

CASE REPORT



Anastomotic Strictures Following Surgical Repair of Esophageal Atresia: A Report of Two Cases and a Brief Literature Review

Nada BOUTRID^{1,2}, Hakim RAHMOUNE^{1,3}, Malika MIMOUNE^{1,4}, Zineddine SOUALILI^{1,4}

1. Faculté de Médecine, Université Sétif-1, Algérie
2. Pédiatrie, EHS El Eulma, Algérie
3. Pédiatrie, CHU Sétif, Algérie
4. Chirurgie Pédiatrique, CHU Sétif, Algérie

ABSTRACT

Anastomotic strictures are a common complication following surgical repair of esophageal atresia, occurring in 8-60% of cases. These strictures can cause food impaction and often require repeated esophageal dilations for management. We present two contrasting cases that highlight the importance of individualized treatment: The first case involves a refractory stricture that failed to respond to multiple sessions of pneumatic dilation and ultimately required surgical esophageal plasty. The second case describes a patient with a tight anastomotic stricture that surprisingly remained asymptomatic, with no dysphagia or reflux symptoms, and had a favorable outcome over a 3-year follow-up period without the need for re-intervention.

ARTICLE HISTORY

Received 03 Feb 2024
Accepted 08 Apr 2024

KEYWORDS

Esophageal atresia, Stenoses, Surgery, Child

CORRESPONDING AUTHOR

Hakim RAHMOUNE
rahmounehakim@gmail.com

1. INTRODUCTION

Les sténoses de l'œsophage constituent une affection relativement fréquente, de gravité variable, le plus souvent secondaire à une lésion acquise de l'œsophage. Les causes post-opératoires sont particulières de par leur devenir et leur survenue sur un terrain parfois multi-taré, notamment les sténoses anastomotiques après œsophagoplastie sur atrésie de l'œsophage (AO).

Une revue des dossiers du service de chirurgie pédiatrique a objectivé deux cas de sténoses post-atrésie de l'œsophage au devenir diamétralement opposé, démontrant ainsi le besoin d'une prise en charge prolongée et personnalisée.

2. OBSERVATION 1

Garçon présentant une atrésie de l'œsophage de type III opéré à J5 de vie et diagnostiqué avec sténose serrée du tiers inférieur

de l'œsophage dès le 1er mois avec dysphagie et retentissement nutritionnel et pondéral (stagnation).

Après 3 ans de suivi, plus de 11 séances de dilatations pneumatiques, la sténose reste radiologiquement serrée, endoscopiquement infranchissable; l'enfant est programmé pour la plastie œsophagienne avec greffe colique.

3. OBSERVATION 2

Enfant présentant une atrésie de l'œsophage de type III isolée non-syndromique et diagnostiqué avec sténose serrée du 1/3 inférieur de l'œsophage au 3e mois post-opératoire (Figure 1); avec un aspect endoscopique d'un rétrécissement anastomotique punctiforme, inaccessible aux dilatations, contrastant avec l'absence de dysphagie lors de l'allaitement ou de reflux associé, et sans retentissement nutritionnel.



Figure 1. aspect radiologique de la sténose anastomotique à 3 mois

Un contrôle clinique trimestriel est effectué, puis un complément d'investigation est ordonné à 24 mois. Après 2 ans de suivi, la sténose reste radiologiquement patente avec une double sténose anastomotique à 15 cm des arcades dentaires franchissables à l'endoscopie. A 36 mois, l'amélioration est notable sur le plan endoscopique et radiologique.

4. DISCUSSION

Chez l'enfant, on distingue schématiquement les sténoses acquises et les sténoses congénitales de l'œsophage. Les sténoses acquises peuvent être:

- Sténoses caustiques, véritable problème de santé publique.
- Sténoses peptiques, notamment par reflux gastro-œsophagien, fréquentes et le plus souvent bénignes et asymptomatiques.
- Sténoses par œsophagite à éosinophiles : nouveau « mal moderne », l'œsophagite à éosinophiles est une source de plus en plus reconnue de sténoses ; les dernières recommandations internationales ESPGHAN/ NASPGHAN de 2014 (1) proposent d'ailleurs – a contrario des autres causes de sténoses- une prise en charge médicale intensive avant de tenter les classiques séances de dilatations œsophagiennes.

Une récente revue systématique avec méta-analyse en 2017 a tout de même conclu à l'efficacité et l'innocuité des dilatations, que ce soit par bougies ou par ballonnet (2).

- Sténoses post-chirurgicales, notamment après chirurgie de l'atrésie de l'œsophage (AO):

L'AO est une malformation congénitale de l'œsophage qui réalise une solution de continuité entre les culs-de-sac œsophagiens supérieur et inférieur, associée le plus souvent à une communication entre un cul-de-sac œsophagien, ou les 2 et l'arbre trachéo-bronchique (3).

La fréquence de la sténose anastomotique varie selon les études de 8 à 60%, grandement favorisée par un reflux gastro-œsophagien fréquemment associé (4,5). La manifestation clinique la plus typique est alors le blocage alimentaire, plus fréquemment observée chez l'enfant plus grand, qui mange des morceaux, après diversification alimentaire : l'AO représente 25% des causes de blocage alimentaire chez l'enfant (6). Des dilatations œsophagiennes sont alors nécessaires et peuvent se réaliser à la bougie ou au ballonnet sous contrôle endoscopique (7). Le nombre et la fréquence des dilatations dépendent du caractère serré ou non de la sténose, du délai et de l'efficacité de la dilatation précédente. La perforation œsophagienne est la complication la plus grave de la dilatation instrumentale de l'œsophage ; sa fréquence varie de 1 à 2% des dilatations. Le syndrome hémorragique par lésion de la muqueuse œsophagienne est fréquent et généralement d'évolution favorable. Une bactériémie est fréquemment notée au décours des séances de dilatation et justifie une antibioprophylaxie chez les patients à risque d'endocardite. Quel que soit le mode de dilatation, une surveillance de l'enfant en milieu hospitalier pour une durée de 24h suivant la dilatation est indispensable (8,9).

La récurrence de la sténose œsophagienne après dilatation est fréquente. Plusieurs techniques ont été proposées pour éviter cette récurrence, mais elles ne sont pas couramment pratiquées chez l'enfant, qu'il s'agisse de mise en place de stents ou prothèses œsophagiennes, d'infiltrations intra-lésionnelles de corticoïdes ou de tamponnement de mitomycine C (8). Des algorithmes décisionnels sont proposés par les experts pour le suivi de ces AO (7,9).

Parmi les études algériennes publiées, nous rapportons les données monocentriques et publiées d'Oumnia et al. relatives à 25 dilatations chez des nourrissons recrutés sur une période de 07 puis de 10 ans : 76% de réussite et seulement 8% de recours à la chirurgie (10,11). Dans ces travaux, la dilatation est mécanique par bougies de Savary. Cette méthode, tout comme les dilatations pneumatiques, ayant prouvé autant son efficacité que sa sécurité d'usage (12-14).

Les dilatations sont habituellement entamées après élimination d'une fistule œso-trachéale, permettant ainsi –le cas échéant- de réorienter le patient en chirurgie pédiatrique.

Par ailleurs, le risque de sténoses réfractaires a été évalué en sur une période 15 ans par une équipe néerlandaise et récemment publié aux Archives of Diseases in Childhood.(15). Il y est estimé à 7% (proche des données sus-citées d'Oumnia) et ses 3 facteurs de risque étaient : l'atrésie isolée, les fuites anastomotiques et le recours aux dilatations moins d'un mois après chirurgie. D'autres auteurs rapportent des facteurs de risques plus nombreux de sténoses (réfractaires ou non), classés en facteurs pré-, per-, et post-opératoires. (12). Ceci paraît opportun au vu de la fréquence élevée de ces sténoses et de l'absence de facteur prédictif négatif à sensibilité et spécificité suffisantes.

L'apport de la prescription des Inhibiteurs de la pompe à protons (IPP) est également important à citer et se doit d'être individualisée. Si les recommandations internationales suggèrent une prescription systématique préventive d'au moins 1 année (3,5), les dernières données publiées au JPGN en 2019 (portant sur une cohorte britannique de 73 enfants atrésiques sous IPP versus 134 enfants atrésiques suivis avant l'ère des IPP) démontrent que les IPP ne préviennent pas les sténoses et leur prescription paraît plus liée à la présence de trachéomalacie associée. Les auteurs suggèrent donc, eux aussi, une prescription personnalisée des IPP (16).

Une mise-à-jour des recommandations des sociétés internationales ESPGHAN - NASPGHAN sur l'atrésie de l'œsophage ainsi que d'éventuelles méta-analyses avec revues systématiques pourraient contribuer à établir une indication précise des IPP.

Les traitements adjuvants associés aux dilatations (notamment les corticoïdes topiques ou systémiques, mitomycine, triamcinolone intra-lésionnelle, stents ou endoprothèses) ont une fortune diversement appréciée dans la littérature (3, 5, 8) et n'ont pas été utilisés pour nos patients.

Enfin, notons la nécessité d'un registre national algérien des malformations congénitales de l'œsophage et d'une prise en charge codifiée par des équipes multidisciplinaires (3, 5). L'intérêt de plus amples études nationales, multicentriques, rétrospectives et surtout prospectives, et le partage des résultats et expériences est primordial.

5. CONCLUSION

La fréquence de la sténose anastomotique après atrésie de l'œsophage varie selon les études de 8 à 60 % et se manifeste par

un blocage alimentaire. Des dilatations œsophagiennes sont souvent nécessaires et peuvent se réaliser à la bougie ou au ballonnet, sous contrôle endoscopique. L'intérêt de plus amples études nationales multicentriques, rétrospectives et surtout prospectives, est primordial.

Déclaration d'intérêts : Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêt en rapport avec cet article.

Remerciements : Les auteurs 1 et 2 sont membres du laboratoire de recherche LIRSEI (LMCVGN), soutenu par la Direction Générale de la Recherche Scientifique et du Développement Technologique (DGRSDT), MESRS, Algérie.

REFERENCES

- 1- Papadopoulou A, Koletzko S, Heuschkel R, Dias JA, Allen KJ, Murch SH, Chong S, Gottrand F, Husby S, Lionetti P, Mearin ML. Management guidelines of eosinophilic esophagitis in childhood. *Journal of pediatric gastroenterology and nutrition*. 2014 Jan 1;58(1):107-18.
- 2- Dougherty M, Runge TM, Eluri S, Dellon ES. Esophageal dilation with either bougie or balloon technique as a treatment for eosinophilic esophagitis: a systematic review and meta-analysis. *Gastrointestinal endoscopy*. 2017 Oct 1;86(4):581-91.
- 3- Protocole National de Diagnostic et de Soins Atrésie de l'œsophage. Décembre 2018. Centre de Référence des Affections Chroniques et Malformatives de l'œsophage. Disponible sur : https://www.has-sante.fr/portail/upload/docs/application/pdf/2017-03/dir3/pnds_18_-_atresie_de_loesophage_-_synthese_a_destination_du_medecin_traitant.pdf
- 4- Michaud L, Guimber D, Sfeir R, et al. Sténose anastomotique après traitement chirurgical de l'atrésie de l'oesophage : fréquence, facteurs de risque et efficacité des dilatations œsophagiennes. *Arch Pediatr* 2001;8:268–74
- 5- Krishnan U, Mousa H, Dall'Oglio L, Homaira N, Rosen R, Faure C, Gottrand F. ESPGHAN-NASPGHAN guidelines for the evaluation and treatment of gastrointestinal and nutritional complications in children with esophageal atresia-tracheoesophageal fistula. *Journal of pediatric gastroenterology and nutrition*. 2016 Nov 1;63(5):550-70.
- 6- Diniz LO, Towbin AJ. Causes of esophageal food bolus impaction in the pediatric population. *Dig Dis Sci* 2012;57:690–3
- 7- Michaud L, Gottrand F. Anastomotic strictures: conservative treatment. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2011;52(Suppl. 1):18–9.
- 8- Gottrand F, Sfeir R, Thumerelle C, Gottrand L, Fayoux P, Storme L, Lamblin MD, Seguy D, Michaud L. Devenir à moyen et long terme des enfants atteints d'atrésie de l'œsophage. *Archives de pédiatrie*. 2012 Sep 1;19(9):932-8.
- 9- Manfredi MA. Endoscopic management of anastomotic esophageal strictures secondary to esophageal atresia. *Gastrointestinal Endoscopy Clinics*. 2016 Jan 1;26(1):201-19.
- 10- Oumnia N, Lahcene M, Tebaibia A, Matougui N, Boudjella MA, Touchene B. Apport de la dilatation instrumentale au cours de l'atrésie de l'œsophage opérée : à propos de 19 cas. *Endoscopy*. 2008 Mar;40(03):P242.
- 11- Oumnia N, Lahcene M, Tebaibia A, Matougui N, Boudjella MA, Touchene B. Dilatation instrumentale au cours des sténoses anastomotiques post atrésies

- de l'œsophage opérées: à propos de 25 cas. *Endoscopy*. 2011 Mar;43(03):P_131.
- 12- Tambucci R, Angelino G, De Angelis P, Torroni F, Caldaro T, Balassone V, Contini AC, Romeo E, Rea F, Faraci S, Federici di Abriola G. Anastomotic strictures after esophageal atresia repair: incidence, investigations, and management, including treatment of refractory and recurrent strictures. *Frontiers in Pediatrics*. 2017 May 29;5:120.
- 13- Thyoka M, Timmis A, Mhango T, Roebuck DJ. Balloon dilatation of anastomotic strictures secondary to surgical repair of oesophageal atresia: a systematic review. *Pediatric radiology*. 2013 Aug 1;43(8):898-901.
- 14- Raitio A, Cresner R, Smith R, Jones MO, Losty PD. Fluoroscopic balloon dilatation for anastomotic strictures in patients with esophageal atresia: A fifteen-year single centre UK experience. *Journal of pediatric surgery*. 2016 Sep 1;51(9):1426-8.
- 15- Vergouwe FW, Vlot J, IJsselstijn H, Spaander MC, van Rosmalen J, Oomen MW, Hulscher JB, Dirix M, Bruno MJ, Schurink M, Wijnen RM. Risk factors for refractory anastomotic strictures after oesophageal atresia repair: a multicentre study. *Archives of disease in childhood*. 2019 Feb 1;104(2):152-7.
- 16- Grunder FR, Petit LM, Ezri J, Jantchou P, Aspirot A, Laberge S, Faure C. Should Proton Pump Inhibitors be Systematically Prescribed in Patients with Esophageal Atresia After Surgical Repair?. *Journal of pediatric gastroenterology and nutrition*. 2019 Jul 1;69(1):45-51.