

Année 2020-2021

N°

Thèse
Pour le
DOCTORAT EN MEDECINE
Diplôme d'État
par
Yasmine BOUMGHIT
Née le 01/03/1993 à Angers (49)

Sténose sous-glottique idiopathique, étude rétrospective multicentrique

Présentée et soutenue publiquement le 24/09/2021 devant un jury composé de :

Président du Jury : Professeur Emmanuel LESCANNE, Oto-rhino-laryngologie, Faculté de Médecine - Tours

Membres du Jury :

Professeur Olivier MALARD, Oto-rhino-laryngologie, Faculté de Médecine - Nantes

Docteur Soizick PONDAVEN, Oto-rhino-laryngologie, PH, CHU - Tours

Docteur Myriam AMMI, Chirurgie vasculaire et thoracique, PH, CHU - Angers

Directeur de thèse : Professeur Sylvain MORINIÈRE, Oto-rhino-laryngologie, Faculté de Médecine - Tours

UNIVERSITE DE TOURS
FACULTE DE MEDECINE DE TOURS

DOYEN

Pr Patrice DIOT

VICE-DOYEN

Pr Henri MARRET

ASSESEURS

Pr Denis ANGOULVANT, *P dagogie*

Pr Mathias BUCHLER, *Relations internationales*

Pr Theodora BEJAN-ANGOULVANT, *Moyens - relations avec l'Universit *

Pr Clarisse DIBAO-DINA, *M decine g n rale*

Pr Fran ois MAILLOT, *Formation M dicale Continue*

Pr Patrick VOURE'H, *Recherche*

RESPONSABLE ADMINISTRATIVE

Mme Fanny BOBLETER

DOYENS HONORAIRES

Pr Emile ARON (†) - 1962-1966

Directeur de l'Ecole de M decine - 1947-1962

Pr Georges DESBUQUOIS (†) - 1966-1972

Pr Andr  GOUAZE (†) - 1972-1994

Pr Jean-Claude ROLLAND - 1994-2004

Pr Dominique PERROTIN - 2004-2014

PROFESSEURS EMERITES

Pr Daniel ALISON

Pr Gilles BODY

Pr Jacques CHANDENIER

Pr Philippe COLOMBAT

Pr Etienne DANQUECHIN-DORVAL

Pr Pascal DUMONT

Pr Dominique GOGA

Pr G rard LORETTE

Pr Dominique PERROTIN

Pr Roland QUENTIN

PROFESSEURS HONORAIRES

P. ANTHONIOZ - P. ARBEILLE - A. AUDURIER - A. AUTRET - P. BAGROS - P. BARDOS - C. BARTHELEMY - J.L. BAULIEU - C. BERGER - JC. BESNARD - P. BEUTTER - C. BONNARD - P. BONNET - P. BOUGNOUX - P. BURDIN - L. CASTELLANI - A. CHANTEPIE - B. CHARBONNIER - P. CHOUTET - T. CONSTANS - P. COSNAY - C. COUET - L. DE LA LANDE DE CALAN - J.P. FAUCHIER - F. FETISSOF - J. FUSCIARDI - P. GAILLARD - G. GINIES - A. GOUDEAU - J.L. GUILMOT - O. HAILLOT - N. HUTEN - M. JAN - J.P. LAMAGNERE - F. LAMISSE - Y. LANSON - O. LE FLOCH - Y. LEBRANCHU - E. LECA - P. LECOMTE - AM. LEHR-DRYLEWICZ - E. LEMARIE - G. LEROY - M. MARCHAND - C. MAURAGE - C. MERCIER - J. MOLINE - C. MORAIN - J.P. MUH - J. MURAT - H. NIVET - L. POURCELOT - P. RAYNAUD - D. RICHARD-LENOBLE - A. ROBIER - J.C. ROLLAND - D. ROYERE - A. SAINDELLE - E. SALIBA - J.J. SANTINI - D. SAUVAGE - D. SIRINELLI - J. WEILL

PROFESSEURS DES UNIVERSITES - PRATICIENS HOSPITALIERS

ANDRES Christian	Biochimie et biologie moléculaire
ANGOULVANT Denis.....	Cardiologie
APETOH Lionel.....	Immunologie
AUPART Michel.....	Chirurgie thoracique et cardiovasculaire
BABUTY Dominique	Cardiologie
BAKHOS David.....	Oto-rhino-laryngologie
BALLON Nicolas	Psychiatrie ; addictologie
BARILLOT Isabelle.....	Cancérologie ; radiothérapie
BARON Christophe	Immunologie
BEJAN-ANGOULVANT Théodora.....	Pharmacologie clinique
BERHOUEZ Julien.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
BERNARD Anne.....	Cardiologie
BERNARD Louis	Maladies infectieuses et maladies tropicales
BLANCHARD-LAUMONNIER Emmanuelle.....	Biologie cellulaire
BLASCO Hélène.....	Biochimie et biologie moléculaire
BONNET-BRILHAULT Frédérique.....	Physiologie
BOURGUIGNON Thierry.....	Chirurgie thoracique et cardiovasculaire
BRILHAULT Jean.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
BRUNEREAU Laurent.....	Radiologie et imagerie médicale
BRUYERE Franck.....	Urologie
BUCHLER Matthias	Néphrologie
CALAIS Gilles.....	Cancérologie, radiothérapie
CAMUS Vincent	Psychiatrie d'adultes
CORCIA Philippe	Neurologie
COTTIER Jean-Philippe.....	Radiologie et imagerie médicale
DEQUIN Pierre-François	Thérapeutique
DESOUBEAUX Guillaume	Parasitologie et mycologie
DESTRIEUX Christophe	Anatomie
DIOT Patrice.....	Pneumologie
DU BOUEXIC de PINIEUX Gonzague	Anatomie & cytologie pathologiques
DUCLUZEAU Pierre-Henri	Endocrinologie, diabétologie, et nutrition
EL HAGE Wissam	Psychiatrie adultes
EHRMANN Stephan	Médecine intensive - réanimation
FAUCHIER Laurent	Cardiologie
FAVARD Luc	Chirurgie orthopédique et traumatologique
FOUGERE Bertrand.....	Gériatrie
FOUQUET Bernard.....	Médecine physique et de réadaptation
FRANCOIS Patrick	Neurochirurgie
FROMONT-HANKARD Gaëlle	Anatomie & cytologie pathologiques
GATAULT Philippe	Néphrologie
GAUDY-GRAFFIN Catherine.....	Bactériologie-virologie, hygiène hospitalière
GOUPILLE Philippe	Rhumatologie
GRUEL Yves.....	Hématologie, transfusion
GUERIF Fabrice	Biologie et médecine du développement et de la reproduction
GUILLON Antoine	Médecine intensive - réanimation
GUYETANT Serge	Anatomie et cytologie pathologiques
GYAN Emmanuel.....	Hématologie, transfusion
HALIMI Jean-Michel	Thérapeutique
HANKARD Régis	Pédiatrie
HERAULT Olivier	Hématologie, transfusion
HERBRETEAU Denis	Radiologie et imagerie médicale
HOURIOUX Christophe	Biologie cellulaire
IVANES Fabrice	Physiologie
LABARTHE François	Pédiatrie
LAFFON Marc.....	Anesthésiologie et réanimation chirurgicale, médecine d'urgence
LARDY Hubert.....	Chirurgie infantile
LARIBI Saïd	Médecine d'urgence
LARTIGUE Marie-Frédérique	Bactériologie-virologie
LAURE Boris	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
LECOMTE Thierry.....	Gastroentérologie, hépatologie
LESCANNE Emmanuel.....	Oto-rhino-laryngologie
LINASSIER Claude	Cancérologie, radiothérapie
MACHET Laurent.....	Dermato-vénéréologie
MAILLOT François	Médecine interne
MARCHAND-ADAM Sylvain	Pneumologie

MARRET Henri.....	Gynécologie-obstétrique
MARUANI Annabel	Dermatologie-vénérologie
MEREGHETTI Laurent.....	Bactériologie-virologie ; hygiène hospitalière
MITANCHEZ Delphine	Pédiatrie
MORINIERE Sylvain	Oto-rhino-laryngologie
MOUSSATA Driffa	Gastro-entérologie
MULLEMAN Denis	Rhumatologie
ODENT Thierry	Chirurgie infantile
OUAISSI Mehdi	Chirurgie digestive
OULDAMER Lobna	Gynécologie-obstétrique
PAINTAUD Gilles	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
PATAT Frédéric	Biophysique et médecine nucléaire
PERROTIN Franck.....	Gynécologie-obstétrique
PISELLA Pierre-Jean	Ophthalmologie
PLANTIER Laurent	Physiologie
REMERAND Francis	Anesthésiologie et réanimation, médecine d'urgence
ROINGEARD Philippe.....	Biologie cellulaire
ROSSET Philippe	Chirurgie orthopédique et traumatologique
RUSCH Emmanuel.....	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
SAINT-MARTIN Pauline.....	Médecine légale et droit de la santé
SALAME Ephrem	Chirurgie digestive
SAMIMI Mahtab.....	Dermatologie-vénérologie
SANTIAGO-RIBEIRO Maria	Biophysique et médecine nucléaire
THOMAS-CASTELNAU Pierre	Pédiatrie
TOUTAIN Annick	Génétique
VAILLANT Loïc	Dermato-vénérologie
VELUT Stéphane.....	Anatomie
VOURC'H Patrick	Biochimie et biologie moléculaire
WATIER Hervé.....	Immunologie
ZEMMOURA Ilyess	Neurochirurgie

PROFESSEUR DES UNIVERSITES DE MEDECINE GENERALE

DIBAO-DINA Clarisse LEBEAU
Jean-Pierre

PROFESSEURS ASSOCIES

MALLET Donatien..... Soins palliatifs
POTIER Alain

Médecine Générale
ROBERT Jean..... Médecine Générale

PROFESSEUR CERTIFIE DU 2ND DEGRE

MC CARTHY Catherine..... Anglais

MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES - PRATICIENS HOSPITALIERS

AUDEMARD-VERGER Alexandra

Médecine interne

BARBIER Louise

Chirurgie digestive

BINET Aurélien.....

Chirurgie infantile

BISSON Arnaud.....

Cardiologie (CHRO)

BRUNAUT Paul.....

Psychiatrie d'adultes, addictologie

CAILLE Agnès.....

Biostat., informatique médical et technologies de communication

CARVAJAL-ALLEGRIA Guillermo

Rhumatologie (au 01/10/2021)

CLEMENTY Nicolas

Cardiologie

DENIS Frédéric.....

Odontologie

DOMELIER Anne-Sophie

Bactériologie-virologie, hygiène hospitalière

DUFOUR Diane

Biophysique et médecine nucléaire

ELKRIEF Laure

Hépatologie - gastroentérologie

FAVRAIS Géraldine

Pédiatrie

FOUQUET-BERGEMER Anne-Marie

Anatomie et cytologie pathologiques

GOUILLEUX Valérie.....

Immunologie

GUILLON-GRAMMATICO Leslie

Epidémiologie, économie de la santé et prévention

HOARAU Cyrille	Immunologie
LE GUELLEC Chantal.....	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
LEFORT Bruno.....	Pédiatrie
LEGRAS Antoine	Chirurgie thoracique
LEMAIGNEN Adrien	Maladies infectieuses
MACHET Marie-Christine	Anatomie et cytologie pathologiques
MOREL Baptiste.....	Radiologie pédiatrique
PARE Arnaud	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
PIVER Éric	Biochimie et biologie moléculaire
REROLLE Camille	Médecine légale
ROUMY Jérôme	Biophysique et médecine nucléaire
SAUTENET Bénédicte	Thérapeutique
STANDLEY-MIQUELESTORENA Elodie	Anatomie et cytologie pathologiques
STEFIC Karl	Bactériologie
TERNANT David	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
VUILLAUME-WINTER Marie-Laure.....	Génétique

MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES

AGUILLON-HERNANDEZ Nadia.....	Neurosciences
NICOGLOU Antonine	Philosophie - histoire des sciences et des techniques
PATIENT Romuald	Biologie cellulaire
RENOUX-JACQUET Cécile	Médecine Générale

MAITRES DE CONFERENCES ASSOCIES

BARBEAU Ludivine.....	Médecine Générale
ETTORI-AJASSE Isabelle.....	Médecine Générale
PAUTRAT Maxime.....	Médecine Générale
RUIZ Christophe	Médecine Générale
SAMKO Boris.....	Médecine Générale

CHERCHEURS INSERM - CNRS - INRAE

BECKER Jérôme	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
BOUAKAZ Ayache.....	Directeur de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
BRIARD Benoit	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1100
CHALON Sylvie	Directeur de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
DE ROCQUIGNY Hugues.....	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1259
ESCOFFRE Jean-Michel	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
GILOT Philippe.....	Chargé de Recherche Inrae - UMR Inrae 1282
GOUILLEUX Fabrice	Directeur de Recherche CNRS - EA 7501 - ERL CNRS 7001
GOMOT Marie	Chargée de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
HEUZE-VOURCH Nathalie.....	Directrice de Recherche Inserm - UMR Inserm 1100
KORKMAZ Brice	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1100
LATINUS Marianne.....	Chargée de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
LAUMONNIER Frédéric	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253
LE MERREUR Julie	Directrice de Recherche CNRS - UMR Inserm 1253
MAMMANO Fabrizio	Directeur de Recherche Inserm - UMR Inserm 1259
MEUNIER Jean-Christophe	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1259
PAGET Christophe	Chargé de Recherche Inserm - UMR Inserm 1100
RAOUL William.....	Chargé de Recherche Inserm - UMR CNRS 1069
SI TAHAR Mustapha	Directeur de Recherche Inserm - UMR Inserm 1100
SUREAU Camille	Directrice de Recherche émérite CNRS - UMR Inserm 1259
WARDAK Claire	Chargée de Recherche Inserm - UMR Inserm 1253

CHARGES D'ENSEIGNEMENT

Pour l'Ecole d'Orthophonie

DELORE Claire	Orthophoniste
GOUIN Jean-Marie.....	Praticien Hospitalier

Pour l'Ecole d'Orthoptie

BOULNOIS Sandrine	Orthoptiste
SALAME Najwa	Orthoptiste

Pour l'Ethique Médicale

BIRMELE Béatrice.....	Praticien Hospitalier
-----------------------	-----------------------

SERMENT D'HIPPOCRATE

En présence des Maîtres de cette Faculté,
de mes chers condisciples
et selon la tradition d'Hippocrate,
je promets et je jure d'être fidèle aux lois de l'honneur
et de la probité dans l'exercice de la Médecine.

Je donnerai mes soins gratuits à l'indigent,
et n'exigerai jamais un salaire au-dessus de mon travail.

Admis dans l'intérieur des maisons, mes yeux
ne verront pas ce qui s'y passe, ma langue taira
les secrets qui me seront confiés et mon état ne servira
pas à corrompre les mœurs ni à favoriser le crime.

Respectueux et reconnaissant envers mes Maîtres,
je rendrai à leurs enfants
l'instruction que j'ai reçue de leurs pères.

Que les hommes m'accordent leur estime
si je suis fidèle à mes promesses.
Que je sois couvert d'opprobre
et méprisé de mes confrères
si j'y manque.

RESUME

Introduction

La sténose sous-glottique idiopathique est une pathologie rare, affectant le plus souvent des femmes adultes caucasiennes. Les deux principaux traitements utilisés par voie endoscopique sont la dilatation seule (DS) ou la résection endoscopique (RE) par laser ou thermocoagulation. La récurrence de la sténose est fréquente et nécessite la réalisation de chirurgies répétées. L'objectif principal de cette étude était de comparer la durée d'efficacité du traitement chirurgical selon la technique réalisée (DS ou RE).

Matériel et méthode

Une étude rétrospective a été menée dans 5 centres de référence français. Seuls les patients suivis pour sténose sous-glottique idiopathique entre 2000 et 2020 ont été inclus. Les patients ayant eu une intubation moins de 2 ans avant la survenue des symptômes, des antécédents de trachéotomie ou qui se sont opposés à l'étude ont été exclus.

Pour l'analyse du critère de jugement principal, nous avons comparé la durée d'efficacité selon le type de geste réalisé: DS ou RE. Une analyse selon la technique de Kaplan-Meier puis un test de Log Rank ont été utilisés pour comparer les résultats entre nos deux groupes.

Résultats

49 patientes de sexe féminin ont été incluses. L'âge moyen de survenue des premiers signes cliniques était de 50.55 ans. 206 interventions pour prise en charge d'une sténose sous-glottique idiopathique symptomatique ont été réalisées : 132 DS, 36 RE dont 15 résections seules et 21 résections associées à une dilatation, et 38 autres gestes exclus de l'analyse du critère de jugement principal.

La durée d'efficacité moyenne était de 495.41 jours [51-4297] avec une médiane de 348 jours pour la DS et de 1096.10 jours [31-5735] avec une médiane de 497 jours pour la RE. Il existait une différence statistiquement significative entre les deux groupes ($p=0.01$).

Conclusion

La sténose sous-glottique idiopathique est une pathologie rare qui touche presque exclusivement la population féminine. Cette étude préconise de réaliser une RE pour augmenter la durée d'efficacité de la chirurgie endoscopique. De plus grands effectifs et une étude prospective seraient nécessaires pour confirmer ces résultats.

Mots clés : sténose sous-glottique idiopathique, dilatation, résection endoscopique.

ABSTRACT

Introduction

Idiopathic subglottic stenosis (ISS) is a rare disease, which affect almost exclusively Caucasian female adult. To treat this disease, there are two general endoscopic approaches : simple dilatation (SD) and endoscopic resection (ER) by laser or thermocoagulation. Stenosis recurrences are frequent and require several surgeries. This study aims to compare the efficiency of these two surgical technics (SD and RE) to treat the ISS.

Methods

A retrospective multicentric study in five French centers was conducted. Only patients treated for ISS between 2000 and 2020 were included. Patients were excluded if they had history of intubation less than two years before the beginning of the symptoms, history of tracheotomy or if they didn't want to participate to the study.

The primary end point was efficiency after surgery (SD or ER), defined by days between two surgical acts. A Kaplan-Meier analysis with a Log-Rank test were used to compare results between these two groups.

Results

49 female patients were included. The average age at the first symptoms was 50.55 years. This study included 206 interventions for symptomatic ISS: 132 SD, 36 ER of which 15 simple resection and 21 resections associated with dilatation, and 38 other technics who were excluded from the primary end point analysis.

For the DS group, the efficiency average time was 495.41 days [51-4297], median time of 348 days, whereas it was 1096.10 days [31-5735] for ER group, median time of 497 days. The difference was statistically significant between the two groups ($p=0.01$).

Conclusion

ISS is a rare disease who affects almost exclusively women. This study preconizes an ER to increase the efficiency time . A prospective study and larger patient groups would be needed to confirm of infirm our results.

Key words: idiopathic subglottic stenosis, dilatation, endoscopic resection.

TABLE DES MATIERES

Introduction	19
Matériel et Méthode	22
Résultats	25
Discussion	30
Conclusion	34
Références	35

INTRODUCTION

La sténose sous-glottique idiopathique est une pathologie rare décrite pour la première fois en 1972 par Brandenburg¹, dont l'incidence est estimée à 1/400000.^{2,3} Elle se caractérise par un rétrécissement progressif fibro-inflammatoire du larynx sous-glottique et des premiers anneaux trachéaux, dont aucune cause spécifique n'a été clairement identifiée et dont la physiopathologie est inconnue.⁴

Cette pathologie affecte le plus souvent des femmes adultes caucasiennes entre la 3^{ème} et la 5^{ème} décennie^{5,6}, et se manifeste typiquement par une dyspnée d'effort d'installation progressive avec un stridor ou un wheezing, une toux et parfois une dysphonie. Il existe souvent un retard diagnostique de plusieurs mois à plusieurs années.

Le diagnostic est posé après élimination des autres causes de sténoses sous-glottiques telles que les sténoses post intubation ou post traumatiques, les sténoses par brûlures caustiques, les sténoses post radiques, les sténoses dans le cadre de vascularites (granulomatose avec polyangéite, sarcoïdose, amylose, polychondrite, etc.), les sténoses infectieuses.

Le bilan comprend :

- une endoscopie, permettant d'évaluer l'étendue et la sévérité de la sténose (figure 1),
- un scanner cervico-thoracique,
- un dosage biologique des ANCA, afin d'éliminer une vascularite,
- des biopsies, qui mettent le plus souvent en évidence un tissu fibreux avec ou sans inflammation chronique.

La classification actuellement la plus utilisée pour décrire le degré de sténose est celle de Myer-Cotton, qui classe les sténoses en 4 grades selon le pourcentage de sténose (tableau 1).

La prise en charge est principalement chirurgicale, bien qu'un traitement médical soit souvent associé (corticoïdes per os ou inhalés, inhibiteurs de la pompe à protons, antibiotiques).

On retrouve trois principaux types de prises en charge chirurgicales.^{3,6,8}

- Les techniques endoscopiques,
- Les techniques de résection-anastomose,
- Les trachéotomies.

La prise en charge de ces sténoses doit mettre en balance deux objectifs: la durabilité et la minimisation des risques et des complications.^{9,10}

Les techniques endoscopiques sont divisées entre dilatations et résections. Les techniques de dilatations consistent à élargir le calibre trachéal à l'aide d'un bronchoscope rigide, d'un

ballonnet, ou de bougies. Les techniques de résection endoscopique consistent en une résection ou une destruction des tissus sténosés, par pulvérisation à l'aide d'une sonde laser ou d'une sonde monopolaire haute fréquence, en bronchoscopie rigide.

Ces techniques endoscopiques sont parfois associées, et peuvent être accompagnées d'injections intralésionnelles de corticoïdes ou de l'application de Mitomycine C, agent cytotoxique modulant la cicatrisation en agissant, quand il est utilisé à faible dose, comme un inhibiteur de prolifération des fibroblastes. Son utilisation, qui pourrait diminuer la fréquence des récurrences de sténose, reste controversée.¹¹⁻¹³. Les injections intralésionnelles de corticoïdes, qui agissent en ralentissant la synthèse et en favorisant la lyse du collagène au cours du processus de sténose, pourraient également ralentir la fréquence des récurrences de sténose.^{2,14}

Les techniques de résection-anastomose consistent en une résection de la zone sténosée avec anastomose crico-trachéale, tout en préservant la partie postérieure du cartilage cricoïde afin de ne pas léser les nerfs récurrents.

La trachéotomie, qui est le plus souvent temporaire, est réalisée en situation urgente de détresse respiratoire aiguë ou en association avec un autre geste, notamment en protection des voies aériennes après résection-anastomose.

Bien que cette pathologie rare connaisse ces dernières années une augmentation de l'intérêt qui lui est porté, les résultats des études restent hétérogènes sur les prises en charge.

L'objectif principal de cette étude était de comparer les durées d'efficacité de deux techniques endoscopiques : dilatation seule et résection endoscopique au laser ou par thermocoagulation. Les objectifs secondaires étaient de décrire la population atteinte de sténose sous-glottique idiopathique dans le Nord-Ouest de la France, les différentes prises en charges et la survenue de complications.

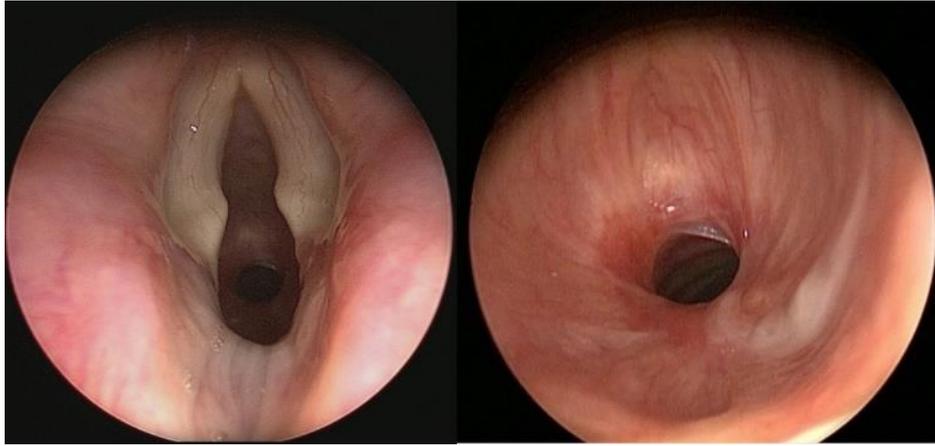


Figure 1. Aspect endoscopique de sténose sous-glottique idiopathique

Classification	Obstruction (%)
Grade I	De 0 à 50%
Grade II	De 51 à 70%
Grade III	De 71 à 99%
Grade IV	Obstruction complète

Tableau 1. Classification de Myer-Cotton⁷

MATERIEL ET METHODE

Centres participants

Il s'agit d'une étude rétrospective, multicentrique, menée dans les CHU d'Angers, Brest, Nantes, Poitiers, Rennes et Tours.

Patients

Les critères d'inclusion étaient les suivants : patients majeurs, suivis pour sténose sous-glottique idiopathique entre 2000 et 2020, après avoir éliminé les différentes causes de sténose sous-glottique.

Les critères de non inclusion étaient les suivants: intubation moins de 2 ans avant la survenue des symptômes, antécédent de trachéotomie, personne s'étant opposée à l'étude.

Les dossiers de 1125 patients répertoriés informatiquement comme « sténose du larynx » et « dilatation et/ou résection de sténose du larynx, par endoscopie » ont été étudiés. Parmi eux, seulement 49 patients présentaient une sténose sous-glottique idiopathique (figure 2).

Les patients ont été informés par courrier ou par téléphone de leur inclusion dans cette étude, et pouvaient s'y opposer. Le groupe d'éthique d'aide à la recherche clinique a donné un avis favorable pour ce projet de recherche numéro 2021 027.

Données collectées

Les caractéristiques des patients ont été recueillies (sexe, âge au début des symptômes, âge au diagnostic, antécédents médico-chirurgicaux), ainsi que les manifestations cliniques et les caractéristiques morphologiques de la sténose (pourcentage de sténose, distance de la sténose par rapport au plan glottique [cm], étendue de la sténose [cm]). Les différentes techniques et dates chirurgicales ont été analysées ainsi que la durée d'efficacité après une chirurgie [jours]. Nous avons également recueilli la survenue de complications précoces (<10 jours) et tardives (>10 jours) après une chirurgie de la sténose, qui ont nécessité ou non une reprise au bloc opératoire.

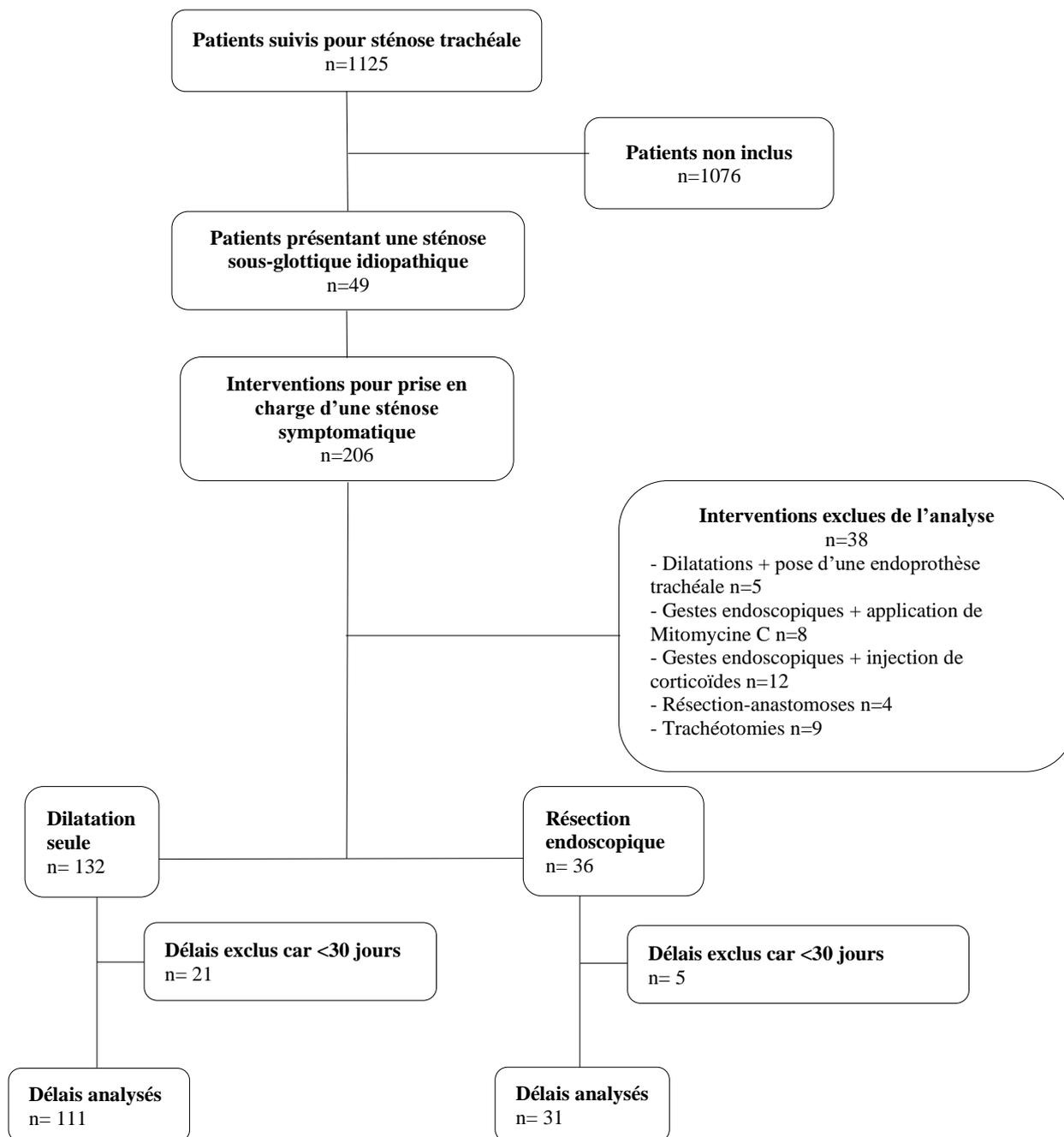


Figure 2. Diagramme de flux

Critère de jugement

Le critère de jugement principal pour cette étude était la durée d'efficacité de la technique chirurgicale en fonction de la réalisation soit d'une dilatation endoscopique seule soit d'une résection endoscopique par laser ou thermocoagulation, qui pouvait être associée à une

dilatation. La durée d'efficacité était définie par le délai entre deux interventions réalisées pour sténose symptomatique. Pour les sténoses qui n'avaient pas récidivé après une intervention, la durée d'efficacité correspondait au délai entre la dernière intervention et la date des dernières nouvelles. Le délai était exclu de l'analyse si la date des dernières nouvelles après le dernier geste endoscopique était $<$ à 30 jours.

Deux groupes ont été étudiés:

- Groupe 1 : interventions avec dilatation endoscopique sans utilisation de laser ou thermocoagulation.
- Groupe 2 : interventions avec résection endoscopique au laser ou par thermocoagulation. Ce geste pouvait être associé à une dilatation.

Les gestes endoscopiques qui comprenaient l'application de Mitomycine ou l'injection de corticoïdes ont été exclus de l'analyse du critère de jugement principal, tout comme les gestes de résection-anastomose, les trachéotomies, et les poses d'endoprothèses trachéales.

Analyse statistique

Pour l'analyse du critère de jugement principal, une analyse selon la technique de Kaplan-Meier puis un test de Log Rank ont été utilisés pour comparer les durées d'efficacité entre les deux techniques endoscopiques. Nous avons également réalisé un test du Chi² pour comparer le taux de récurrence à 500 jours et à 1000 jours après une chirurgie endoscopique entre nos deux groupes. Pour les objectifs secondaires, seule une analyse descriptive a été réalisée, l'effectif réduit ne permettait pas de faire de comparaison statistique.

RESULTATS

Description de la population et des prises en charges (Tableau 2)

49 patientes de sexe féminin ont été incluses dans l'étude.

L'âge moyen de survenue des premiers signes cliniques était de 50.55 ± 11.49 ans [23-75] , l'âge moyen au diagnostic de 52 ± 11.49 ans [26-75].

Les signes cliniques étaient une dyspnée d'effort pour 49 patientes (100%), une toux pour 13 patientes (26.53%), un wheezing ou stridor pour 17 patientes (34.69%), et une dysphonie pour 2 patientes (4.08%).

Le pourcentage moyen de sténose mesuré en peropératoire, lorsqu'il a pu être recueilli, était de $60\% \pm 15\%$ [20-90].

La sténose était située en moyenne à 1.53 ± 0.56 cm du plan glottique [1-3], et était étendue en moyenne sur 1.18 ± 0.54 cm [0.2-3].

Un total de 206 interventions pour prise en charge de sténose symptomatique ont été réalisées.

Parmi elles :

- 168 interventions réalisées ont été incluses dans l'analyse du critère de jugement principal:
 - 132 dilatations seules (DS),
 - 36 résections endoscopiques (RE), dont 15 résections seules et 21 résections associées à une dilatation,
- 38 autres gestes ont été réalisés et exclus de l'analyse du critère de jugement principal :
 - 5 dilatations associées à la pose d'une endoprothèse trachéale,
 - 8 gestes endoscopiques associées à l'application de Mitomycine C,
 - 12 gestes endoscopiques associées à l'injection de corticoïdes,
 - 4 résection-anastomoses,
 - 9 trachéotomies.

La moyenne du nombre interventions par patiente était de 4.20 ± 5.37 [1-33].

	Patients, No. (%)
Sexe	
- Féminin	49 (100)
- Masculin	0
Age aux premiers signes cliniques, moyenne \pm écart type	50.55 \pm 11.49
Age au diagnostic, moyenne \pm écart type	52 \pm 11.49
Signes cliniques	
- dyspnée d'effort	49 (100)
- toux	13 (26.53)
- wheezing ou stridor	17 (34.69)
- dysphonie	2 (4.08)
Pourcentage de sténose, moyenne \pm écart type	60 \pm 15
Pourcentage de sténose selon Myer-Cotton, nombre d'interventions, %	
- Grade 1 (<50%)	
- Grade 2 (51-70%)	49 (39.84)
- Grade 3 (71-99%)	24 (19.51)
- Grade 4 (100%)	0
Distance de la sténose par rapport au plan glottique (cm), moyenne \pm écart type	1.53 \pm 0.56
Etendue de la sténose (cm), moyenne \pm écart type	1.18 \pm 0.54
Interventions pour prise en charge de sténose symptomatique	206
- DS	132 (64.08)
- RE seule	15 (7.28)
- RE + dilatation	21 (10.19)
- Dilatation endoscopique + pose d'endoprothèse	5 (2.43)
- Dilatation endoscopique + injection de corticoïdes	10 (4.85)
- RE + injection de corticoïdes	2 (0.97)
- Dilatation endoscopique + application de mitomycine C	7 (3.40)
- RE + application de Mitomycine C	1 (0.49)
- Trachéotomie	9 (4.37)
- Résection-anastomose	4 (1.94)

Tableau 2. Description de la population et des prises en charges

Prise en charge initiale

La prise en charge initiale était une chirurgie endoscopique pour 47 patientes (95.92%), une résection-anastomose pour 1 patiente (2.04%), une trachéotomie pour 1 patiente (2.04%).

Patientes traitées par résection-anastomose et trachéotomie

4 patientes (8.16%) ont été traitées par résection-anastomose. Aucune n'avait présenté de récurrence au dernier suivi pour un suivi post opératoire moyen de 590.5 ± 348.17 jours [123-947]. Trois des quatre interventions ont été réalisées dans un centre spécialisé en chirurgie thoracique.

5 patientes (10.20 %) ont eu au moins une trachéotomie en urgence au cours du suivi. Les trachéotomies ont été réalisées dans des situations de détresse respiratoire aiguë en lien avec la sténose, en premier lieu ou en recours après échec d'une technique endoscopique. Deux patientes avaient encore une trachéotomie au dernier suivi. Chez les patientes qui ont pu être décanulées, la durée moyenne de trachéotomie était de 254.71 jours.

Complications

On observe au total 18 complications, dont 12 traitées chirurgicalement et 6 traitées médicalement.

Parmi les complications traitées chirurgicalement, on observe :

- 8 reprises pour complication précoce <10 jours après l'intervention :
 - 6 reprises pour dyspnée en lien avec la présence de fausses membranes (3 après résection par thermocoagulation, 2 après pose d'endoprothèse, 1 après dilatation seule),
 - 1 reprise pour dyspnée en lien avec la migration d'une endoprothèse trachéale,
 - 1 reprise pour drainage d'une cellulite cervicale après résection-anastomose.
- 5 reprises pour complication tardive >10 jours après l'intervention :
 - 1 reprise pour dyspnée en lien avec un granulome obstructif après résection-anastomose,
 - 4 reprises pour dyspnée en lien avec la migration d'une endoprothèse trachéale.

Les complications traitées médicalement sans nécessité de reprise chirurgicale sont toutes survenues précocement (<10 jours). On observe :

- 1 choc anaphylactique lors d'une dilatation seule,
- 2 dysphonies :
 - 1 en lien avec une hypomobilité de la corde vocale droite après dilatation seule,
 - 1 en lien avec une position trop haute de l'endoprothèse après dilatation avec pose d'endoprothèse.
- 3 détresses respiratoires résolutive après traitement médical :

- 1 à J5 d'une dilatation seule,
- 1 à J1 d'une dilatation associée à une thermocoagulation,
- 1 à J9 d'une pose d'endoprothèse.

On observe que les poses d'endoprothèses se sont toutes suivies d'une complication.

Analyse du critère de jugement principal :

La durée d'efficacité a pu être colligée pour 111 procédures de dilatation seule et 31 procédures de résection endoscopique.

La durée d'efficacité moyenne était de 495.41 ± 573.28 jours [51-4297], avec une médiane de 348 jours pour la dilatation seule, et de 1096.10 ± 1473.91 jours [31-5735], avec une médiane de 497 jours pour la résection endoscopique. Il existait une différence statistiquement significative entre les deux groupes ($p=0.01$), avec une durée d'efficacité qui était plus longue dans le groupe des résections endoscopiques.

Les courbes de Kaplan-Meier (figure 3), comparent donc les deux groupes : dilatation seule (DS) et résection endoscopique (RE). En abscisse est représenté le temps en jours, en ordonnée la survenue d'un évènement, dans notre cas il s'agit d'une reprise chirurgicale pour sténose sous-glottique symptomatique. Chaque survenue de l'évènement est représentée par une marche d'escalier. Chaque plateau correspond donc à la durée d'efficacité de la technique utilisée. Les interventions ne s'étant pas suivies de la survenue de l'évènement après 30 jours sont ici représentées par les croix (patients considérés comme perdus de vue).

D'autre part, la comparaison du taux de récurrence entre le groupe dilatation seule et le groupe résection endoscopique par un test du Chi² n'a pas montré de différence significative entre les deux groupes, ni à 500 jours ($p=0.64$), ni à 1000 jours postopératoire ($p=0.18$).

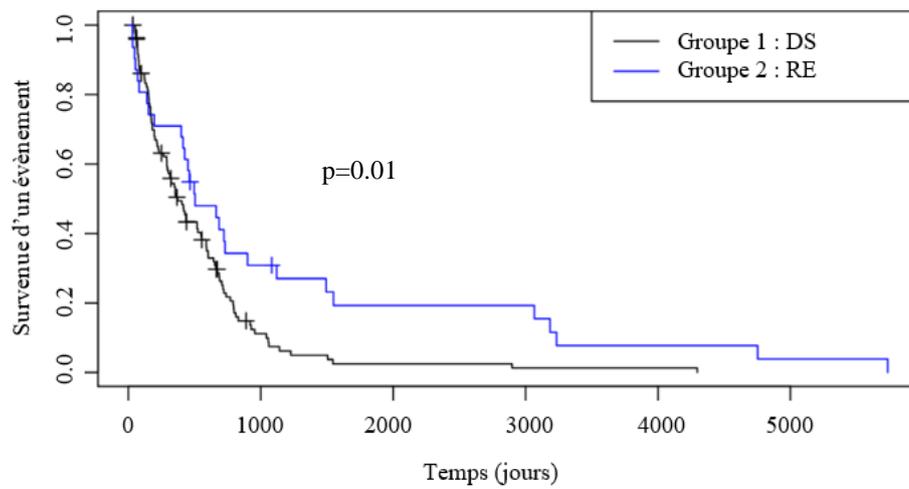


Figure 3. Comparaison des durées d'efficacité entre dilatation seule (DS) et résection endoscopique (RE), courbes de Kaplan-Meier

DISCUSSION

La sténose sous-glottique est une pathologie rare, récidivante, dont la physiopathologie reste inconnue et la prise en charge hétérogène malgré des caractéristiques démographiques et des présentations cliniques homogènes.

Comme la grande majorité des patients sont des femmes, plusieurs auteurs évoquent une influence hormonale dans le développement de ces sténoses.^{2,15,16} En effet, l'étude de Fiz et al. met en évidence une surexpression de récepteurs aux œstrogènes alpha et de récepteurs à la progestérone dans la sténose des patients avec sténose idiopathique, en comparaison au tissu sous-glottique de patients opérés d'une laryngectomie totale pour cancer laryngé sans atteinte sous-glottique.¹⁶ L'étude de Damrose et al. met en évidence une surexpression de récepteurs alpha et beta dans la sous glotte de patientes présentant une sténose idiopathique, en comparaison avec des sous glotte normales chez des cadavres.¹⁵

D'autres études avancent que ces sténoses pourraient être liées à des traumatismes répétés par une toux chronique : blessures mécaniques, ischémies et anomalies de cicatrisation seraient alors en cause, possiblement potentialisés par une réponse anormale aux œstrogènes, expliquant la prédominance féminine de cette pathologie.¹⁷

Le reflux gastro-œsophagien a également été avancé comme facteur causal ou favorisant de la sténose sous-glottique idiopathique. En effet, plusieurs études rapportent une incidence plus élevée du reflux gastro-œsophagien chez les patients présentant une sténose sous-glottique idiopathique que dans la population générale. L'étude de Blumin et al. met en évidence la présence de pepsine dans le tissu laryngé et trachéal de 59% des patients de l'étude. En revanche, il n'y a pas de corrélation entre la présence d'un reflux clinique et un reflux mis en évidence par PH métrique chez ces patients. De plus, l'hypothèse du reflux gastro-œsophagien n'explique pas l'incidence plus élevée chez les femmes, et le nombre de patients présentant un reflux dans la population générale n'est pas proportionnelle au nombre de patients atteints de sténose sous-glottique idiopathique. Le reflux pourrait alors jouer un rôle favorisant chez certains patients.^{3,4,18,19}

L'étude de Drake et al. met en évidence des formes familiales dans 2.5% des cas sur une série de 810 patients, évoquant la possibilité d'une prédisposition génétique.²⁰

Notre étude retrouve 100% de femmes, avec une moyenne d'âge aux premiers signes cliniques de 50 ans. Ces données sont en accord avec la méta-analyse de Lavrysen et al., qui compare 15 articles avec un total de 862 cas de sténoses sous-glottiques idiopathiques traitées par voie

endoscopique, qui retrouve une large prédominance de femmes (96.9%), avec une moyenne d'âge de 48 ans.

Dans notre étude, la distance moyenne de la sténose au plan glottique est de 1.53 cm, résultat proche des résultats de l'étude de Lavrysen et al. qui retrouve une distance de 1.32 cm. La durée d'efficacité dans notre étude est de 495 jours (médiane de 348 jours) pour la dilatation et de 1096 jours (médiane de 497 jours) pour la résection, ces résultats sont également en accord avec ceux de l'étude de Lavrysen et al. qui retrouve une durée d'efficacité de 2 à 21.2 mois (61 à 645 jours) avec une médiane de 14.3 mois (435 jours), toutes techniques endoscopiques confondues. Cette méta analyse, qui compare l'intervalle de temps entre les interventions, ne montre en revanche pas de différence de durée d'efficacité entre les différentes techniques endoscopiques.²¹

L'étude prospective de Gelbard et al., qui compare les durée d'efficacité des trois techniques : résection-anastomose, dilatation endoscopique et résection endoscopique avec traitement médical adjuvant (corticostéroïdes inhalés, inhibiteurs de la pompe à protons ou Triméthoprime-Sulfaméthoxazole) avec une cohorte de 810 patients , met quant à elle en évidence une durée d'efficacité plus longue pour les résections endoscopiques avec traitement adjuvant au long cours que pour les dilatations, avec une différence statistiquement significative, sans pour autant qu'il n'y ait de différence sur la survenue de complications péri-opératoires. Le rôle du traitement médical adjuvant reste encore à préciser dans les résultats de cette étude.⁹

Notre étude multicentrique, qui collige l'expérience de plusieurs chirurgiens avec une cohorte moins importante de 49 patients, met aussi en évidence une différence statistiquement significative sur la durée d'efficacité entre dilatation seule et résection endoscopique. Celle-ci comporte plusieurs limites : tout d'abord, il s'agit d'une étude rétrospective, avec une différence de délais analysés importante entre les groupes: 111 délais analysés dans le groupe 1 contre 31 délais analysés dans le groupe 2, induisant alors un biais. D'autre part, les résultats de l'étude sont à pondérer par l'absence de différence statistiquement significative entre la dilatation endoscopique seule et la résection endoscopique par laser ou thermocoagulation à 500 jours et à 1000 jours. Une étude avec de plus grands effectifs et des sous-groupes selon la technique endoscopique précise réalisée seraient nécessaire afin de diminuer les biais.

Malgré l'homogénéité des patients et des manifestations cliniques de cette maladie, il existe une hétérogénéité considérable dans les prises en charges. Le nombre de patients et les critères

décisionnels pour la résection-anastomose semblent varier selon les centres. On observe également de grandes variabilités au sein des approches endoscopiques.

La résection-anastomose consiste en une résection de la zone sténosée en emportant en général la muqueuse en regard de l'arc postérieur du cricoïde, en raison du caractère souvent circonférentiel de la sténose. La résection se fait alors dans le plan sous péri-chondral, et nécessite une couverture par un lambeau muqueux trachéal. Les sténoses très proches du plan glottique peuvent même parfois nécessiter une ouverture verticale médiane du cartilage thyroïde ou de l'arc postérieur du cricoïde, avec reconstruction par interposition de greffon osseux ou cartilagineux.^{8,22-28}

Les techniques endoscopiques, qui sont moins invasives, aboutissent presque systématiquement à une récurrence de la sténose dans des délais variables pouvant aller de quelques mois à plusieurs années, avec nécessité de répéter les gestes chirurgicaux.²⁹ À l'inverse, les conséquences sur la voix, la déglutition, la survenue de complications et la longueur des suites chirurgicales, sont plus favorables que pour les techniques de résection-anastomose.^{4,9,30-33} Les techniques de résection anastomose semblant moins pourvoyeuses de récurrences, certaines études mettent cependant en évidence une possibilité de récurrence de l'ordre de 10 à 30% dans les 5 à 10 ans après résection-anastomose.^{24,34-37}

À ce jour, la plupart des études rapportent qu'une résection-anastomose en un temps, réalisée précocement, est la technique à long terme la plus favorable pour une prise en charge définitive de la sténose sous-glottique.^{22,24,30,32,34,37} D'autres auteurs suggèrent de réserver les techniques de résection-anastomose aux patients récidivant après prise en charge endoscopique, lorsque la distance de la sténose au plan glottique est suffisante et que les comorbidités du patient le permettent.^{31,33} Dans notre étude, quatre patientes ont bénéficié d'une résection-anastomose, dont trois dans un centre expert. Deux des quatre patientes ont présenté une complication post opératoire : l'une d'entre elle une cellulite cervicale avec nécessité de reprise chirurgicale pour drainage, la seconde une dyspnée en lien avec un granulome trachéal avec nécessité de reprise chirurgicale pour résection du granulome. Aucune des quatre n'avait de récurrence de la sténose après un suivi moyen de 590 jours.

La pose d'endoprothèse trachéale, dont le but est de calibrer le diamètre de la trachée après une dilatation, est pourvoyeuse de complications dont les plus fréquentes sont la migration de l'endoprothèse, la formation de granulomes, et la formation de bouchons muqueux.³⁸ La survenue fréquente de ces complications ainsi que la proximité de ces sténoses au plan glottique incitent à déconseiller leur mise en place pour les sténoses impliquant la sous glotte. Dans notre

étude, toutes les endoprothèses ont dû être retirées ou changées en raison de complications : dyspnée en lien avec la migration de l'endoprothèse ou la présence de fausses membranes, dysphonie.

Récemment, certains auteurs ont évoqué le rôle d'injections de corticoïdes intralésionnelles en série comme une technique durable de prise en charge, comportant relativement peu d'effets indésirables.^{39,40} Il s'agit alors d'injections sous muqueuses, transcervicales ou transnasales, réalisées sous anesthésie locale. Le schéma est celui de trois injections à un mois d'intervalle, avec un contrôle fibroscopique un mois après la dernière injection. Les deux études de Hoffman et al. montrent une efficacité avec une amélioration à la fois du pourcentage de sténose et de la dyspnée. La majorité des patients n'a pas nécessité d'intervention chirurgicale dans un délai moyen de suivi de 523 ± 388 jours, et aucun effet secondaire grave n'a été visualisé.^{40,41}

Depuis quelques années, l'intérêt porté à la sténose sous-glottique idiopathique est croissant, avec notamment la création de la NoAAC (North American Airway Collaborative Network) : rassemblement international de 30 centres de référence pour les sténoses sous glottiques idiopathiques, et la création d'un groupe de patients sur Facebook nommé « Living With Idiopathic Subglottic Stenosis ». Ce dernier comporte actuellement 5200 membres du monde entier, dont une majorité de patients souffrant de sténose sous-glottique idiopathique. Cette communauté, très active, permet aux patients de partager des informations sur la maladie ainsi que leur expérience personnelle, et agit comme un support émotionnel pour les malades.⁴² Comme l'a montré l'étude de Verma et al., l'appartenance à cette communauté, principalement chez les patients anxieux avec faible soutien social, pourrait avoir une influence importante sur les décisions de traitement.⁴³

Ces deux organisations permettent un recrutement direct des patients et laissent imaginer la possibilité de réaliser à l'avenir davantage d'études avec de grands effectifs.

CONCLUSION

La sténose sous-glottique idiopathique est une pathologie rare qui touche presque exclusivement la population féminine d'âge moyen.

L'hétérogénéité des approches chirurgicales, la survenue fréquente de récidives et les variabilités des durées d'efficacité selon les techniques incitent à s'intéresser à cette pathologie. Cette étude préconise de réaliser une résection endoscopique au laser ou par thermocoagulation pour augmenter la durée d'efficacité de la chirurgie endoscopique. De plus grands effectifs et une étude prospective seraient nécessaires pour confirmer ces résultats.

Conflits d'intérêt

Absence de conflits d'intérêt.

REFERENCES

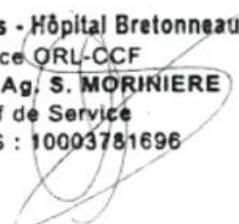
1. Brandenburg JH. Idiopathic subglottic stenosis. *Trans Am Acad Ophthalmol Otolaryngol.* 1972;76(5):1402-1406.
2. Aravena C, Almeida FA, Mukhopadhyay S, et al. Idiopathic subglottic stenosis: a review. *J Thorac Dis.* 2020;12(3):1100-1111.
3. Maldonado F, Loiselle A, Depew ZS, et al. Idiopathic subglottic stenosis: an evolving therapeutic algorithm. *The Laryngoscope.* 2014;124(2):498-503.
4. Valdez TA, Shapshay SM. Idiopathic subglottic stenosis revisited. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2002;111(8):690-695.
5. Aarnæs MT, Sandvik L, Brøndbo K. Idiopathic subglottic stenosis: an epidemiological single-center study. *Eur Arch Oto-Rhino-Laryngol.* 2017;274(5):2225-2228.
6. Gelbard A, Donovan DT, Ongkasuwan J, et al. Disease homogeneity and treatment heterogeneity in idiopathic subglottic stenosis. *The Laryngoscope.* 2016;126(6):1390-1396.
7. Myer CM, O'Connor DM, Cotton RT. Proposed grading system for subglottic stenosis based on endotracheal tube sizes. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1994;103(4 Pt 1):319-323.
8. Axtell AL, Mathisen DJ. Idiopathic subglottic stenosis: techniques and results. *Ann Cardiothorac Surg.* 2018;7(2):299-305.
9. Gelbard A, Anderson C, Berry LD, et al. Comparative Treatment Outcomes for Patients With Idiopathic Subglottic Stenosis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2020;146(1):20-29.
10. Gnagi SH, Howard BE, Anderson C, Lott DG. Idiopathic Subglottic and Tracheal Stenosis: A Survey of the Patient Experience. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2015;124(9):734-739.
11. Eliashar R, Gross M, Maly B, Sichel J-Y. Mitomycin does not prevent laryngotracheal repeat stenosis after endoscopic dilation surgery: an animal study. *The Laryngoscope.* 2004;114(4):743-746.
12. Feinstein AJ, Goel A, Raghavan G, et al. Endoscopic Management of Subglottic Stenosis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017;143(5):500-505.
13. Rahbar R, Valdez TA, Shapshay SM. Preliminary results of intraoperative mitomycin-C in the treatment and prevention of glottic and subglottic stenosis. *J Voice.* 2000;14(2):282-286.
14. Shabani S, Hoffman MR, Brand WT, Dailey SH. Endoscopic Management of Idiopathic Subglottic Stenosis. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2017;126(2):96-102.

15. Damrose EJ, Campbell RD, Darwish S, Erickson-DiRenzo E. Increased Expression of Estrogen Receptor Beta in Idiopathic Progressive Subglottic Stenosis. *The Laryngoscope*. 2020;130(9):2186-2191.
16. Fiz I, Bittar Z, Piazza C, et al. Hormone receptors analysis in idiopathic progressive subglottic stenosis. *The Laryngoscope*. 2018;128(2):E72-E77.
17. Damrose EJ. On the development of idiopathic subglottic stenosis. *Med Hypotheses*. 2008;71(1):122-125.
18. Blumin JH, Johnston N. Evidence of extraesophageal reflux in idiopathic subglottic stenosis. *The Laryngoscope*. 2011;121(6):1266-1273.
19. Fang H, Codipilly DC, Ravi K, Ekbom DC, Kasperbauer JL, Halland M. Gastroesophageal Reflux Characteristics and Patterns in Patients with Idiopathic Subglottic Stenosis. *Gastroenterol Res Pract*. 2018.
20. Drake VE, Gelbard A, Sobriera N, et al. Familial Aggregation in Idiopathic Subglottic Stenosis. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2020;163(5):1011-1017.
21. Lavrysen E, Hens G, Delaere P, Meulemans J. Endoscopic Treatment of Idiopathic Subglottic Stenosis: A Systematic Review. *Front Surg*. 2019;6:75.
22. Ashiku SK, Kuzucu A, Grillo HC, et al. Idiopathic laryngotracheal stenosis: effective definitive treatment with laryngotracheal resection. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2004;127(1):99-107.
23. Ciccone AM, Vanni C, Maurizi G, et al. A Novel Technique for Laryngotracheal Reconstruction for Idiopathic Subglottic Stenosis. *Ann Thorac Surg*. 2016;102(5):e469-e471.
24. Costantino CL, Mathisen DJ. Idiopathic laryngotracheal stenosis. *J Thorac Dis*. 2016;8(Suppl 2):S204-209.
25. D'Andrilli A, Venuta F, Rendina EA. Subglottic tracheal stenosis. *J Thorac Dis*. 2016;8(Suppl 2):S140-147.
26. Donahoe L, Keshavjee S. Contemporary Management of Idiopathic Laryngotracheal Stenosis. *Thorac Surg Clin*. 2018;28(2):167-175.
27. Morcillo A, Wins R, Gómez-Caro A, Paradela M, Molins L, Tarrazona V. Single-staged laryngotracheal reconstruction for idiopathic tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg*. 2013;95(2):433-439.
28. Stoelben E, Aleksanyan A. Technique of laryngotracheal resection in subglottic stenosis. *J Thorac Dis*. 2020;12(10):6152-6162.
29. Perotin J-M, Jeanfaivre T, Thibout Y, et al. Endoscopic management of idiopathic tracheal stenosis. *Ann Thorac Surg*. 2011;92(1):297-301.

30. Fiz I, Koelmel JC, Piazza C, et al. Predictors of recurrence after surgical treatment of idiopathic progressive subglottic stenosis. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2018;38(5):417-423.
31. Giudice M, Piazza C, Foccoli P, Toninelli C, Cavaliere S, Peretti G. Idiopathic subglottic stenosis: management by endoscopic and open-neck surgery in a series of 30 patients. *Eur Arch Oto-Rhino-Laryngol.* 2003;260(5):235-238.
32. Grillo HC, Mark EJ, Mathisen DJ, Wain JC. Idiopathic laryngotracheal stenosis and its management. *Ann Thorac Surg.* 1993;56(1):80-87.
33. Nouraei S a. R, Sandhu GS. Outcome of a multimodality approach to the management of idiopathic subglottic stenosis. *The Laryngoscope.* 2013;123(10):2474-2484.
34. Carpenter PS, Pierce JL, Smith ME. Outcomes after cricotracheal resection for idiopathic subglottic stenosis. *The Laryngoscope.* 2018;128(10):2268-2272.
35. Dwyer CD, Qiabi M, Fortin D, et al. Idiopathic Subglottic Stenosis: An Institutional Review of Outcomes With a Multimodality Surgical Approach. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2021;164(5):1068-1076.
36. Menapace DC, Modest MC, Ekbom DC, Moore EJ, Edell ES, Kasperbauer JL. Idiopathic Subglottic Stenosis: Long-Term Outcomes of Open Surgical Techniques. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2017;156(5):906-911.
37. Wang H, Wright CD, Wain JC, Ott HC, Mathisen DJ. Idiopathic Subglottic Stenosis: Factors Affecting Outcome After Single-Stage Repair. *Ann Thorac Surg.* 2015;100(5):1804-1811.
38. Freitag L, Darwiche K. Endoscopic treatment of tracheal stenosis. *Thorac Surg Clin.* 2014;24(1):27-40.
39. Celebi OO, Song SA, Santeerapharp A, Choksawad K, Franco RA. Assessment of side effects after serial intralesional steroid injections for idiopathic subglottic stenosis. *Eur Arch Oto-Rhino-Laryngol.* 2021;278(2):445-450.
40. Hoffman MR, Francis DO, Mai JP, Dailey SH. Office-Based Steroid Injections for Idiopathic Subglottic Stenosis: Patient-Reported Outcomes, Effect on Stenosis, and Side Effects. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2020;129(4):361-368.
41. Hoffman MR, Coughlin AR, Dailey SH. Serial office-based steroid injections for treatment of idiopathic subglottic stenosis. *The Laryngoscope.* 2017;127(11):2475-2481.
42. Haik D, Kashanchi K, Tajran S, et al. The Online Support Group as a Community: A Thematic Content Analysis of an Online Support Group for Idiopathic Subglottic Stenosis. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2019;128(4):293-299.
43. Verma SP, Goshtasbi K, Berry LD, Anderson C, Francis DO, Gelbard A. Utilization and Influence of Online Support Communities in Idiopathic Subglottic Stenosis Patients. *The Laryngoscope.* 2020;131(8):1821-1827.

Vu, le Directeur de Thèse

Signature
CHRU de Tours - Hôpital Bretonneau
Service ORL-CCF
Professeur Ag. S. MORINIÈRE
Chef de Service
N° RPPS : 10003781696



Vu, le Doyen
De la Faculté de Médecine de
Tours Tours, le

DOCTORAT en MEDECINE

Diplôme d'Etat

D.E.S. de ORL-CCF

Présentée et Soutenue le 24/09/2021
Dépôt de sujet de thèse, proposition de jury,

NOM : BOUMGHIT

Prénoms : Yasmine, Sophie, Leïla

Date de naissance : 01/03/1993

Nationalité : Française

Lieu de naissance : Angers, 49

Domicile: 17 rue Ampère, 37000 Tours

Téléphone : 0663965771

Directeur de Thèse : Professeur Sylvain MORINIERE, Oto-rhino-laryngologie et chirurgie cervico -faciale, Faculté de Médecine - Tours

Titre de la Thèse : Sténose sous-glottique idiopathique, étude rétrospective multicentrique

JURY¹

Président : Professeur Emmanuel LESCANNE, Oto-rhino-laryngologie et chirurgie cervico -faciale, Faculté de Médecine - Tours

Membres :

Professeur Sylvain MORINIERE, Oto-rhino-laryngologie et chirurgie cervico -faciale, Faculté de Médecine - Tours

Professeur Olivier MALARD, Oto-rhino-laryngologie et chirurgie cervico -faciale, Faculté de Médecine - Nantes

Docteur Soizick PONDAVEN, Oto-rhino-laryngologie et chirurgie cervico -faciale, PH, CHU -Tours

Docteur Myriam AMMI, Chirurgie vasculaire et thoracique, PH, CHU- Angers

Avis du Directeur de Thèse
À Tours, le 23/07/2021

Avis du Directeur de l'U.F.R. Tours
à Tours, le 3. 8 21

Signature
CHRU de Tours - Hôpital Bretonneau
Service ORL-CCF
Professeur Ag. S. MORINIERE
Chef de Service
N° RPPS : 10003781696



Boumghit Yasmine

40 pages – 2 tableaux – 3 figures

Résumé

La sténose sous-glottique idiopathique est une pathologie rare, affectant le plus souvent des femmes adultes caucasiennes. Les deux principaux traitements utilisés par voie endoscopique sont la dilatation seule (DS) ou la résection endoscopique (RE) par laser ou thermocoagulation. La récurrence de la sténose est fréquente et nécessite la réalisation de chirurgies répétées. L'objectif principal de cette étude était de comparer la durée d'efficacité du traitement chirurgical selon la technique réalisée (DS ou RE). Une étude rétrospective a été menée dans 5 centres de référence français. Seuls les patients suivis pour sténose sous-glottique idiopathique entre 2000 et 2020 ont été inclus. Les patients ayant eu une intubation moins de 2 ans avant la survenue des symptômes, des antécédents de trachéotomie ou qui se sont opposés à l'étude ont été exclus. Pour l'analyse du critère de jugement principal, nous avons comparé la durée d'efficacité selon le type de geste réalisé: DS ou RE. Une analyse selon la technique de Kaplan-Meier puis un test de Log Rank ont été utilisés pour comparer les résultats entre nos deux groupes.

49 patientes de sexe féminin ont été incluses. L'âge moyen de survenue des premiers signes cliniques était de 50.55 ans. 206 interventions pour prise en charge d'une sténose sous-glottique idiopathique symptomatique ont été réalisées : 132 DS, 36 RE dont 15 résections seules et 21 résections associées à une dilatation, et 38 autres gestes exclus de l'analyse du critère de jugement principal.

La durée d'efficacité moyenne était de 495.41 jours [51-4297] avec une médiane de 348 jours pour la DS et de 1096.10 jours [31-5735] avec une médiane de 497 jours pour la RE. Il existait une différence statistiquement significative entre les deux groupes ($p=0.01$).

La sténose sous-glottique idiopathique est une pathologie rare qui touche presque exclusivement la population féminine. Cette étude préconise de réaliser une RE pour augmenter la durée d'efficacité de la chirurgie endoscopique. De plus grands effectifs et une étude prospective seraient nécessaires pour confirmer ces résultats.

Mots clés : sténose sous-glottique idiopathique, dilatation, résection endoscopique.

Jury :

Président du Jury : Professeur Emmanuel LESCANNE

Directeur de thèse : Professeur Sylvain MORINIERE

Membres du Jury : Professeur Olivier MALARD

Docteur Soizick PONDAVEN

Docteur Myriam AMMI

Date de soutenance : 24 septembre 2021