hoặc kéo dài trong khí quản. Khối u mềm và có thể ép được, cho phép đặt nội khí quản dễ dàng bằng ống nội khí quản mà không có nguy cơ xuất huyết nghiêm trọng [9]. Tồn thương ưu thế

bên trái đã được báo cáo, nhưng UMHTM có thể là hai bên, theo chu vi hoặc nhiều vị trí khác (hình 3).



Hình 3. Hình ảnh UMHTM theo hình thái tổn thương. (A) Một bên gây tắc nghẽn hoàn toàn vùng hạ thanh môn; **(B)** Theo chu vi; **(C)** Một bên bên phải với vết lõm phía sau; **(D)** Thành sau biệt lập.

Trong nghiên cứu của chúng tôi, hình ảnh khối u máu trên nội soi phế quản ống mềm đều có màu sắc đỏ, hồng, thành nhẵn, mật độ mềm như y văn mô tả. Vị trí u xuất phát từ thành bên trái, bên phải, bao quanh chu vi hạ thanh môn với tỷ lệ gần tương đương nhau, tương ứng 28, 32 và 36%; 4% từ thành sau hạ thanh môn. 2/25 trường hợp, khối u lan xuống khí quản đoạn dài khoảng 1 cm. Về kích thước khối u, ở thời điểm soi phát hiện u máu lần đầu tiên, khối u chủ yếu độ II (32%), độ III (60%). Ngoài ra, có 2/25 ca bệnh khối u mức độ I, trong đó 1 ca đã được nội soi phát hiện u máu ở tuyến tinh, đang điều trị propranolol 3 tháng, khi kiểm tra soi lại tại Bệnh viện Nhi Trung ương thấy khối u đang thoái triển; 1 ca đã mở khí quản lúc 4 tháng, kiểm tra lại sau 2 tháng phát hiện khối u máu nhỏ ở thành bên trái không ảnh hưởng đến thông khí. Kết quả của chúng tôi cũng tương tự với nghiên cứu của R. Rahbar và cs (2004) [7] với 100% khối u có màu đỏ, 22% u xuất phát từ 2 thành bên, 21% từ thành sau bên trái, 21% bao quanh chu vi, 16% xuất phát thành bên trái, 6% xuất phát thành bên phải, 5% thành sau, 2% thành sau bên phải và 7% không đánh giá được vị trí. Các tác giả cũng đánh giá mức độ hẹp của khối u máu dao động 10-99% (độ I-III), độ hẹp trung bình 65% (độ II). Đặc biệt, trong nghiên cứu của chúng tôi có 2 trẻ được nội soi phế quản từ giai đoạn sơ sinh, thấy khối vùng hạ thanh môn, nhưng không xác định được bản chất khối u qua hình ảnh, sinh thiết. Tình trạng suy hô hấp của 2 trẻ tiến triển nặng hơn, đã được mở khí quản cấp cứu. Sau 6 tháng, nội soi lại hình ảnh khối u màu sắc hồng, nhẵn, rõ nét hơn, kết hợp chụp cắt lớp vi tính độ phân giải cao vùng cổ, thấy khối

ngấm thuốc mạnh vùng hạ thanh môn tương ứng với vị trí khối u trên nội soi. Cả 2 trẻ đều được điều trị propranolol, cho kết quả tốt cải thiện kích thước khối u trên nội soi phế quản, 1 trẻ đã rút được canuyl, 1 trẻ đang tiếp tục theo dõi, có kế hoạch rút canuyl đợt kiểm tra lần sau.

Kết luận

UMHTM là một bệnh lý hiếm gặp ở trẻ em, nếu không được phát hiện sớm, điều trị kịp thời có thể dẫn tới dấu hiệu suy hô hấp nghiêm trọng, đe dọa tính mạng. Các triệu chứng lâm sàng nổi bật: 100% trẻ có tiền sử thở rít kéo dài, tái diễn trước 3 tháng, trong đó 68% trẻ khởi phát thở rít trong 1 tháng đầu; thời gian thở rít, kéo dài hoặc gián đoạn tái diễn trên 10 ngày, khó thở thanh quản (72%). Nội soi phế quản được coi là tiêu chuẩn vàng giúp chẩn đoán xác định và phân loại mức độ gây hẹp. Trong trường hợp nghi ngờ chẩn đoán, có thể đề xuất thêm chụp cắt lớp vi tính độ phân giải cao, hoặc cộng hưởng từ có tiêm thuốc cản quang vị trí cổ ngực.

TÀI LIỆU THAM KHẢO

- [1] S.A. Hardison, K.M. Dodson, J.L. Rhodes (2014), "Subglottic hemangioma treated with propranolol", *Eplasty*, **Vol.14**.
- [2] A.N. Haggstrom, B.A. Drolet, E. Baselga, et al. (2006), "Prospective study of infantile hemangiomas: Clinical characteristics predicting complications and treatment", *Pediatrics*, **118(3)**, pp.882-887, DOI: 10.1542/peds.2006-0413.
- [3] S.M. Ahmad, A.M. Soliman (2007), "Congenital anomalies of the larynx", *Otolaryngol. Clin. North Am.*, **40(1)**, pp.177-191, DOI: 10.1016/j.otc.2006.10.004.
- [4] M.T. Truong, K.W. Chang, D.R. Berk, et al. (2010), "Propranolol for the treatment of a life-threatening subglottic and mediastinal infantile hemangioma", *J. Pediatr.*, **156(2)**, pp.335-338, DOI: 10.1016/j.jpeds. 2009.10.010.
- [5] C.M. Myer, D.M. O'Connor, R.T. Cotton (1994), "Proposed grading system for subglottic stenosis based on endotracheal tube sizes", *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.*, **103(4 Pt 1)**, pp.319-323, DOI: 10.1177/000348949410300410.
- [6] K. Balakrishnan, J.A. Perkins (2010), "Management of airway hemangiomas", *Expert Rev. Respir. Med.*, **4(4)**, pp.455-463, DOI: 10.1586/ers.10.46.
- [7] R. Rahbar, R. Nicollas, G. Roger, et al. (2004), "The biology and management of subglottic hemangioma: Past, present, future", *The Laryngoscope*, **114(11)**, pp.1880-1891, DOI: 10.1097/01.mlg.0000147915.58862.27.
- [8] X. Ding, L. Zhong, B. Zhang, et al. (2020), "Clinical diagnosis and oral propranolol curative effect analysis of infant subglottic hemangioma", *Int. J. Clin. Exp. Med.*, **13(2)**, pp.1014-1022.
- [9] L. Wu, X. Wu, X. Xu, et al. (2015), "Propranolol treatment of subglottic hemangiomas: A review of the literature", *Int. J. Clin. Exp. Med.*, **8(11)**, pp.19886-19890.
- [10] S.J. Orlow, M.S. Isakoff, F. Blei (1997), "Increased risk of symptomatic hemangiomas of the airway in association with cutaneous hemangiomas in a "beard" distribution", *J. Pediatric*, **131(4)**, pp.643-646, DOI: 10.1016/s0022-3476(97)70079-9.