

KẾT QUẢ ĐA KÝ GIÁC NGỦ SAU PHẪU THUẬT KÉO GIÃN XƯƠNG HÀM DƯỚI ĐIỀU TRỊ HỘI CHỨNG PIERRE ROBIN THỂ NẶNG

^{1,3}Đặng Hoàng Thơm, ²Vũ Ngọc Lâm, ³Trần Thiết Sơn

¹Bệnh viện Nhi Trung ương

²Bệnh viện Trung ương Quân đội 108

³Đại học Y Hà Nội

TÓM TẮT

Mục tiêu: Đánh giá kết quả đa ký giấc ngủ sau phẫu thuật kéo giãn xương hàm dưới điều trị hội chứng Pierre Robin thể nặng.

Đối tượng và phương pháp nghiên cứu: Nghiên cứu can thiệp lâm sàng không đối chứng, so sánh đánh giá trước sau, thực hiện trên 102 bệnh nhân có hội chứng Pierre Robin thể nặng tại Khoa Sọ mặt và Tạo hình, Bệnh viện Nhi Trung ương, từ tháng 10/2019 đến tháng 10/2023.

Kết quả: Tỷ lệ phẫu thuật thành công trong nghiên cứu của chúng tôi là 95,1%. OAHl sau mổ là $1,7 \pm 1,62$. Chỉ số bão hoà ô xy trong máu SpO_2 lên 97 - 100% thờ bình thường không cần hỗ trợ hô hấp.

Kết luận: Chỉ số ngừng thở và giảm thở thay đổi, khác biệt hoàn toàn giữa trước mổ và sau mổ.

Từ khóa: Đa ký giấc ngủ, hội chứng Pierre Robin, Bệnh viện Nhi Trung ương

ABSTRACT

Objective: Evaluate the outcomes of polysomnography after mandibular distraction osteogenesis in the treatment of severe Pierre Robin sequence.

Subjects and Methods: A non-randomized clinical intervention study, with pre-and post-assessment, was conducted on 102 patients with severe Pierre Robin sequence at the Department of Craniofacial and Plastic Surgery, Vietnam Central Children's Hospital, from October 2019 to October 2023.

Results: The success rate of the surgery in our study was 95.1%. Postoperative Apnea-Hypopnea Index (OAHl) was 1.7 ± 1.62 . Oxygen saturation levels in blood (SpO_2)

Chịu trách nhiệm: Đặng Hoàng Thơm, Bệnh viện Nhi Trung ương

Email: drthomdh@gmail.com

Ngày gửi bài: 20/12/2023, Ngày nhận xét: 10/2/2024; Ngày duyệt bài: 28/2/2024

<https://doi.org/10.54804/yhthvb.1.2024.289>

were maintained between 97 - 100%, and normal breathing without respiratory support was achieved.

Conclusion: *There were significant changes in the apnea and hypopnea indices, demonstrating a complete difference between preoperative and postoperative states.*

Keywords: *Polysomnography, Pierre Robin sequence, Vietnam Central Children's Hospital*

1. ĐẶT VẤN ĐỀ

Hội chứng Pierre Robin (PRS) là dị tật bẩm sinh hiếm gặp trên khuôn mặt, gồm tam chứng kinh điển như dị tật xương hàm dưới thiếu sản, lưỡi tụt và tắc nghẽn đường hô hấp trên; có hoặc không có hở hàm ếch hình chữ U/V, được mô tả lần đầu tiên bởi Pierre Robin - một nha sỹ học người Pháp vào năm 1923 [1].

Hội chứng Pierre Robin có khả năng gây ngưng thở do tắc nghẽn vùng gốc lưỡi, đe dọa tính mạng và khó ăn trong thời kỳ sơ sinh. Mức độ khó thở phụ thuộc vào mức độ nghiêm trọng của hàm nhỏ và lưỡi tụt. 70% trẻ mắc hội chứng Pierre Robin (PRS) có mức độ tắc nghẽn đường thở từ nhẹ đến trung bình (độ 1, 2) và có thể được điều trị thành công bằng các phương pháp điều trị bảo tồn, như đặt tư thế nằm sấp liên tục, thở áp lực dương liên tục (CPAP) và đặt nội ống khí quản qua mũi họng [2]. Trước đây mở khí quản là phương pháp điều trị tiêu chuẩn vàng cho PRS thể nặng, tuy nhiên xảy ra nhiều biến chứng, di chứng lâu dài, thời gian nằm viện và chăm sóc kéo dài [3].

Trong những năm gần đây, phương pháp kéo giãn tạo xương hàm dưới hai bên (MDO) đã xuất hiện như một phương pháp thay thế cho những trường hợp PRS thể nặng, với kết quả tốt, thống nhất, giải quyết nguyên nhân chính trong PRS, là phương pháp có tác dụng điều trị thực sự, làm tăng chiều dài của xương hàm dưới

trong thời gian ngắn mà không cần ghép xương, tăng thêm độ nhô cho cung hàm dưới và tạo khoảng trống không gian thở cho đường thở trên.

Hiện nay, các bằng chứng đa ký giấc ngủ sau quá trình kéo giãn tạo xương hàm dưới hai bên còn rất hạn chế. Xuất phát từ những nhu cầu trên, chúng tôi đã tiến hành nghiên cứu đề tài “*Kết quả đa ký giấc ngủ sau phẫu thuật kéo giãn xương hàm dưới điều trị hội chứng Pierre Robin thể nặng*”.

2. ĐỐI TƯỢNG VÀ PHƯƠNG PHÁP

2.1. Đối tượng nghiên cứu

2.1.1. Tiêu chuẩn bệnh nhân nghiên cứu

- Bệnh nhân được chẩn đoán xác định mắc hội chứng thiếu sản xương hàm dưới (hội chứng Pierre Robin) có đặc điểm lâm sàng và cận lâm sàng thể nặng (độ 3) theo phân loại của Caouette- Laberger (1994).

- PRS có tắc nghẽn đường thở trên và điều trị bảo tồn thất bại.

- Xquang, CT scanner 3D: Hẹp vùng gốc lưỡi, khoảng sáng sau họng dưới 3mm.

- Khó nuốt, nuôi dưỡng qua sonde dạ dày.

- Khoảng chênh lệch hàm trên - hàm dưới trên 10mm.

- Polysomnography: AHI trên 10, MAOI > 3.

- Thời gian theo dõi sau mổ từ 3 tháng.

- Đầy đủ hồ sơ nghiên cứu và chấp nhận tham gia nghiên cứu.

2.1.2. Tiêu chuẩn loại trừ

- PRS Pierre Robin độ I, độ II.
- PRS kết hợp hội chứng Hemifacial được kéo giãn hàm dưới 1 bên.
- Bệnh lý ngưng thở trung tâm.
- Bệnh lý mắc phải làm tắc nghẽn đường thở: chấn thương, bệnh lý phì đại lưỡi.

- Chèn ép đường thở dưới do u, mềm sụn thanh khí quản.

- Dính khớp thái dương - hàm (TMJ), lép nửa mặt không kèm thiếu sản hàm dưới.

- Hồ sơ bệnh án không đáp ứng đầy đủ các yêu cầu nghiên cứu, không chấp nhận tham gia nghiên cứu.



Hình 1.1. Đặc điểm lâm sàng hội chứng Pierre Robin thể nặng

2.2. Phương pháp nghiên cứu**2.2.1. Thiết kế nghiên cứu**

Nghiên cứu được thiết kế theo phương pháp can thiệp lâm sàng không đối chứng, so sánh đánh giá trước sau.

2.2.2. Cỡ mẫu

Cỡ mẫu trong nghiên cứu được lấy mẫu thuận tiện trong thời gian nghiên cứu là 102 bệnh nhân.

2.2.3. Thời gian và địa điểm nghiên cứu

- Địa điểm: Khoa Sọ mặt và Tạo hình, Bệnh viện Nhi Trung ương.

- Thời gian nghiên cứu: Từ tháng 10/2019 đến tháng 10/2023.

2.3. Đạo đức nghiên cứu

- Nghiên cứu được tiến hành đảm bảo các quy định về đạo đức trong nghiên cứu y sinh học và được thực hiện sau khi đã được

Hội đồng Đạo đức Trường Đại học Y Hà Nội thông qua tại quyết định số 644/GCN-HĐĐĐNCYSH-ĐHYHN ngày 04/06/2022.

- Tiến hành nghiên cứu tại Bệnh viện Nhi Trung ương với sự đồng ý của Ban lãnh đạo Bệnh viện. Nghiên cứu chỉ tiến hành trên những đối tượng tự nguyện tham gia nghiên cứu và trên tinh thần hợp tác, không ép buộc.

- Toàn bộ thông tin thu thập chỉ phục vụ cho mục đích nghiên cứu mà không

phục vụ bất kỳ mục đích nào khác.

Chúng tôi cam kết tiến hành nghiên cứu với tinh thần trung thực, giữ bí mật thông tin về người bệnh.

3. KẾT QUẢ NGHIÊN CỨU

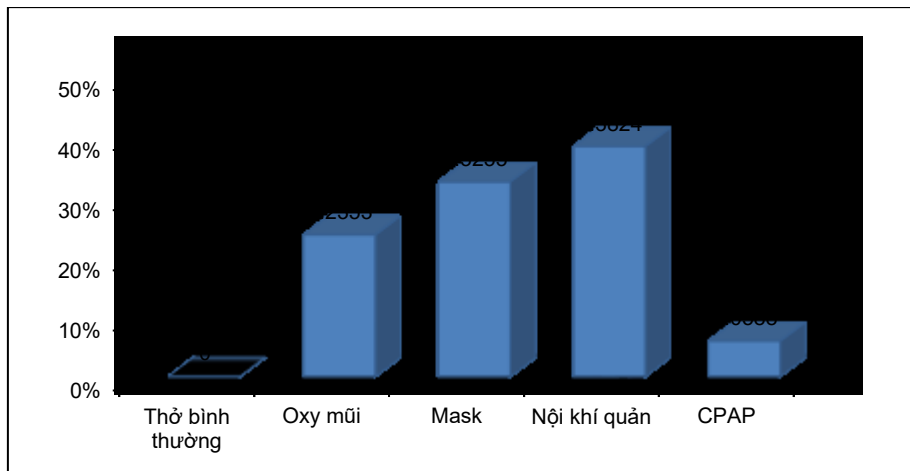
Từ tháng 10/2019 đến tháng 10 năm 2023, chúng tôi đã chỉ định phẫu thuật cho 102 bệnh nhân, bao gồm cả PRS đơn thuần và PRS kết hợp hội chứng trong đó tất cả là Pierre Robin thể nặng.

Bảng 3.1. Phân bố tỷ lệ theo giới (n = 102)

Đặc điểm	Số lượng (n)	Tỉ lệ (%)
Giới		
Nam	48	47,1
Nữ	54	52,9
Độ tuổi		
Sơ sinh	42	41,2
2 - 6 tháng	54	52,9
> 6 tháng	6	5,9
Trung bình (ngày)	50,03 ± 16,65	
Tuổi mổ	56,40 ± 20,13	
Tình trạng nước ối trước sinh		
Thiếu ối	81	79,4
Bình thường	12	11,8
Đa ối	9	8,8
Tổng	102	100

Trong nghiên cứu của chúng tôi, có 47,1% là trẻ nam. Tỉ lệ trẻ nam và trẻ nữ tương đối bằng nhau. Tuổi trung bình của bệnh nhân nghiên cứu là 50,03 ± 16,65 ngày. Phần lớn đối tượng nghiên cứu là trẻ ≤ 6 tháng tuổi. Trong đó, trẻ 1 - 6 tháng chiếm

tỉ lệ cao nhất (52,9%), tiếp đến là trẻ sơ sinh (41,2%). Phần lớn mẹ bệnh nhân PRS thể nặng có tiền sử thiếu ối trong giai đoạn mang thai, đặc biệt vào trong 3 tháng cuối được ghi nhận với 81 bệnh nhân chiếm 79,4% và 11,8% chỉ số nước ối bình thường.



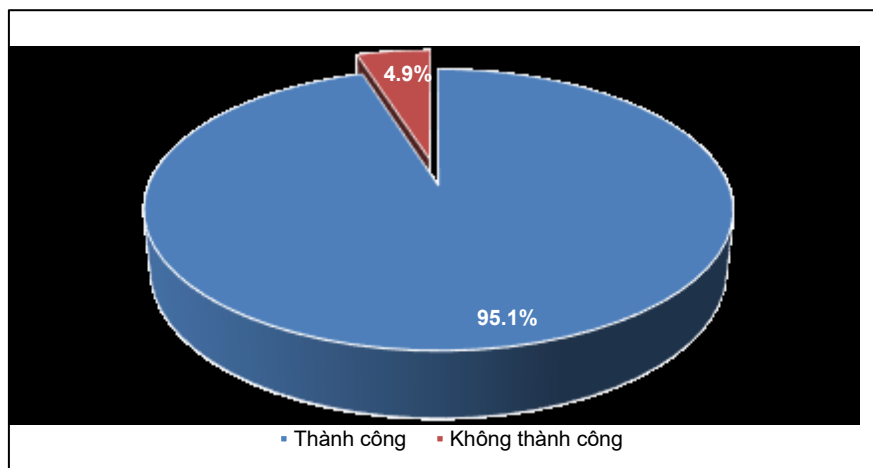
Biểu đồ 3.1. Đặc điểm hô hấp của bệnh nhi trước mổ

Tất cả bệnh nhân Pierre Robin thể nặng trong nhóm nghiên cứu cần phải hỗ trợ trước mổ, không có trẻ nào thở bình thường trước khi thực hiện phẫu thuật. Có 38,2% trẻ phải thở nội khí quản, thở mask và thở ô xy mũi lần lượt là 32,4% và 23,5%. Hỗ trợ thở CPAP- thở áp lực dương liên tục chiếm tỷ lệ thấp nhất với 5,9%.

Đa ký giấc ngủ là dấu hiệu khách quan đánh giá mức độ khó thở, tắc nghẽn đường thở khách quan. Chỉ số bão hoà ô xy trong máu luôn thấp dưới 90% với giá trị trung bình $73 \pm 7,35\%$. Ngoài ra tất cả bệnh nhân trong nghiên cứu của chúng tôi có ngừng thở, giảm thở khi ngủ ở các mức độ khác nhau. Chỉ số ngừng thở và giảm thở khi ngủ trước phẫu thuật là $23,1 \pm 11,74$ trong đó thấp nhất 10 và cao nhất 54. Phù hợp với chỉ định can thiệp phẫu thuật kéo giãn xương điều trị PRS thể nặng.

Bảng 3.3. Đa ký ngủ trước mổ (n = 102)

Đa ký giấc ngủ	TB \pm SD	Min - Max
Chỉ số ngừng thở và giảm thở (OAH)	$23,1 \pm 11,74$	10 - 54
SpO ₂ thấp nhất (%)	$73 \pm 7,35$	68 - 90



Biểu đồ 3.2. Kết quả phẫu thuật (n = 102)

Tỷ lệ phẫu thuật thành công trong nghiên cứu của chúng tôi là 95,1%, khi tình trạng bệnh được cải thiện, sau mổ không cần can thiệp mở khí quản để thở. Với kết quả 4,9% các trường hợp thất bại sau phẫu thuật kéo giãn xương hàm dưới cần thiết phải mở khí quản bổ xung, tất cả các trường hợp thất bại là các Pierre hội chứng có liên quan đến các tổn thương não kèm theo hay các bệnh nhân trước mổ có mềm sụn thanh khí quản, phải thở máy giai đoạn sơ sinh mà không đánh giá và loại trừ được các thương tổn gây tắc nghẽn đường thở dưới.

Bảng 3.4. Đa ký giấc ngủ sau mổ

Đa ký giấc ngủ TB ± SD	Trước mổ	Sau mổ
Chỉ số ngừng thở và giảm thở (OAH)	23,1 ± 11,74	1,7 ± 1,62
SPO ₂ thấp nhất (%)	73 ± 7,35	97 ± 1,54

Chỉ số ngừng thở và giảm thở thay đổi, khác biệt hoàn toàn giữa trước mổ và sau mổ. OAH trước mổ là 23,1 ± 11,74 trong khi sau mổ là 1,7 ± 1,62, mức giảm 13 lần. Chỉ số bão hoà ô xy trong máu SpO₂ tăng lên, từ 73 ± 7,35% lên 97 - 100%, thở bình thường không cần hỗ trợ hô hấp.

4. BÀN LUẬN

Tuổi trung bình của bệnh nhân nghiên cứu là 50,03 ± 16,65 ngày tuổi. Phần lớn đối tượng nghiên cứu là trẻ ≤ 6 tháng tuổi. Trong đó, trẻ 1 - 6 tháng chiếm tỉ lệ cao nhất (52,9%), tiếp đến là trẻ sơ sinh (41,2%). Chúng tôi chỉ định áp dụng phương pháp này cho các trường hợp có tắc nghẽn đường thở nghiêm trọng và khó bú đường miệng. Các bệnh nhân trên 6 tháng tuổi đa phần ở rất xa, không đến khám được trong giai đoạn sớm và đã

được mở khí quản giải quyết tắc nghẽn đường thở.

Đánh giá kết quả hình thành xương hàm dưới ở trẻ mắc hội chứng Pierre Robin nặng dựa trên thành công của phẫu thuật kéo giãn tạo xương hàm dưới MDO, bao gồm cả khả năng ăn và kích thước đường thở. Tổng kết kết quả chung cho thấy tỷ lệ thành công của phẫu thuật đạt 95,5% đối với đường thở, với 97 trường hợp tránh mở khí quản và giảm OSA qua đa ký giấc ngủ. Chỉ số ngừng thở và giảm thở thay đổi, khác biệt hoàn toàn giữa trước mổ và sau mổ. OAH trước mổ là 23,1 ± 11,74 trong khi sau mổ là 1,7 ± 1,62, mức giảm 13 lần. Chỉ số bão hoà oxy trong máu SpO₂ tăng lên, từ 73 ± 7,35% lên 97 - 100%, thở bình thường không cần hỗ trợ hô hấp.

Theo Rashi Kochhar (2022), trẻ mắc hội chứng Pierre Robin có rối loạn nhịp thở khi ngủ, trong đó chứng ngưng thở khi ngủ do tắc nghẽn (OSA) là phổ biến nhất [4]. Tỷ lệ mắc OSA ở bệnh nhân PRS khoảng 46 - 100% tùy thuộc vào tiêu chí đánh giá khác nhau [4]. Trẻ mắc OSA có nguy cơ chậm phát triển, nhận thức thần kinh kém, rối loạn chức năng tim mạch, xảy ra thứ phát sau tình trạng thiếu oxy mãn tính từng và giấc ngủ chập chờn. Do đó giải quyết OSA kịp thời và phù hợp có thể ngăn ngừa những biến chứng, cho phép trẻ tăng trưởng và phát triển bình thường. Đo đa ký giấc ngủ qua đêm (PSG) là tiêu chuẩn vàng để chẩn đoán OSA trước khi PSG được ghi, cần xác định mức độ nghiêm trọng của tắc nghẽn bằng cách nội soi đường thở và theo dõi hô hấp. Tuy nhiên cả chẩn đoán và cải thiện sau điều trị đều có xu hướng mơ hồ do thiếu kỹ thuật đo lường xác định [5].

Kéo giãn tạo xương hàm dưới MDO cho phép nâng cao, kéo dài hàm, đẩy gốc lưỡi để giảm tắc nghẽn trên thanh môn. Theo y văn nhiều báo cáo về an toàn và hiệu quả của MDO trong giảm tắc nghẽn đường hô hấp trên (UAO), nhưng có ít nghiên cứu mô tả mức độ tắc nghẽn đường thở và sự cải thiện sau phẫu thuật. Hiện tại, không có quy trình hoặc thước đo khách quan nào xác định mức cần kéo dài xương hàm dưới để giải quyết OSA.

Nghiên cứu những PRS thể nặng gây ra UAO nghiêm trọng bằng cách sử dụng đa ký giấc ngủ (PSG) để hướng dẫn MDO. Looby so sánh PSG trước và sau phẫu thuật, CT hàm mặt, [6] Hammoudeh cho thấy AHI sau phẫu thuật được cải thiện trên đa ký giấc ngủ, PSG để hướng dẫn quá trình kéo giãn xương ở mức độ thích hợp nhằm đạt được kết quả là khi tình trạng "ngưng thở khi ngủ chuyển từ "nghiêm trọng" sang "không nghiêm trọng" [7]. Chúng tôi thấy rằng MDO có khả năng mở rộng đường thở ngay lập tức và xương hàm dưới được đưa ra trước 2mm so với xương hàm trên không phải lúc nào cũng đủ để giải quyết tình trạng tắc nghẽn đường thở UAO.

Nghiên cứu chúng tôi khi sử dụng các kỹ thuật để xác định mức đẩy xương hàm ra trước, nhận thấy vẫn còn tình trạng ngưng thở khi ngủ do tắc nghẽn (OSA) ở mức độ từ trung bình đến nặng nên phải tiến thêm trung bình 3mm để giải quyết tắc nghẽn đường thở, chứng tỏ tính ưu việt khi sử dụng đo đa ký giấc ngủ để đánh giá mức độ nghiêm trọng của tắc nghẽn đường thở trên UAO. MDO như một phương pháp tối ưu điều trị PRS thể nặng và các bất thường sọ mặt khác, thay thế mở khí quản. đôi khi phẫu thuật MDO chỉ điều chỉnh OSA đến mức chấp nhận được

và không giải quyết hoàn toàn OSA và các mốc khác nhau cần được phát triển để cho phép đường thở thông thoáng hoàn toàn. Mặc dù có PSG hỗ trợ và nội soi hướng dẫn nhưng xác định điểm dừng kéo giãn - khi nào dừng kéo giãn vẫn chưa rõ ràng, nhưng về mặt lý tưởng thì hàm trên dưới nên tương quan với nhau, một số tác giả đề nghị kéo giãn quá mức từ 3 - 5mm. Chúng tôi cho rằng cần phải xem xét điểm cuối tịnh tiến xương hàm dưới ra trước, vì thực tế cần kéo dài tiến thêm ít nhất 3mm để giảm UAO.

Quan niệm về OAHl bình thường ở trẻ là rất khó, Guillemainault cho rằng, trẻ đủ tháng có tỷ lệ ngưng thở tắc nghẽn là 0,6 biến cố/giờ sau 3 tuần, 1,1 biến cố/giờ lúc 6 tuần, 0,4 biến cố/giờ lúc 3 tháng và 0,2 biến cố/giờ lúc 6 tháng [8]. Chúng tôi cho rằng PSG là một công cụ hữu ích cần thiết để hỗ trợ hướng dẫn kéo giãn xương hàm dưới để giảm bớt tình trạng tắc nghẽn ở trẻ sơ sinh trải qua MDO. Cần nhiều nghiên cứu hơn để thiết lập những khuyến nghị này trên một nhóm bệnh nhân lớn hơn, cũng như đánh giá lâu dài về kết quả của MDO sớm và có thể mở rộng nó sang một nghiên cứu đa trung tâm.

5. KẾT LUẬN

Nghiên cứu của chúng tôi thực hiện trên 102 bệnh nhân có hội chứng Pierre Robin thể nặng tại Khoa Sọ mặt và Tạo hình, Bệnh viện Nhi Trung ương, từ tháng 10/2019 đến tháng 10/2023, kết quả đạt được: Tỷ lệ phẫu thuật thành công là 95,1%. OAHl sau mổ là $1,7 \pm 1,62$. Chỉ số bão hòa oxy trong máu SpO_2 lên 97 - 100%, thở bình thường không cần hỗ trợ hô hấp. Chỉ số ngưng thở và giảm thở thay đổi, khác biệt hoàn toàn giữa trước mổ và sau mổ.

TÀI LIỆU THAM KHẢO

1. Bütow K.-W., Naidoo S., Zwahlen R.A. và cộng sự. (2016). Pierre Robin sequence: Subdivision, data, theories, and treatment - Part 4: Recommended management and treatment of Pierre Robin sequence and its application. *Ann Maxillofac Surg*, 6(1), 44-49.
2. Basta M.N., Mudd P.A., Fuller S.M. và cộng sự. (2015). Total Airway Reconstruction in the Neonate: Combined Mandibular Distraction and Slide Tracheoplasty for Multiple Level Airway Obstruction. *J Craniofac Surg*, 26(8), e788-791.
3. Al-Samkari H.T., Kane A.A., Molter D.W. và cộng sự. (2010). Neonatal outcomes of Pierre Robin sequence: an institutional experience. *Clin Pediatr (Phila)*, 49(12), 1117-1122.
4. Kochhar R., Modi V., de Silva N. và cộng sự. (2022). Polysomnography-guided mandibular distraction osteogenesis in Pierre Robin sequence patients. *J Clin Sleep Med*, 18(7), 1749-1755.
5. Daniel M., Bailey S., Walker K. và cộng sự. (2013). Airway, feeding and growth in infants with Robin sequence and sleep apnoea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*, 77(4), 499-503.
6. Looby J.F., Schendel S.A., Lorenz H.P. và cộng sự. (2009). Airway analysis: with bilateral distraction of the infant mandible. *J Craniofac Surg*, 20(5), 1341-1346.
7. Hammoudeh J., Bindingavele V.K., Davis B. và cộng sự. (2012). Neonatal and infant mandibular distraction as an alternative to tracheostomy in severe obstructive sleep apnea. *Cleft Palate Craniofac J*, 49(1), 32-38.
8. Guilleminault C., Ariagno R., Korobkin R. và cộng sự. (1979). Mixed and obstructive sleep apnea and near miss for sudden infant death syndrome: 2. Comparison of near miss and normal control infants by age. *Pediatrics*, 64(6), 882-891.