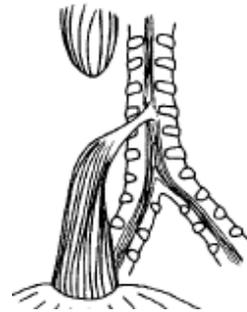


Evaluation du retentissement respiratoire des anomalies de la paroi thoracique consécutives à la cure chirurgicale classique ou mini-invasive des atrésies de l'œsophage

RestriMIS

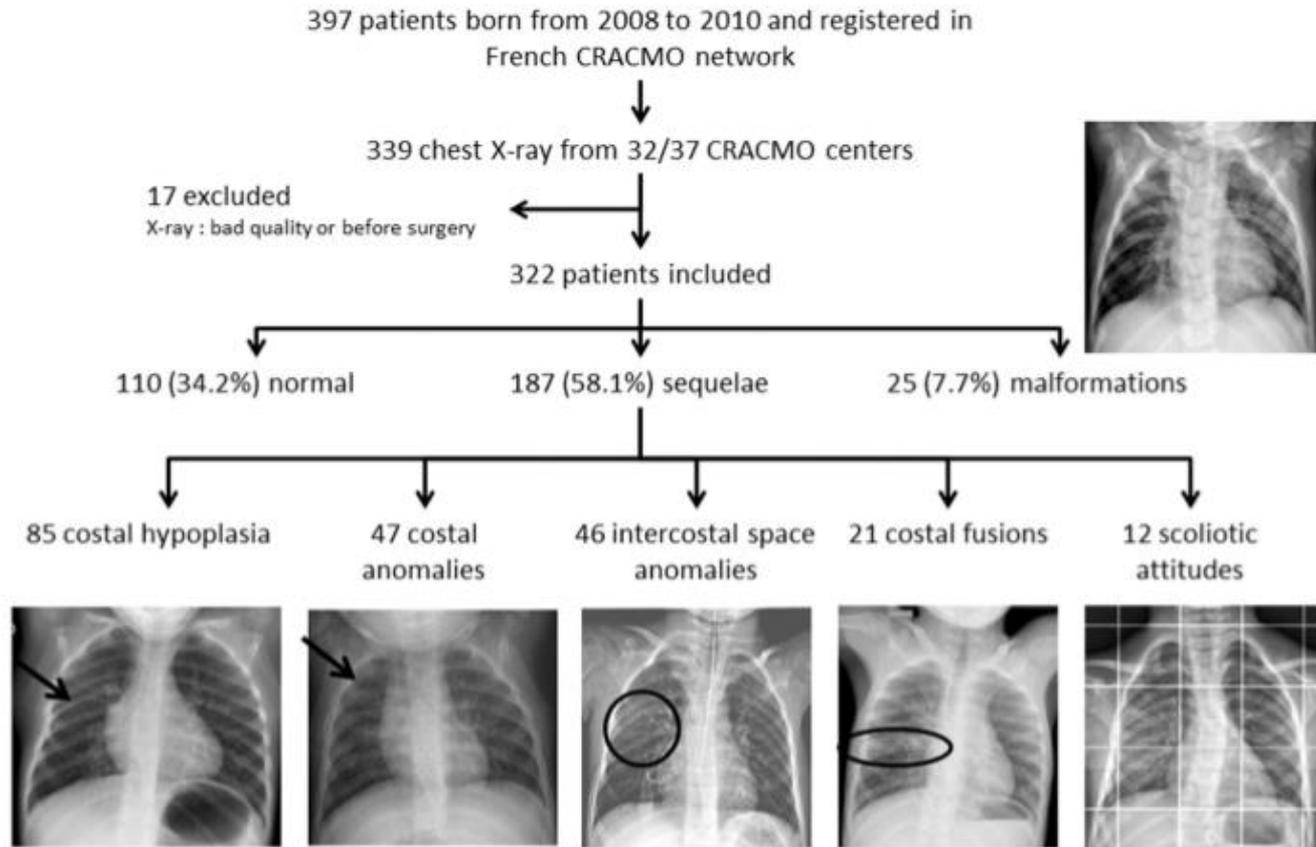


Une étude du registre national CRACMO

Investigateur principal: service de chirurgie pédiatrique du CHU d'Angers



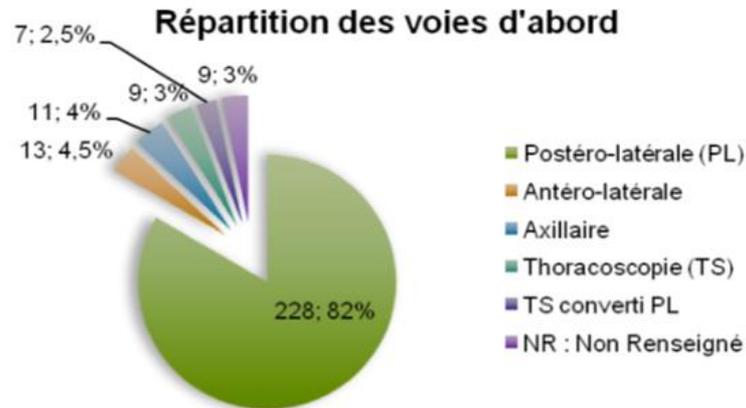
Contexte



F. Bastard et al. / Journal of Pediatric Surgery 53 (2018) 605–609

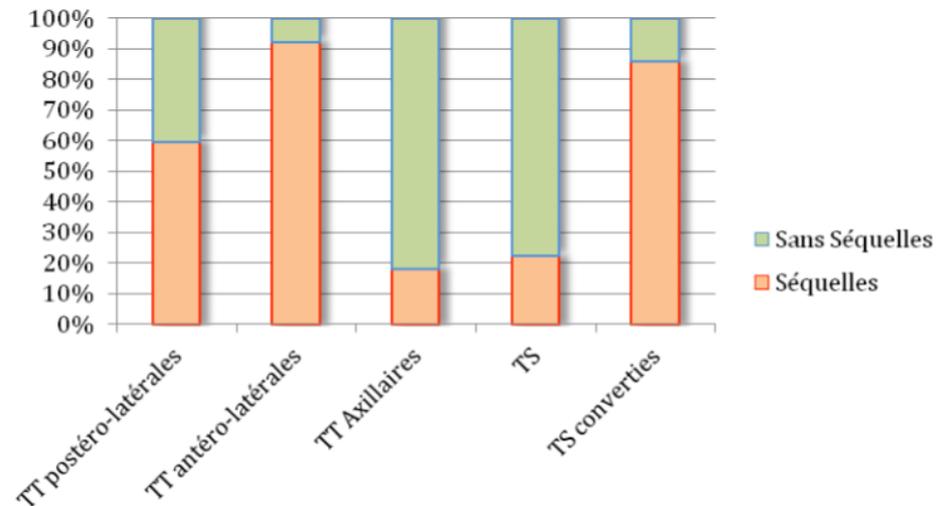
2/3 des patients porteurs d'une atrésie oesophagienne ont des anomalies squelettiques
90% d'entre elles sont des séquelles de la chirurgie thoracique

Contexte



En France, moins de 10%
des interventions en
thoracoscopie

Seulement 22% de séquelles
pariétales après
thoracoscopie



Contexte

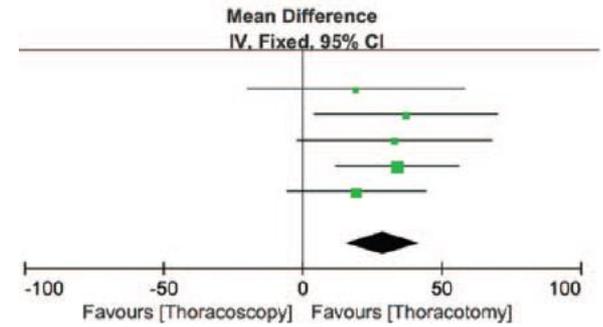
Study	Region	Study type	Sample size	Age at surgery, day	Gestational age, week	Sex (m/f)	Weight, kg
Al Tokhais [2008] ^[11]	USA	OCS (retrospective)	TR:23 COR:22	NA	36.3 36.3	NA	2.7±0.7 2.4±0.7
Lugo [2008] ^[12]	USA	OCS (retrospective)	TR:8 COR: 25	NA	36.9 (28–40) 36.7 (30–41)	6/2 10/15	2.7 (1.7–3.4) 2.4 (1.2–3.3)
Kawahara [2009] ^[13]	Japan	OCS (retrospective)	TR:7 COR: 10	1 (1–3) 2 (0–12)	39.4 (37–41) 37.6 (33–41)	NA	2.8 (2.5–3.7) 2.5 (1.5–2.9)
Burford [2011] ^[14]	USA	OCS (retrospective)	TR:104 COR:72	1.2±1.1 3.7 (1–64)	NA 37.3 (28–42)	NA	2.6±0.5 2.7 (0.98–4.62)
Szavay [2011] ^[8]	Germany	OCS (retrospective)	TR:25 COR:32	NA	NA	NA	2.7 (1.5–3.5) 2.1 (0.8–3.3)
Ma [2012] ^[15]	China	OCS (prospective)	TR:18 COR:15	NA	39.0±2.7 39.7±2.9	15/3 7/8	2.6±0.8 2.3±0.6
Bishay [2013] ^[16]	UK	RCT	TR:5 COR: 5	1 (1–5) 1 (1–2)	40 (39–41) 40 (38–41)	3/2 4/1	3.3 (2.9–3.7) 3.3 (2.6–3.5)
Koga [2014] ^[6]	Japan	OCS (retrospective)	TR:25 COR: 40	3.1±2.3 3.8±2.9	38.1±1.7 38.6±1.3	NA	2.6±0.4 2.6±0.4
Yamoto [2014] ^[7]	Japan	OCS (retrospective)	TR:11 COR:15	1.9 (0–7) 3.7 (0–10)	38.6 (36–40) 38.5 (37–40)	7/4 11/4	2.6 (2.1–3.1) 2.7 (2.2–3.1)

Thoracotomie : 236 (51%)
Thoracoscopie : 226 (49%)

Âges et poids
équivalents

Contexte

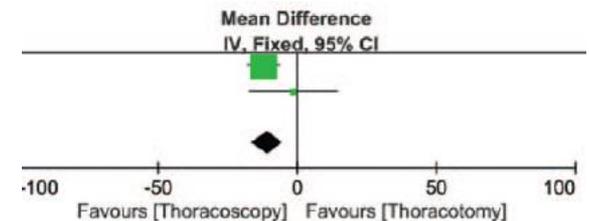
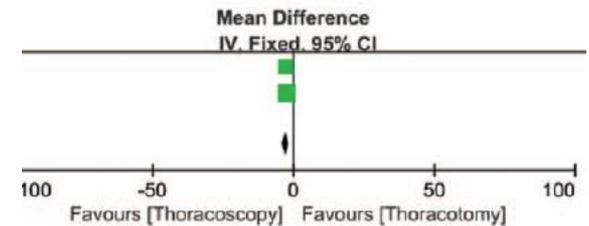
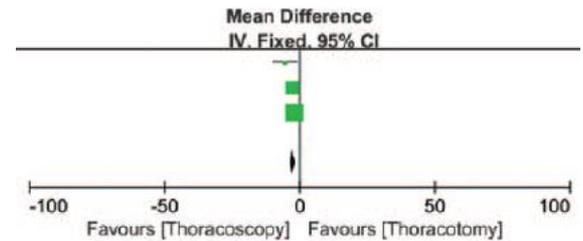
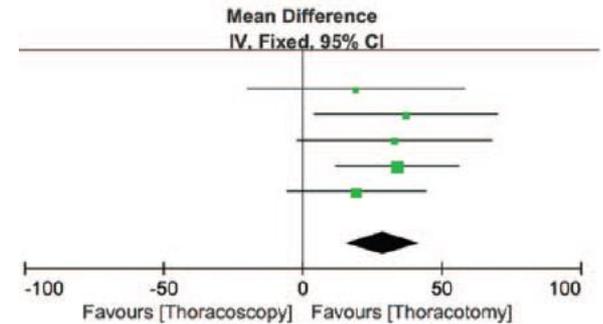
Temps opératoire + long



Contexte

Temps opératoire + long

**Durée intubation, début
alimentation, temps
hospitalisation + courts**

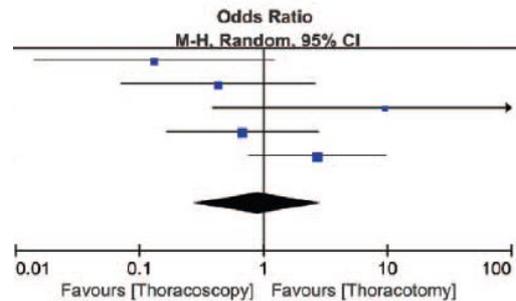
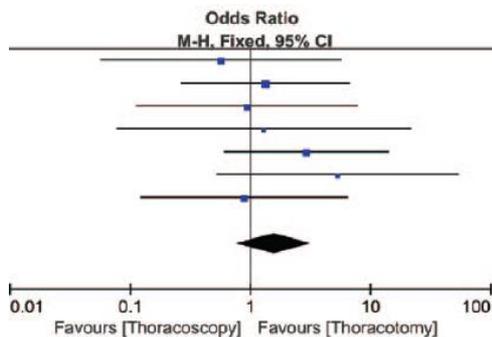
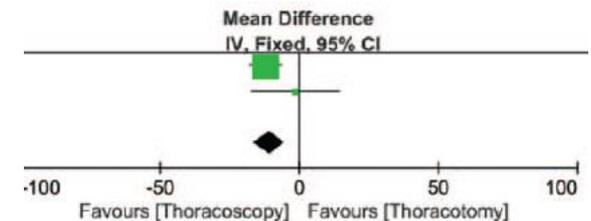
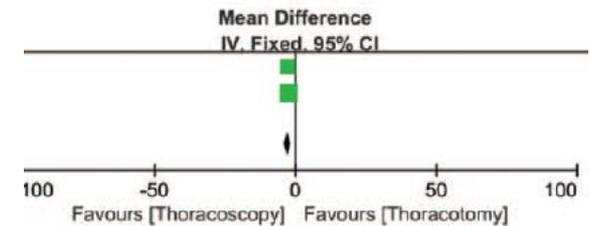
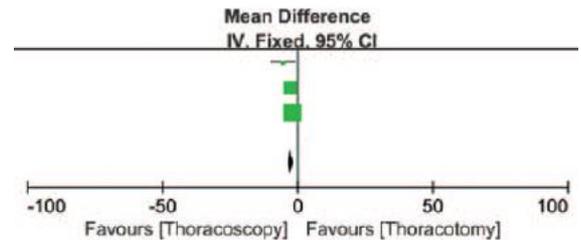
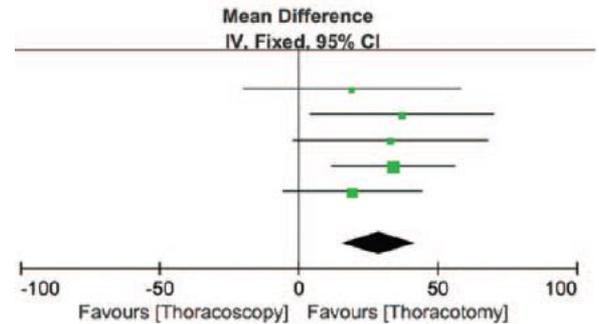


Contexte

Temps opératoire + long

Durée intubation, début
alimentation, temps
hospitalisation + courts

Taux de fistules et de
sténoses identiques



Contexte

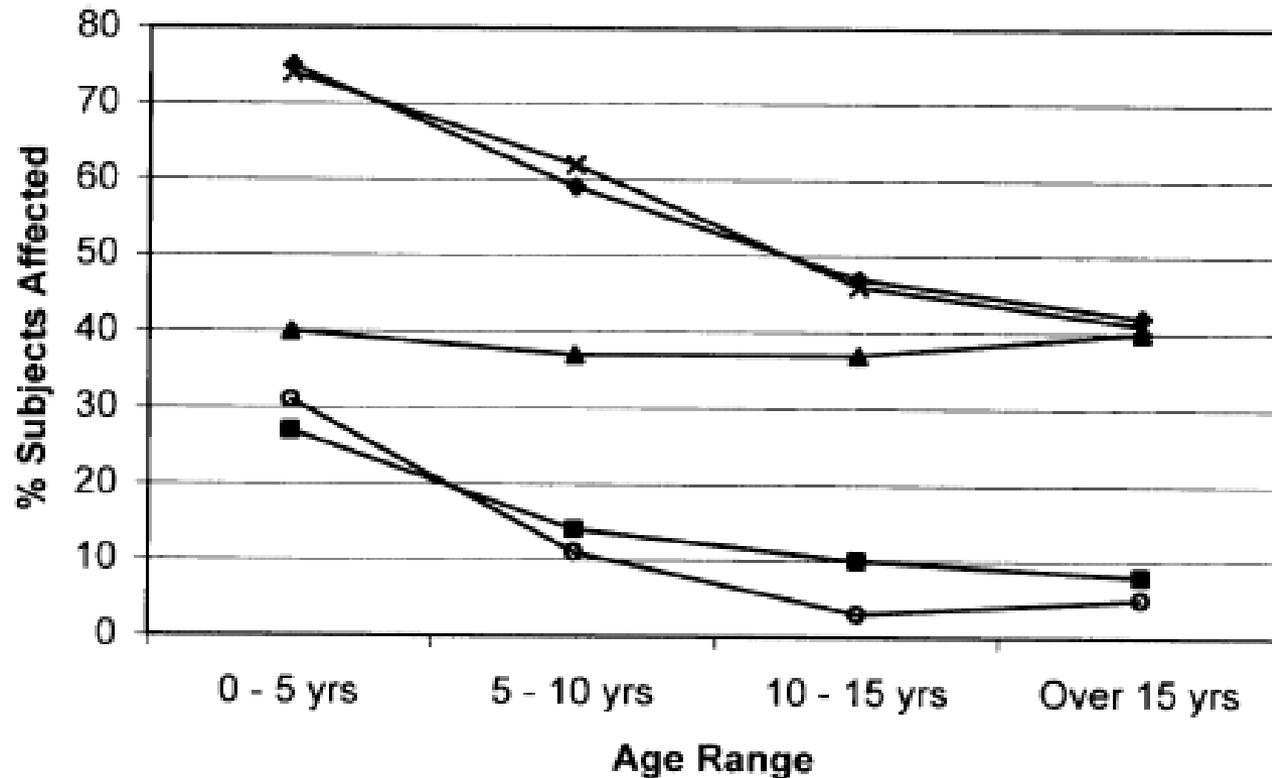


FIGURE 2. Prevalence of bronchitis (x), brassy cough (◆), wheezing (▲), chronic cough (■), and pneumonia (○) over time (adapted from Chetcuti and Phelan³⁹).

Contexte

Table 2—Mean Values for Spirometry and Lung Volumes for Adults With a History of EA/TEF*

Source	Subjects, No.	Mean Age, yr	Mean			
			FVC	FEV ₁	FEV ₁ /FVC	TLC RV
Billr et al ²⁸	12	26		78	82	99
Chetcuti et al ²⁷	107	25	91	85		84 135

*Data are presented as % predicted unless otherwise indicated.



Several groups have indicated the proportion of patients with recognized patterns of ventilatory abnormalities. Restrictive ventilatory defects are present in 20 to 49% of patients, obstructive defects are present in 12 to 54%, mixed restrictive-obstructive defects are present in 0 to 11%, and normal lung function is present in 23 to 48% of patients.^{24,61,62} In

Contexte

Table 8 Pulmonary function, bronchial hyperresponsiveness, exhaled nitric oxide, and skin prick test among adults with repaired esophageal atresia (*n* = 101)

Variable	Result mean (range)	Abnormal (%)	Grade mild (%)	Moderate (%)	Severe
Age (years)	36 (21–57)				
Body mass index (kg/m ²)	24 (21–45)				
Spirometry					
FVC % of predicted	77 (53–120)	57	28	28	1
FEV1% of FVC predicted	100 (72–119)	57	25	29	3
Restriction		21	18	3	0
Obstruction		21	15	4	2
Both restriction and obstruction		36	10	25	1
Histamine challenge test					
PD15FEV1 (mg)	0.65 (0.03–1.60)	41	26	11	4
PD15FEV <0.4 mg		15	–	–	–
Exhaled NO elevated		11	7	4	0
Skin prick test positive		37	15	–	22

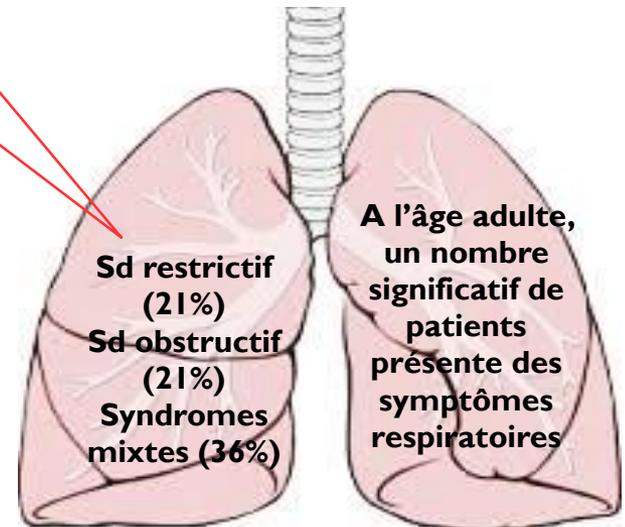
FVC forced vital capacity, *FEV1* forced exhaled volume in 1 sec, *NO* nitric oxide, *PD15FEV1* provocative dose of histamine causing a 15% fall in FEV1, *restriction* = FVC <80% = Z score <–2.0, *obstruction* = FEV1/FVC <87% = Z score <–2.0

Contexte

Table 8 Pulmonary function, bronchial hyperresponsiveness, exhaled nitric oxide, and skin prick test among adults with repaired esophageal atresia ($n = 101$)

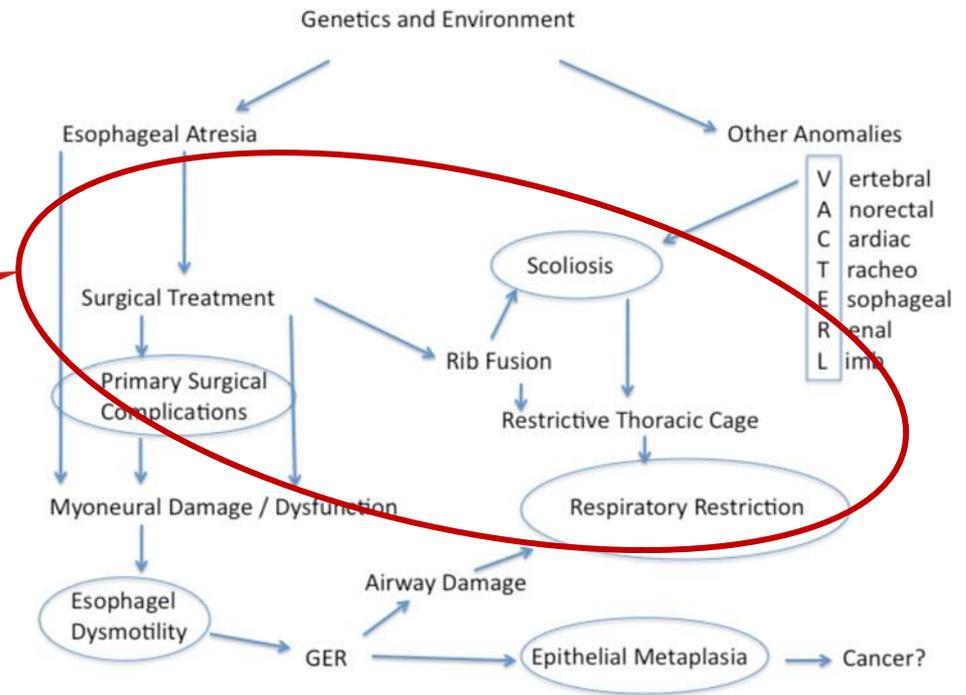
Variable	Result mean (range)	Abnormal (%)	Grade mild (%)	Moderate (%)	Severe
Age (years)	36 (21–57)				
Body mass index (kg/m ²)	24 (21–45)				
Spirometry					
FVC % of predicted	77 (53–120)	57	28	28	1
FEV1% of FVC predicted	100 (72–119)	57	25	29	3
Restriction		21	18	3	0
Obstruction		21	15	4	2
Both restriction and obstruction		36	10	25	1
Histamine challenge test					
PD15FEV1 (mg)	0.65 (0.03–1.60)	41	26	11	4
PD15FEV <0.4 mg		15	–	–	–
Exhaled NO elevated		11	7	4	0
Skin prick test positive		37	15	–	22

FVC forced vital capacity, FEV1 forced exhaled volume in 1 sec, NO nitric oxide, PD15FEV1 provocative dose of histamine causing a 15% fall in FEV1, restriction = FVC <80% = Z score <−2.0, obstruction = FEV1/FVC <87% = Z score <−2.0



Contexte

Lien entre
séquelles de
thoracotomies
et Sd restrictif



Contexte

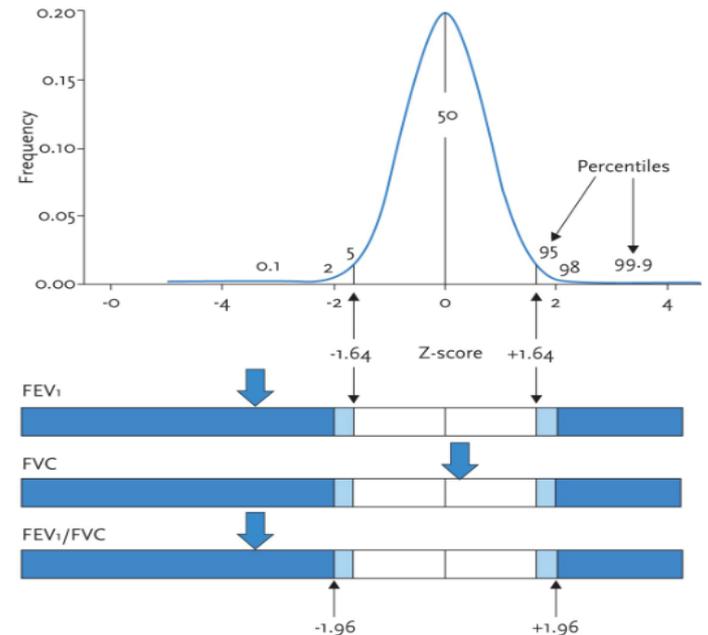
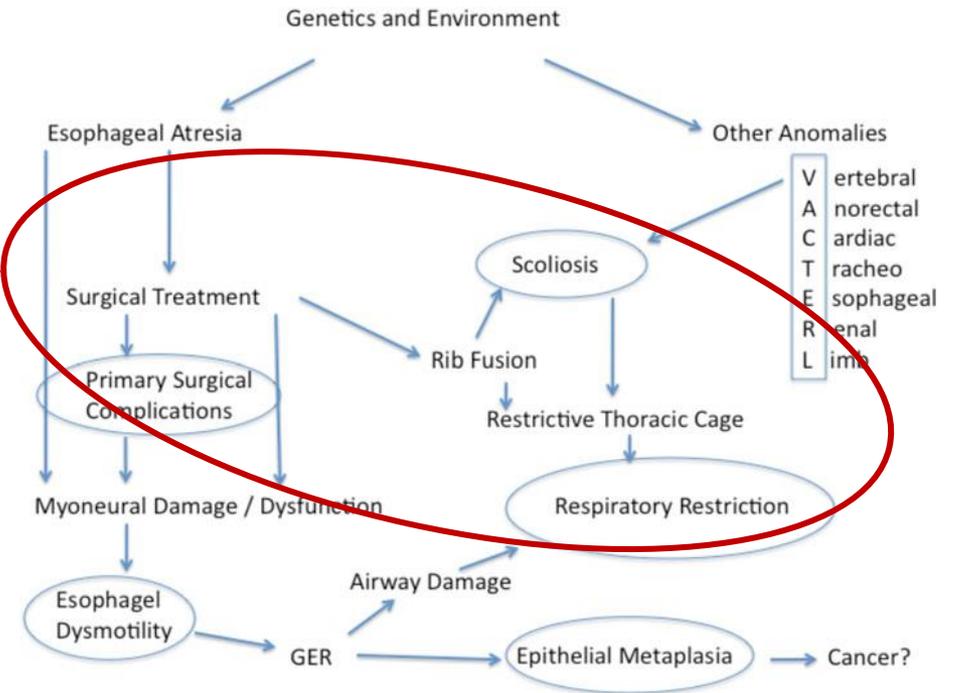
Lien entre séquelles de thoracotomies et Sd restrictif



Z-Score

MULTI-ETHNIC REFERENCE VALUES FOR SPIROMETRY FOR THE 3–95 YEAR AGE RANGE: THE GLOBAL LUNG FUNCTION 2012 EQUATIONS:

Eur Respir J. 2012 December ; 40(6): 1324–1343
 Report of the Global Lung Function Initiative (GLI), ERS Task Force to establish improved Lung Function Reference Values





Objectifs de l'étude

Objectif principal

Evaluer l'existence d'un syndrome restrictif pulmonaire chez les patients porteurs d'une atrésie de l'œsophage en fonction du type de voie d'abord chirurgicale réalisée (conventionnelle ou mini-invasive).

Objectifs secondaires

- ✓ Quantifier l'importance de ce syndrome restrictif,
- ✓ Rechercher d'autres altérations respiratoires,
- ✓ Corréler les anomalies squelettiques thoraciques retrouvées sur les radiographies thoraciques avec le retentissement pulmonaire,
- ✓ Rechercher l'existence d'un lien de cause à effet avec la technique chirurgicale utilisée



Population de l'étude

Critères d'inclusion

Patients inclus dans le registre CRACMO

Nés entre le 01/01/2008 et le 31/12/2012

Ayant eu une atrésie de type III

Nombre de patients attendus : 450

Critères d'exclusion

Patients perdus de vue ou décédés

Patients n'ayant eu aucune exploration fonctionnelle respiratoire (EFR) et aucune radiographie thoracique au cours des 6 à 9 premières années de suivi

Patients ayant eu une intervention thoracique ultérieure à celle de la cure initiale de l'atrésie de l'œsophage



Critère de jugement principal

Existence d'un syndrome restrictif

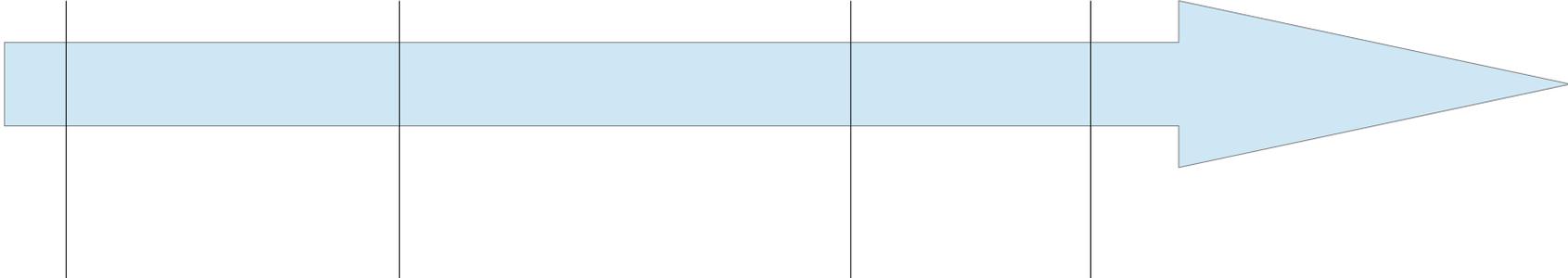
- Données spirométriques : $VEMS/CVF > -1.64$ Z-score et $CVF < -1.64$ Z-score
- Selon les recommandations de l'ATS/ERS-GLI (American Thoracic Society & European Respiratory Society - Global Lungs Initiative) publiées en 2012 (Quanjer et al., 2012)
- En fonction de la voie d'abord chirurgicale, classique ou mini-invasive



Critères de jugement secondaires

- Le taux de mortalité.
- Le taux de complications postopératoires et la ou les ré-interventions nécessaires.
- L'analyse des autres paramètres respiratoires (capacité vitale forcée, DEM 25-75, rapport de Tiffeneau, réversibilité), permettant de mettre en évidence des syndromes obstructifs ou mixtes ($VEMS/CVF < -1.64$ et $CVF < -1.64$ z-score) associés.
- La recherche d'anomalies pariétales rachidiennes et costales postopératoires sur radiographie thoracique.
- La recherche d'une corrélation entre anomalies pariétales et syndrome restrictif.
- L'évaluation et la comparaison de ces différents paramètres en sous-groupes de thoracotomies (avec ou sans épargne musculaire, voie d'abord axillaire) et thoracoscopie.

Calendrier de l'étude



Printemps 2019

- Annonce de l'étude au niveau national (journée annuelle FIMATHO / CRACMO).
- Information des centres participant par mailing-list

Eté 2019-Hiver 2020

Recueil des données dans les centres de compétence des AO par les investigateurs.

Printemps 2020

Exploitation et analyse des données

Eté 2020

Communication et publication des résultats



Perspectives de l'étude

- Déterminer si la chirurgie mini-invasive apporte une amélioration de la fonction respiratoire à moyen terme chez l'enfant, en lien avec de possibles séquelles pariétales postopératoires.
- Proposer des recommandations sur les voies d'abord des cures d'AO pour améliorer le pronostic pariétal et fonctionnel respiratoire de ces patients
- Définir l'existence de sous-groupes de patients pour lesquels un suivi pneumologique particulier pourrait être utile.
- Déboucher sur la mise en place d'un PHRC.

RestriMIS - Investigateurs angevins

Pneumologues pédiatres



Pr G Podevin
Dr F Troussier
Dr F Schmitt
Dr F Bastard
J Goulin
(interne DESC chirurgie)
T Brigly
(interne DES pédiatrie)

Chirurgiens pédiatres



Avec le soutien de

