



HAL
open science

L'approche mini-invasive en chirurgie pédiatrique : de la révolution à l'évolution d'une nouvelle approche chirurgicale

Manuel Lopez

► **To cite this version:**

Manuel Lopez. L'approche mini-invasive en chirurgie pédiatrique : de la révolution à l'évolution d'une nouvelle approche chirurgicale. Chirurgie. Université Jean Monnet - Saint-Etienne, 2015. Français. NNT : 2015STET017T . tel-01663550

HAL Id: tel-01663550

<https://theses.hal.science/tel-01663550>

Submitted on 14 Dec 2017

HAL is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.



UNIVERSITE JEAN MONNET

U.F.R DE MEDECINE

Doctorat

Ecole Doctorale

BIOLOGIE ET PHYSIOLOGIE DE L'EXERCICE

EPIS- SNA (EA 4607)

Présentée et soutenue publiquement

Par Dr Manuel LOPEZ

Le 6 Juillet 2015

L'approche mini-invasive en chirurgie pédiatrique:

De la révolution à l'évolution d'une nouvelle approche chirurgicale.

Directeur de thèse: Professeur François VARLET

JURY

M le Professeur François Varlet

Directeur de thèse

M le Professeur Jean Claude Barthelemy

Co-Directeur de thèse

M le Professeur Nicolas Kalfa

Rapporteur

M le Professeur Laurent Fourcade

Rapporteur

M le Professeur Olivier Tiffet

Mme le Docteur Marie-Noëlle Varlet



REMERCIEMENTS

J'ai souvent pensé au moment où je rédigerai ces remerciements, quelques lignes sont trop courtes pour exprimer ma profonde gratitude envers toutes les personnes qui m'ont accompagnées sur ce projet, et dans la vie de tous les jours, et qui ont contribué de différentes façons à cette aventure que fut la Thèse.

A Monsieur le Professeur François Varlet,

En premier lieu, je voudrais exprimer ma profonde gratitude, à mon patron, ami, et cher maître, qui m'a toujours soutenu depuis que je suis sur Saint-Etienne. Nous nous sommes investis côte à côte pour faire progresser notre même passion "la **Coelioscopie**". J'ai appris à vous connaître, et nous avons partagé de très bons moments parmi les meilleurs de ma vie. Merci pour tous vos conseils, contributions et remarques précieuses et justes. J'ai découvert un homme qui allie science et conscience, savoir et sagesse. Vous m'avez toujours poussé vers l'excellence. Tout ce que j'ai appris avec vous restera dans ma mémoire pour le reste de ma vie....

Ma gratitude également à **Mme le Docteur Marie Noëlle Varlet**, son épouse, un être plein d'énergie, avec une puissance de travail hors norme, qui m'a encouragé et soutenu de diverses manières, m'a donné l'exemple de la passion du métier. Merci d'avoir accepté de faire partie du jury et j'en suis très honoré.

A Monsieur le Professeur Jean-Claude Barthelemy,

C'est sur vos conseils que nous nous sommes investis dans ce travail, vous m'avez conseillé, guidé judicieusement et stimulé, avec une puissance de travail et une intelligence exceptionnelle. Votre patience et votre compréhension nous ont permis de mener de front nos travaux. Vous avez fini par faire aimer le Système Nerveux Autonome, à un chirurgien pédiatre !!! Veuillez trouver ici l'expression de ma profonde gratitude. Je vous remercie vivement de l'honneur que vous me faites d'être membre de ce jury.

A Monsieur le Professeur Olivier Tiffet,

Merci d'avoir partagé avec moi votre passion pour « **les malformations de la paroi thoracique** ». J'ai appris beaucoup de vous et vos enseignements ont été précieux. J'ai appris à connaître un être plein d'énergie. Vous m'avez tour à tour conseillé, et stimulé. J'espère que vous verrez dans ces quelques lignes la gratitude et l'admiration que je vous porte.

A Monsieur le Professeur Nicolas Kalfa,

Eminent chercheur et chirurgien, mon meilleur ami, mon meilleur co-interne et mon meilleur interne, qui me fait l'honneur d'être membre du jury et rapporteur du présent travail. Tu m'as donné les coups de « boost » nécessaires ainsi que l'exemple de la rigueur indispensable pour mener à bien ce projet. Une bonne partie de ce que j'ai acquis c'est à toi que je le dois. Merci de ton amitié. Je garde de très bons souvenirs des moments partagés ensemble et je suis heureux de les avoir vécus. Merci pour tout, avec toute mon amitié.

A Monsieur le Professeur Laurent Fourcade,

Je suis ravi que vous ayez accepté le rôle de rapporteur et je vous en remercie chaleureusement. J'ai eu la chance de travailler avec vous en tant qu'interne à Paris. La rigueur et la justesse de vos conseils précieux, à différentes reprises, m'ont aidé à progresser dans mon métier. Je garde toujours en tête les bons moments vécus avec vous. Je vous adresse mon profond respect ainsi que mes remerciements les plus sincères.

Pour finir, le dernier remerciement et certainement le plus difficile à exprimer sera bien sûr adressé à toute ma famille, à mes parents.....

A ma famille, pour vos encouragements et précieux conseils de tous les instants, simplement et du fond du cœur Merci !

A mon Père, loin d'ici mais tout près de mon cœur.....

Tu as été au cours de toutes mes études un soutien infaillible et un réconfort salubre. Pour ta patience et ton dévouement, je te dédie ce travail avec toute l'affection d'un fils.

A mi Padre, lejos de aquí pero muy cerca de mi corazón... Fuiste en el curso de todos mis estudios un apoyo inefable y un consuelo saludable. Por tu paciencia y tu devoción, te dedico este trabajo con toda la afección de un hijo.

**A ma mère adorée, à mon grand-frère Luis Eduardo,
et ma petite sœur Claudia Liliana,**

Qui m'entourent au quotidien, ou presque, malgré la distance. Vous êtes un énorme soutien indispensable dans ma vie.

**A mi adorada Mamita, à mis queridos hermanos Luis
Eduardo y Claudia Liliana,**

Que me cuidan a diario, casi desde la distancia o casi ... El sentir que estan ahi.... A mi lado, es un apoyo enorme e indispensable en mi vida, gracias por estar ahi conmigo.

**My second half 'Béatrice' and to my son 'Jean-
Stéphane'**

Mes deux amours, Votre simple présence et patience m'encouragent et me réconfortent,

Vous êtes mes joies présentes et à venir.

| |
|-----------------|
| SOMMAIRE |
|-----------------|

| | |
|--|-----------|
| INTRODUCTION..... | 11 |
| RESPONSABILITES | 12 |
| HISTOIRE DE LA COELIOSCOPIE | 15 |
| La coelioscopie chez l'enfant en France et à St Etienne | 23 |
| APPLICATION DE LA COELIOSCOPIE EN PEDIATRIE | 28 |
| Avantages de la coelioscopie chez l'enfant..... | 31 |
| Controverses en coelioscopie..... | 33 |
| Oncologie | 33 |
| Trauma chez l'enfant..... | 35 |
| Considérations économiques..... | 36 |
| Inconvénients et complications de la coelioscopie..... | 36 |
| Indication de la coelioscopie chez l'enfant | 39 |
| EVOLUTION TECHNOLOGIQUE DE LA COELIOSCOPIE | |
| PEDIATRIQUE | 41 |
| Single Incision..... | 42 |
| Chirurgie Robotique..... | 43 |
| Chirurgie assistée par des aimants..... | 44 |
| « Magnet-assisted Laparoscopic Surgery » | |
| Naturales Orifices Transluminal Endoscopy Surgery (NOTES) ... | 45 |
| REFERENCES..... | 46 |
| CHIRURGIE NEONATALE..... | 55 |
| EVALUATION DE LA TOLERANCE ET LA SECURITE DE LA | |
| VIDEO CHIRURGIE NEONATALE..... | 56 |
| Tolerance of Laparoscopy and Thoracoscopy in Neonates..... | 58 |
| Commentaires de l'article | 65 |
| Références | 72 |
| Multicentric assessment of the safety of neonatal videosurgery..... | 73 |
| Commentaires de l'article | 78 |

| | |
|---|------------|
| HERNIE DIAPHRAGMATIQUE CONGENITALE ET THORACOSCOPIE..... | 83 |
| Congenital diaphragmatic hernia : an evaluation of risk factors for failure of thoracoscopic primary in neonates | 84 |
| Commentaires de l'article | 92 |
| Références | 95 |
| | |
| Neonatal minimally invasive surgery for congenital diaphragmatic hernias : a multicenter study using thoracoscopy or laparoscopy | 97 |
| Commentaires de l'article | 106 |
| Références | 108 |
| | |
| ATRESIE DE L'ESOPHAGE ET THORACOSCOPIE | 109 |
| Thoracoscopic Repair of H-type Tracheoesophageal Fistula in the Newborn : A Technical Case Report | 110 |
| Commentaires de l'article | 113 |
| Références | 114 |
| | |
| Benefits of the Thoracoscopic Approach for Short-or Long-Gap Esophageal atresia..... | 115 |
| Commentaires de l'article | 120 |
| | |
| Atrésie de l'œsophage sous thoracoscopie à Saint Etienne..... | 121 |
| | |
| Lower esophageal banding in extremely low birth weight infant with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula is a life saving practice followed by successful delayed primary thoracoscopy reconstruction | 124 |
| Commentaires de l'article | 128 |
| | |
| Chemocauterisation with trichloroacetic acid in congenital and recurrent tracheoesophageal fistula. A mini invasive treatment | 129 |
| Commentaires de l'article | 134 |
| Références | 136 |
| | |
| ATRESIE DES VOIES BILIAIRES | 137 |
| Early laparoscopic Kasai's procedure in a low weight newborn..... | 138 |
| Commentaires de l'article | 142 |
| Références | 143 |

| | |
|---|------------|
| CHIRURGIE DIGESTIVE | 144 |
| REFLUX GASTRO OESOPHAGIENNE ET FUNDOPLICATURE SOUS COELIOSCOPIE..... | 145 |
| Evaluation of 142 Consecutives Laparoscopic Funduplications in Children : Effects of the Learning Curve and technical Choice | 146 |
| Commentaires de l'article | 153 |
| Références | 155 |
| RE INTERVENTIONS DE LA CHIRURGIE ANTIREFLUX PAR COELIOSCOPIE. ECHEC ET FAISABILITE | 156 |
| Laparoscopic redo funduplications in children Failure causes and Feasibility | 158 |
| Commentaires de l'article | 164 |
| Références | 166 |
| MALFORMATION ANO-RECTALE. TRAITEMENT COELIOSCOPIQUE | 168 |
| Anorectal Malformation (ARM) with bladder fistula : Interest of Laparoscopic approach | 171 |
| Commentaires de l'article | 175 |
| Références | 176 |
| TRAITEMENT LAPAROSCOPIQUE DE L'APPENDICITE AIGUE CHEZ L'ENFANT | 177 |
| Traitement laparoscopique de l'appendicite aigue chez l'enfant | 178 |
| Commentaires de l'article | 182 |
| DUPLICATION DIGESTIVE ET COELIOSCOPIE..... | 186 |
| Outcome of alimentary tract duplications operated on by the GECI..... | 187 |
| Commentaires de l'article | 195 |
| Références | 196 |
| CHIRURGIE THORACIQUE | 197 |
| PLEURO-PNEUMOPATHIE ET THORACOSCOPIE..... | 198 |
| An Early Thoracoscopic Approach in Necrotizing Pneumonia in Children : A Report of Three Cases..... | 200 |
| Commentaires de l'article | 205 |
| Références | 207 |

| | |
|---|------------|
| Thoracoscopy in pediatric pleural empyema : a prospective study of prognostic factors..... | 208 |
| Commentaires de l'article | 214 |
| Références | 216 |
| TAMPONNADE PERICARDIQUE ET THORACOSCOPIE | 217 |
| Tratamiento toracoscopico en taponamiento pericardico..... | 218 |
| Commentaires de l'article | 221 |
| Références | 221 |
| CHIRURGIE ONCOLOGIQUE | 222 |
| TUMEUR DE WILMS ET COELIOSCOPIE | 223 |
| Laparoscopic Radical Nephrectomy for Unilateral Renal Cancer in Children | 225 |
| Néphrectomie par coelioscopie en oncologie pédiatrique..... | 230 |
| Laparoscopic treatment of renal cancer in children : A multicentric Study and review of oncologic and surgical complication..... | 232 |
| Nephroblastome et coelioscopie : une heresie ? | 238 |
| Commentaires des articles..... | 244 |
| Références | 250 |
| TUMEUR DE LA SURRENALE ET LA RETROPERITONEOSCOPIE . | 251 |
| Left retroperitoneoscopic adrenalectomy : About Two Cases..... | 252 |
| Commentaires de l'article | 257 |
| Références | 258 |
| CHIRURGIE UROLOGIQUE | 259 |
| LE SYNDROME DE LA JONCTION PYELO URETERALE PAR VOIE TRANSPERITONEALE SOUS COELIOSCOPIE..... | 260 |
| Laparoscopic Pyeloplasty for repair of Pelviureteric Junction Obstruction in Children | 263 |
| Laparoscopic pyeloplasty for repair of pelvic-ureteric junction obstruction in children | 266 |
| Commentaires des articles | 271 |
| Références | 272 |

| | |
|--|------------|
| REFLUX VESICO-URETERAL ET REIMPLANTATION VESICO-URETERALE ET EXTRA-VESICALE PAR VOIE TRANSPERITONEALE SOUS COELIOSCOPIE..... | 273 |
| Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Procedure in Refluxing Duplicated Collecting Systems : Initial Experience | 278 |
| Laparoscopic extravesical transperitoneal approach following the lich- Gregoir technique in the treatment of vesicoureteral reflux in children | 283 |
| Laparoscopic Extravesical Ureteral Reimplantation (LEVUR) : A Multicenter Experience with 95 Cases | 288 |
| Reimplantation ureteral extravesical laparoscopico segun tecnica de Lich-Gregoir. Estudio prospectivo a medio plazo..... | 293 |
| Commentaires des articles | 297 |
| Références | 300 |
| | |
| LAPAROSCOPIC SIMULATOR FOR URETERAL REIMPLANTATION (LAP SPUR)..... | 302 |
| Conclusions | 305 |
| | |
| CHIRURGIE ASSISTEE PAR DES AIMANTS | 306 |
| Right Nephroureterectomy using hybrid technique : Magnets assisted and mini-lap..... | 306 |
| Références | 307 |
| | |
| MALFORMATIONS DE LA PAROI THORACIQUE ET LE TRAITEMENT MINIMAL INVASIVE | 308 |
| Preliminary study of efficacy of dynamic compression system in the correction of typical pectus carinatum..... | 313 |
| Pectus Carinatum. Sistema de correction Dinamica..... | 317 |
| Les malformations de la paroi thoracique | 326 |
| Preliminary study of efficacy of depressor system in the correction of typical Pectus Excavatum..... | 338 |
| Commentaires de l'article | 351 |
| | |
| CONCLUSIONS ET PERSPECTIVES..... | 353 |

Introduction

Si la vidéo chirurgie ou chirurgie mini-invasive présente de nombreux avantages pour les patients, le chirurgien a quelques inconvénients à l'appivoiser. Tout d'abord le degré de liberté de mouvement est plus petit à travers un orifice fixe; la manipulation fine et traumatique des instruments est effectuée à travers un écran bidimensionnel ; et le chirurgien perd la sensation tactile. De même, si le principe de la chirurgie est le même, la voie d'abord et la stratégie de dissection sont différentes. La vidéo chirurgie est difficile à apprendre et nécessite un apprentissage adapté.

Pour les pionniers qui ont commencé la vidéo chirurgie au début des années 1990, la mise en route s'est avérée difficile. Il était nécessaire de réinventer l'exposition chirurgicale, de disséquer correctement dans de nouvelles conditions, de faire des ligatures et des sutures de bonne qualité au travers de trocars. D'autre part ils ont dû résister à la pression des « grands patrons », qui pour la plupart étaient des « opposants » de cette nouvelle révolution qu'était la « vidéo chirurgie », contestant en partie leurs privilèges. Ces pionniers, isolés dans leurs hôpitaux ou dans leurs universités, se sont rapidement réunis dans des groupes de recherche ou des congrès où ils ont pu tisser des liens de professionnalisme et d'amitié au-delà des frontières. Depuis l'apparition de la chirurgie mini-invasive, une énorme évolution s'est produite dans la chirurgie endoscopique, non seulement en chirurgie générale, mais aussi en chirurgie pédiatrique.

Responsabilités

Après une formation solide en chirurgie pédiatrique en Argentine, j'ai souhaité compléter cette formation pratique en venant parfaire mes connaissances en France, notamment pour la cœlioscopie où certaines équipes étaient déjà en avance. Tout d'abord au CHU de Montpellier aux côtés du Dr Hossein Allal et du Professeur Galifer où j'ai pu apprendre les différentes techniques de base de cœlioscopie et de thoracoscopie, et où je me suis investi dans l'introduction des techniques mini-invasives chez le nouveau-né. Cette formation m'a permis de réaliser de nombreuses études aboutissant à plusieurs publications. J'ai ensuite intégré l'équipe de chirurgie pédiatrique du CHU de Saint Etienne, sous la direction du Pr François Varlet, avec qui nous avons développé ou mis au point de nombreuses techniques mini-invasives chez l'enfant. Nous avons appliqué cette voie d'abord particulière à tous les champs de la chirurgie pédiatrique moderne. Pour chaque indication chirurgicale, nous avons tenté de développer une recherche clinique parallèle et nous nous sommes intéressés, plus particulièrement en urologie, au reflux vésico-urétéral, au syndrome de jonction pyélo-urétérale et au néphroblastome. Depuis 2005, l'exérèse mini-invasive des tumeurs malignes du rein chez l'enfant est une voie de recherche au CHU de Saint-Étienne, sous la direction du Pr François Varlet, avec la série plus importante publiée à ce jour (1). Le reflux vésico-urétéral est une autre voie de travail depuis 2007, et nous avons développé une technique de réimplantation vésico-urétérale qui avait été abandonnée dans les années 70 en raison des complications en rapport avec l'abord difficile de la paroi postérieure de la vessie par voie classique; nous l'avons remis en actualité compte-tenu d'un abord postérieur de la vessie beaucoup plus facile sous cœlioscopie, ce qui permet d'avoir des suites opératoires plus simples. La cure laparoscopique du syndrome

de jonction a été protocolisée et est devenue une technique courante dans le service. En chirurgie néonatale j'ai eu l'honneur de participer à la première thoracoscopie pour atrésie de l'œsophage et à la première cœlioscopie pour atrésie des voies biliaires en France en collaboration avec le Dr Hossein Allal du CHU de Montpellier. Ainsi j'ai été invité pour faire la première cure d'atrésie de l'œsophage à Paris à l'Hôpital Necker-Enfants Malades en 2009.

Après avoir participé également au développement de la thoracoscopie chez l'enfant à Saint-Etienne, j'ai souhaité aller plus loin dans la prise en charge mini-invasive, particulièrement pour les malformations de la paroi thoracique, et en 2011 j'ai pu introduire le premier en Europe des alternatives non opératoires efficaces au traitement des Pectus, alternatives jusque-là très lourdes et peu suivies : d'abord pour le Pectus Carinatum avec un système de compression dynamique léger donnant des résultats meilleurs que ceux obtenus avec la chirurgie conventionnelle ; puis pour le Pectus Excavatum par un système de dépression donnant aussi des résultats excellents quand l'indication est bien posée. J'ai très rapidement intégré l'équipe pluridisciplinaire de prise en charge des malformations de la paroi thoracique grâce au Professeur Olivier Tiffet et bénéficié de l'expérience du traitement de ces anomalies chez l'adulte, ce qui nous a permis de développer ensemble un des premiers centres multidisciplinaires de prise en charge des malformations de la paroi thoracique en Europe, voire dans le monde.

Cette Thèse a donc pour objectif de développer l'évolution de la vidéo-chirurgie chez l'enfant et de mettre en valeur certaines applications que nous avons travaillées dans les différents domaines de la cœlioscopie pédiatrique : tout d'abord dans la tolérance et la sécurité de la vidéo-chirurgie ; puis ses applications en Chirurgie Digestive et Thoracique, en Rétropéritonéoscopie, en Oncologie et en Urologie; mais aussi ses applications

dans des techniques avancées de chirurgie néonatale ainsi que l'introduction de techniques encore moins invasives comme la chirurgie assistée par aimant ou des techniques non opératoires utilisées dans le traitement de certaines malformations de la paroi thoracique, en démontrant leurs bénéfices et leur efficacité.

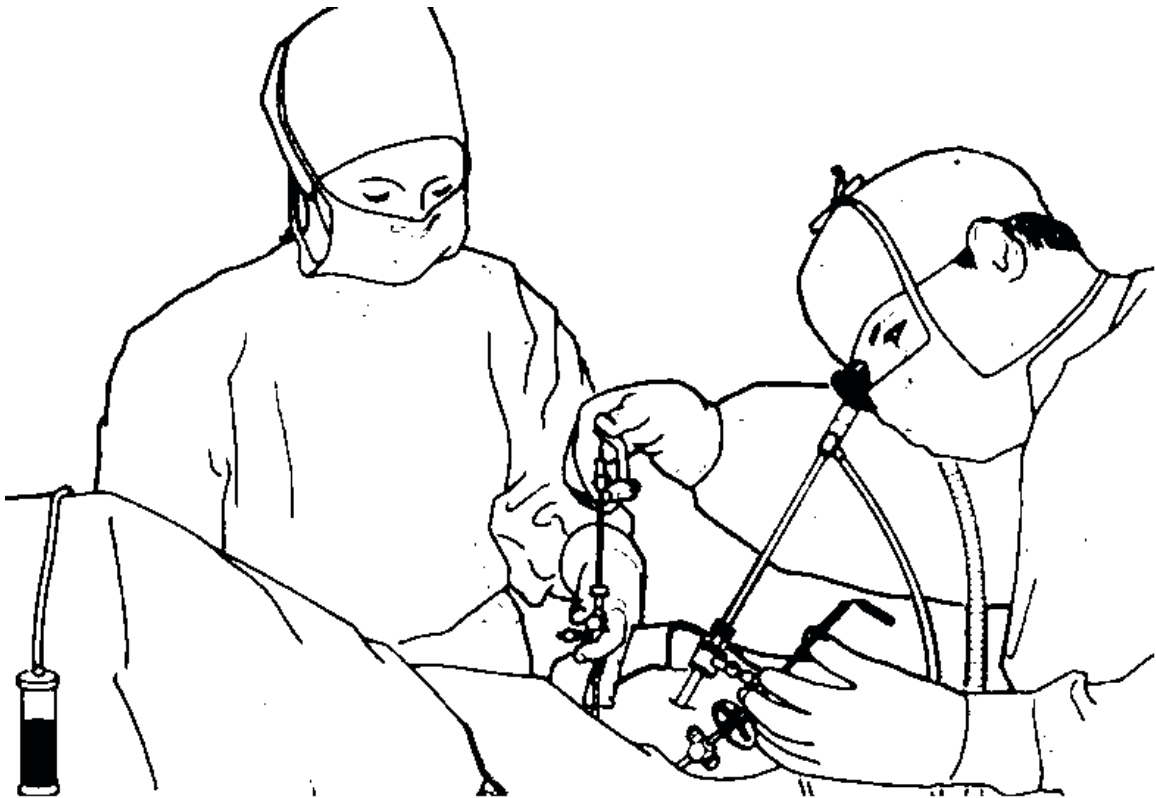
Histoire de la coelioscopie

À la fin du 19^{ème} siècle, les endoscopes ont été utilisés pour évaluer le système urinaire, le larynx, l'œsophage, l'estomac, le rectum et l'anus. À cette époque, les cavités thoracique et abdominale n'étaient pas encore accessibles à l'endoscopie. Des améliorations substantielles en chirurgie mini-invasive ont été réalisées au cours des 150 dernières années.

Dès le début de la chirurgie, l'idée que «les grands chirurgiens faisaient des grands incisions» a dominé la pensée chirurgicale. L'exposition adéquate était la clé d'une intervention sûre et efficace. Aujourd'hui, l'exposition est toujours essentielle sauf qu'elle peut être réalisée par de minimes incisions cutanées.

La première laparoscopie est attribuée à George Kelling, un chirurgien allemand. A la suite de Mikulicz qui pratiquait déjà l'insufflation de l'estomac, il a examiné la cavité abdominale d'un chien en 1901 en insérant un cystoscope par une petite incision dans la paroi abdominale, avec déjà l'utilisation d'un pneumopéritoine pour une meilleure visualisation (2). Par la suite, il a voulu appliquer cette méthode dénommée «cœlioscopie» chez l'homme, mais ses premiers patients ont refusé ou sont morts prématurément. Cependant il n'était pas le premier à publier l'utilisation de la cœlioscopie chez l'homme. Un médecin interniste suédois, Hans Christian Jacobaeus a développé sa méthode au cours de la même période et a été le premier à publier sur cette nouvelle technique endoscopique utilisée chez l'homme (3), l'appelant «laparoscopie» (Figure 1), à tort à notre avis car *laparo* signifie en grec «lombes ou flanc» alors que *coelio* signifie bien «abdomen». La même année, Bernheim, un chirurgien de l'école de médecine de «John Hopkins» aux USA, décrivit ses premières expériences avec cette technique et l'a appelée «organoscopy» (4). Au cours des décennies suivantes, plusieurs améliorations de la technique ont été développées : le trocart

de l'endoscope en 1912, la pointe pyramidale forte des trocarts de ponction en 1920 (5), l'aiguille pour l'induction du pneumopéritoine et l'insufflateur à air en 1921 (6,7) et l'élargissement de l'angle de vue du laparoscope en 1923 (8). Pour l'insufflation de la cavité abdominale, l'oxygène était utilisé jusqu'en 1924 avec un filtre à air. Puis Zollikofer, un gynécologue suisse a introduit le dioxyde de carbone, qui est toujours utilisé à ce jour. (9).



Les conditions de travail difficiles des “pionniers”

Dans les années suivantes la laparoscopie, terme que nous emploierons le plus souvent car il est le plus utilisé dans le monde, même s'il est impropre, est devenue une procédure de diagnostic acceptée et les gynécologues sont devenus les utilisateurs et les défenseurs de cette nouvelle technique. Après l'introduction de la technique de la double perforation par Kalk (10), il est devenu possible d'effectuer des interventions thérapeutiques dans la cavité abdominale. Au début

des années 1930, les premiers rapports d'interventions laparoscopiques ont été publiés par Fervers et Ruddock, principalement l'adhésiolyse et les biopsies (11). Fervers utilisait encore l'oxygène comme milieu de distension mais remarquait de petites explosions dans la cavité abdominale lorsqu'il utilisait des instruments et du courant électrique à haute fréquence pour la coagulation. Il concluait qu'il était plus sûr d'utiliser le dioxyde de carbone comme système de distension (12). Boesch, un gynécologue suisse, a effectué la première ligature de trompes par électrocoagulation en 1936 (13), et la première grossesse ectopique diagnostiquée par laparoscopie a été publiée en 1937 (14). En 1938, Janos Veress, un médecin hongrois, développait une aiguille pour créer un pneumothorax chez les patients atteints de tuberculose. Cette aiguille à ressort était composée d'un stylet intérieur mousse qui apparaissait automatiquement dès que la pointe tranchante de l'aiguille n'avait plus de résistance, évitant ainsi de perforer le poumon lors son introduction (15). L'aiguille de Veress fut rapidement adoptée par les laparoscopistes pour créer le pneumopéritoine avec un risque minime de blesser les organes intra-abdominaux et, pour la plupart des gynécologues, l'aiguille de Veress reste toujours l'instrument de choix pour créer un pneumopéritoine en 2015. La transmission de la lumière par une fibre optique a été brevetée en 1928, mais ce n'est qu'en 1952 que Fourestier (16) décrivit un procédé pour transmettre une lumière intense provenant de l'extérieur de la cavité corporelle le long d'une tige de quartz à la pointe de l'endoscope. En 1957, cette technologie était utilisée dans les télescopes flexibles et s'appelle désormais le «système de lumière froide». La révolution majeure suivante en laparoscopie fut le développement la lumière froide par Karl Storz et du système optique par Harold Hopkins en 1966 (17). Ce développement permit aux laparoscopistes de voir plus clairement et de réduire le risque de blessure thermique liée à la lumière incandescente.

La cœlioscopie est apparue en France au début de l'année 1944 avec Raoul

Palmer, chirurgien gynécologue, qui changea l'approche de la culdoscopie en position gynécologique par un accès abdominal. Palmer eut l'idée de faire pénétrer une optique rigide éclairée dans l'abdomen au travers de l'ombilic, après avoir créé artificiellement un pneumopéritoine avec du dioxyde de carbone, et à introduire des instruments à travers de petits orifices percés dans la paroi abdominale, tout en plaçant le patient en position de Trendelenburg. Pour la sécurité du patient il avait suggéré la surveillance de la pression intra-abdominale et de la maintenir à 25 mm Hg maximum (18). C'est grâce à la combinaison de ces diverses techniques qu'il a pu réaliser les premières cœlioscopies diagnostiques à cette période. S'intéressant à la stérilité féminine, Palmer pensait que, s'il pouvait observer les trompes, il comprendrait la raison de l'infertilité. La gynécologie est donc à l'origine de la mise au point des techniques mini-invasives. Une nouvelle méthode diagnostique était née, permettant de voir précocement et en toute sécurité une pathologie pelvienne. La trentaine d'années qui suivit laissa le temps d'évaluer cette méthode et d'élargir le champ des indications diagnostiques. La cœlioscopie développée en France permettait déjà, dès les années 1950, de pratiquer des biopsies et des ponctions hépatiques. Des interventions digestives étaient également effectuées par des gynécologues entraînés à libérer des adhérences péritubaires ou des adhérences péritonéales, et ce sont eux qui ont réalisé les premières appendicectomies. De même, en 1961, Palmer a été le premier gynécologue à récupérer un ovocyte pour faire une fécondation in vitro en utilisant la laparoscopie (19). Après cette publication, il y eut une croissance rapide de la laparoscopie et Patrick Septe fut inspiré par Palmer, qu'il rencontre pour la première fois en 1959, lors d'une conférence à Amsterdam. Son expérience laparoscopique est notée par Richard Edwards et leur coopération a finalement conduit à la première ponction ovocytaire laparoscopique le 10 Novembre 1977, aboutissant à une grossesse réussie (20).

Malheureusement, la courbe d'apprentissage de la laparoscopie augmentait l'incidence des complications et l'enthousiasme pour la chirurgie laparoscopique fut atténué dans les années 60 et 70. Au cours de cette période, les gynécologues ont pris les devants dans le développement de la chirurgie mini-invasive alors que la majorité de la communauté chirurgicale ignorait les possibilités de cette nouvelle technique (8). Ce n'est qu'en 1972 que Bruhat tente avec succès à Clermont-Ferrand, pour la première fois au monde, le traitement conservateur cœlioscopique d'une grossesse extra-utérine.

Toujours à cette période, le chirurgien devait maintenir l'optique au niveau de son œil avec une main pour faire la cœlioscopie, et ne pouvait opérer qu'avec l'autre main. La première appendicectomie laparoscopique a été effectuée simultanément lors d'une intervention gynécologique sous cœlioscopie (14). Ensuite les deux mains du chirurgien furent « libérées » au cours de l'évolution, la visualisation du champ opératoire étant effectuée par l'aide qui maintenait l'optique, et était disponible pour le reste de l'équipe chirurgicale. Il fut alors possible d'effectuer des procédures techniquement plus complexes. Kurt Semm, gynécologue allemand qui était un ardent défenseur de la chirurgie laparoscopique, va jouer un rôle fondamental pour maintenir « en vie » la cœlioscopie à cette période. Semm contribua au développement d'une gamme d'instruments spécifiques pour la chirurgie cœlioscopique : un dispositif automatique d'insufflation, un instrument de coagulation bipolaire, un morcellateur de tissu, un système d'aspiration et d'irrigation, et beaucoup d'autres instruments (21,22).

Quarante ans après le développement de l'aiguille Veress, et grâce aux améliorations de l'instrumentation, les interventions cœlioscopiques furent plus largement acceptées et réalisées, mais on s'aperçut rapidement que des complications survenaient de plus en plus fréquemment lors de la mise en place

du premier trocart. Cette situation a incité un gynécologue américain, Harrith Hasson en 1974, à améliorer la sécurité de la laparoscopie en développant la «technique open», qui consiste à introduire le premier trocart sous contrôle de la vue après avoir effectué une ouverture ombilicale de la cavité abdominale ; ceci a contribué à réduire significativement l'incidence des lésions intestinales (23).

Dans le même temps, Semm s'investit dans l'enseignement de la laparoscopie et développa le pelvi-training (boîte de formation), qui permet aux étudiants d'apprendre l'habileté technique et psychomotrice spécifique nécessaire pour faire de la cœlioscopie (24). Cependant il ne publie pas cette innovation car la perception professionnelle et publique de la chirurgie laparoscopique était encore hostile à cette période (25). Dans les années 70, il a même été obligé de changer le nom de la laparoscopie en « pelviscopie » (26). Au début des années 80, Camran Nezhat, gynécologue américain prouva que l'endométriose pouvait être traitée par cœlioscopie, avec des résultats aussi bons que ceux de la chirurgie ouverte (27, 28). Peu de temps après la première hystérectomie cœlioscopique fut réalisée par Harry Reich en 1988 (29). A partir de ce moment, la chirurgie cœlioscopique commença à se développer dans d'autres spécialités comme une véritable technique chirurgicale. Les chirurgiens généraux ont été relativement lents à adopter cette nouvelle approche et la première cholécystectomie laparoscopique est réalisée en 1987 par Philippe Mouret, chirurgien lyonnais. C'est sans aucun doute cette cholécystectomie qui a été à l'origine du « boum » de la cœliochirurgie digestive. Malheureusement, la procédure était toujours reçue avec un scepticisme majeur par nombre de ses collègues, et ce n'est qu'en 1993 que sa contribution à la chirurgie générale a été reconnue (30). Un des grands contributeurs à la chirurgie cœlioscopique en chirurgie générale a été Berci, chirurgien américain, qui a développé de nouveaux instruments et exploré

de nouvelles applications en coelioscopie (31). Dans les années 90 et au début du 21e siècle, l'introduction rapide de nouveaux instruments, les modifications techniques et l'utilisation de multiples trocarts ont augmenté considérablement les applications de la chirurgie coelioscopique. Dans le domaine de la chirurgie gynécologique, des procédures de plus en plus complexes ont été réalisées par des pionniers, comme Childers, Nezhat, Dargent et d'autres. Après la cholécystectomie, c'est toute la chirurgie digestive qui a pu être réalisée sous coelioscopie, progressivement jusqu'aux interventions de plus en plus complexes. La coelioscopie a conquis les domaines de la chirurgie thoracique, urologique, cardiaque, vasculaire, endocrinienne, et pédiatrique. Des progrès considérables ont été faits depuis les premières interventions. Aujourd'hui, en chirurgie digestive, la quasi-totalité des interventions abdominales peuvent être effectuées sous coelioscopie et elle est largement utilisée pour les maladies bénignes et malignes de l'abdomen.

La chirurgie robotique est considérée pour beaucoup de chirurgiens comme une évolution majeure en chirurgie mini-invasive. Le premier concept de la chirurgie robotique a été développé à la fin des années 80 dans le centre national de l'Aéronautique et de l'Espace américain (NASA) (32). En 1994, la FDA a approuvé le premier système robotique en coelioscopie (33). Plusieurs systèmes robotiques ont été développés dans les années suivantes, comme le système maître-esclave laparoscopique manipulateur (ARTEMIS®) (34) et l'EndoAssist® (34), et dans les années 90 deux systèmes robotiques complets pour la chirurgie laparoscopique ont vu le jour : le système robotique Zeus® (Computer Motion, Goleta, CA) et le Système da Vinci® Surgical (DEP) (Intuitive Surgical, Mountain View, CA). Ces deux systèmes sont télémanipulés et contrôlés par un poste de travail chirurgical. Aujourd'hui Intuitive Zeus® a le monopole de la chirurgie robotique. Les premières opérations robotiques chez les

humains ont été effectuées à la fin des années 90. Thomas Falcone, un gynécologue américain, réalise pour la première fois en 1997 une anastomose tubaire utilisant le system Zeus® (35) et les premières opérations avec le système Da Vinci voient le jour dans le domaine de la chirurgie cardiothoracique dans les années 1999 (36). Dans les années 2000, les urologues ont commencé à effectuer la prostatectomie radicale pour le cancer de prostate (37). C'était le début d'une croissance exponentielle de la chirurgie robotique.

Les dernières innovations en chirurgie cœlioscopique sont l'approche LESS (LaparoEndoscopic Single-site Surgery) et la chirurgie endoscopique transluminale par des orifices naturels (NOTES ou Natural Orifice Transluminal Endoscopic Surgery). LESS et NOTES visent à améliorer la morbidité et les résultats cosmétiques de la chirurgie laparoscopique. Le SILS (Single Incision Laparoscopic Surgery) est réalisé à travers une incision unique dans l'ombilic (38). Dans la technique « NOTES », les instruments sont introduits dans l'abdomen au travers des orifices naturels (bouche, estomac, anus et vagin) avant de traverser des organes comme l'estomac ou le vagin pour arriver dans la cavité péritonéale. De cette façon, la chirurgie laparoscopique est possible sans incision. Pour ces deux techniques, de nouveaux instruments avec courbure particulière sont nécessaires et une nouvelle courbe d'apprentissage doit être maîtrisée.

Le développement de la cœliochirurgie a représenté une véritable révolution et reste aventure passionnante, manuelle et intellectuelle. Les accidents survenus au début de la cœlioscopie, très médiatisés, ont eu lieu le plus souvent quand les règles de sécurité ont été transgressées. Il y a peu d'exemples dans l'histoire de la chirurgie où les bénéfices d'une technique se soient imposés à tous en si peu de temps.

La Coelioscopie chez l'enfant en France et à Saint Etienne

Chez l'enfant, c'est Gans et Berci (39) qui ont rapporté les premiers résultats de coelioscopie en 1973. Depuis 1989 plusieurs équipes se sont efforcées de l'appliquer chez l'enfant et de la développer : Jean-Luc Alain et Dominique Grousseau à Limoges, François Varlet, Bruno Limonne et Yves Chavrier à Saint Etienne, Philippe Montupet à Paris et Jean-Stéphane Valla à Nice. Une des premières publications en chirurgie pédiatrique en coelioscopie a été rapportée en 1992 par François Varlet (40). A cette période, la principale indication en Chirurgie pédiatrique était l'appendicectomie (41). Ses avantages, par rapport à la technique classique du " Mac Burney" sont multiples: si l'appendice est ectopique, sa recherche, sa localisation, et son ablation deviennent beaucoup plus simples; la coelioscopie permet en outre l'exploration de la totalité de la cavité abdominale et, en présence d'une appendicite aigue, il devient possible d'apprécier l'extension exacte du processus infectieux, ce qui diminue considérablement le risque d'abcès résiduel intrapéritonéal ou de péritonite à foyer multiple: si l'appendice est sain, on peut aisément vérifier l'intégrité des autres viscères et découvrir une éventuelle pathologie autre qui serait demeurée méconnue, au moins de façon temporaire, par la chirurgie classique. La toilette péritonéale est aussi plus complète et une péritonite aiguë est donc accessible à cette technique. Par ailleurs, elle diminuerait de façon très significative les séjours et les nombres de complications lie à la laparotomie, et les indications se sont élargies de plus en plus (42). Ainsi la cholécystectomie, indication majeure chez l'adulte, rare chez l'enfant, est réalisable dans de bonnes conditions. L'amélioration du confort postopératoire y est encore plus sensible qu'après appendicectomie. La pathologie annexielle chez la fille représente aussi une excellente indication de coelioscopie (kystectomie, ovariectomie, annexectomie); on peut également effectuer une transposition ovarienne avant radiothérapie, dans

le cadre d'une maladie de Hodgkin, par exemple. Chez le garçon, l'existence possible d'un testicule intra-abdominal est une indication à la coelioscopie thérapeutique. Si la gonade est hypoplasique, son exérèse est réalisée dans le même temps. Si la gonade est de bonne qualité, une ligature du pédicule spermatique est effectuée, comme premier temps visant à développer les suppléances vasculaires déférentielles et crémastériennes. La varicocèle peut aussi bénéficier de cette technique opératoire avec pose de clips sur le pédicule spermatique, équivalant à une ligature haute à ciel ouvert selon Palomo. Enfin à cette époque, les adhésiolyse et les sections de bride représentent aussi une très bonne indication. De nombreuses recherches ont visé à étendre les indications, notamment dans le traitement du reflux gastro-oesophagienne, du megaesophage, de certains kystes des voies biliaires, ou encore pour la splénectomie.

Alain, Grousseau et Terrier, à Limoges ont mis au point la pyloromyotomie extra-muqueuse par coeliochirurgie et ont ainsi traité une vingtaine de nourrisson avec d'excellents résultats (43,44). Alain insiste sur l'absence quasi totale de cicatrice cutanée, mais le débat est loin d'être terminé, car à la suite de ces publications, bon nombre de chirurgiens pédiatres ont développé la pyloromyotomie par voie ombilicale, décrite quelques années plus tôt par Bianchi (1986), avec une cicatrice à peine visible également... Cependant, l'extériorisation de l'olive pylorique nécessite un décollement sous-cutané et une large incision aponévrotique, à l'origine de complications infectieuses plus nombreuses. On peut penser que la coeliochirurgie s'imposera progressivement dans la décennie à venir, car l'état d'esprit des chirurgiens pédiatres évoluera, cette technique recherchant toujours à minimiser l'agression péritonéale.

En qui concerne l'anesthésie, il n'est pas question de coeliochirurgie sans une bonne connaissance des perturbations induites par l'insufflation de CO₂ dans

la cavité abdominale ou thoracique et d'une anesthésie adaptée, notamment s'il s'agit d'un nourrisson ou d'un nouveau-né. Le pneumopéritoine, la position de Trendelenburg et l'utilisation du CO₂ peuvent être à l'origine de perturbations hémodynamiques et respiratoires graves, imposant certaines règles strictes: contre-indication de la cœliochirurgie chez les enfants porteurs d'une cardiopathie congénitale, ou ayant présenté une maladie des membranes hyalines récente ou en cas d'hypertension intracrânienne; nécessité d'une intubation et d'une ventilation assistée, couplée à un capnomètre permettant de dépister rapidement une complication et de pouvoir adapter la ventilation pour restituer une PCO₂ normale; jamais de position de Trendelenburg supérieure à 15°, qui diminuerait le jeu diaphragmatique et augmenterait la pression artérielle pulmonaire, d'autant que les sondes d'intubation n'ont pas de ballonnet chez le tout petit ; réalisation lente et progressive du pneumopéritoine sans dépasser 10 mm Hg chez le nourrisson et 14 mm Hg chez le grand enfant.

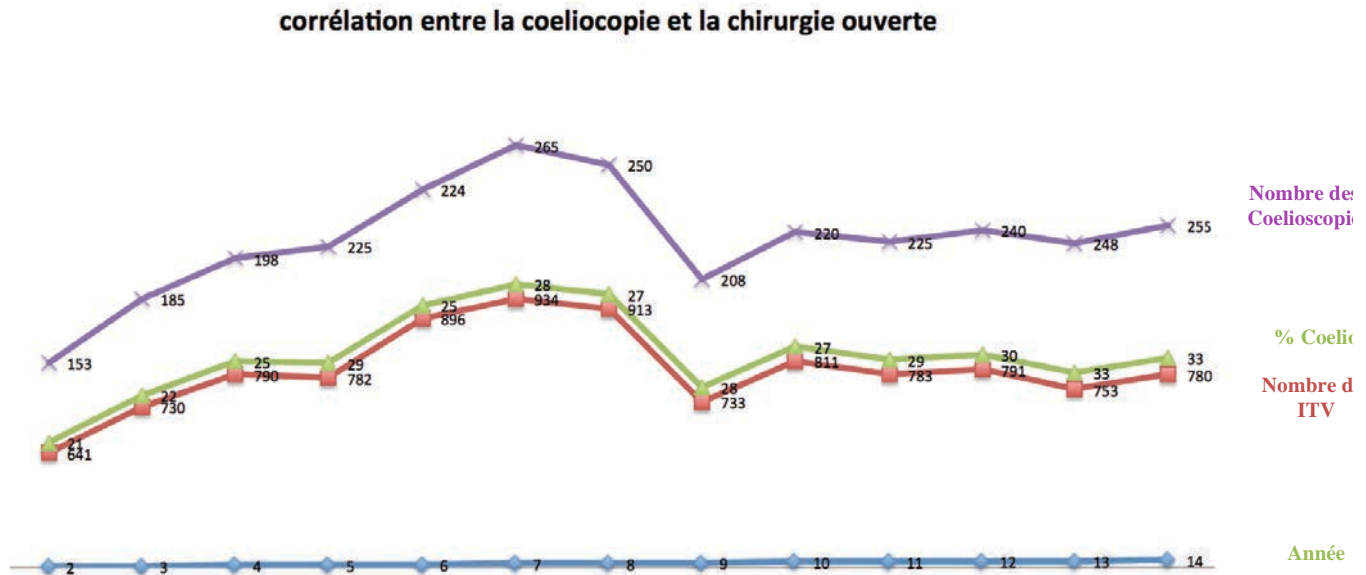
Bien évidemment il existe des limites à la cœliochirurgie: presque tous les appendices peuvent être enlevés de cette manière, mais parfois une conversion, c'est-à-dire un passage à la chirurgie à ciel ouvert, est nécessaire, par exemple devant un plastron appendiculaire ou une appendicite pseudo-tumorale, dont la dissection s'avère trop hasardeuse; cette éventuelle conversion n'est pas le fait des seules appendicites, mais peut s'avérer nécessaire dans toute chirurgie cœlioscopique, la sécurité restant le premier objectif de l'opérateur. Elle est peut-être plus le fait de l'enfant que de l'adulte, la faible taille de la cavité gênant le bon débattement de l'optique et empêchant donc une vision panoramique correcte, et la manipulation des instruments s'en trouvant également contrariée; l'amélioration permanente de l'instrumentation devrait permettre un jour de pallier cet inconvénient. Par contre, l'intervention reste totalement dépendante du bon fonctionnement du matériel, dont les pannes ne sont pas exceptionnelles.

Tout cela aboutit ou participe à un allongement du temps opératoire, en particulier lorsque l'opérateur n'est pas très entraîné à la technique. Des accidents peropératoires sont possibles et ils peuvent être graves. Il s'agit essentiellement d'accidents survenant au moment de l'introduction des trocars ou de l'aiguille d'insufflation. On a déjà rapporté des plaies de l'aorte, des vaisseaux iliaques, du colon et de l'intestin grêle, dont la reconnaissance a imposé une laparotomie immédiate. Des brûlures intestinales malencontreuses ou par phénomène d'arc électrique ont aussi abouti à des perforations et péritonites secondaires. Tout cela implique une grande prudence, et il faut se rappeler que la cœliochirurgie doit apporter une sécurité au moins aussi grande que la chirurgie classique, sinon pourquoi la choisir ? Les efforts faits actuellement pour diminuer ces accidents devraient éviter de freiner l'expansion de cette technique opératoire.

La cœliochirurgie s'avère une excellent technique chez l'enfant et va dans le sens du progrès, dans la mesure où elle permet une meilleure " visualisation " de la cavité abdominale, au prix d'un abord très minime; aussi, en postopératoire elle tend à diminuer la morbidité et à améliorer le confort. Mais ce bouleversement dans les habitudes du chirurgien ne doit pas lui faire oublier que seule une très grande rigueur peut apporter une sécurité aussi grande que la chirurgie à ciel ouvert et que cette technique ne doit pas faire déraiser les indications ; en aucun cas elle ne justifie l'exploration systématique de toute douleur abdominale sous prétexte qu'elle est simple et peu agressive.

Après l'introduction de la cœlioscopie en pédiatrie en France, très rapidement l'équipe de Saint Etienne sous la direction du Pr François Varlet, est devenue une des pionnières. A ce jour plus de 5000 procédures ont été réalisées par cette voie d'abord et elles représentent 30 % de l'activité chirurgicale (graphique 1). Parmi elles, 60% correspondent à des interventions de haute complexité dans toutes les domaines de la vidéo-chirurgie, allant de la cœlioscopie

à la thoracoscopie, à la rétropéritonéoscopie et jusqu'à la « sous-cutanéoscopie » ou plutôt vidéo-chirurgie des parties molles ; tout ceci chez le nouveau-né et le prématuré jusqu'au jeune adulte.



L'équipe de chirurgie pédiatrique du CHU de Saint-Etienne essaye d'être à la pointe du progrès en matière de cœlioscopie et d'innovations techniques. Ainsi en urologie pédiatrique, nous avons développé la réimplantation urétéro-vésicale selon Lich-Gregoir sous cœlioscopie dès 2007 et aujourd'hui le nombre de patients opérés représente une des séries mondiales les plus importantes ; d'autre part nous avons été amenés à nous déplacer fréquemment, en France et à l'étranger, pour aider nos collègues à développer cette technique attractive et efficace : Caen, Rouen, Limoges, Nice, Montpellier, Bogota, Cartagena, Tenerife, Naples, Moscou, Bruxelles, et beaucoup d'autres souhaitent notre venue.

Récemment, concernant l'utilisation « du trocart unique », très à la mode dans le milieu laparoscopique pédiatrique mondial, nous avons introduit les

premiers en Europe la chirurgie assistée par des aimants et son application chez l'enfant, après un séjour à Buenos Aires où nous avons travaillé avec le créateur de cette technique, Guillermo Dominguez ; elle peut être utilisée seule ou en complément de la laparoscopie et elle permet de réduire le nombre et la taille des incisions. La chirurgie assistée par des aimants peut être réalisée en toute sécurité et introduite de façon efficace dans la pratique chirurgicale quotidienne en chirurgie pédiatrique ; elle permet également de travailler avec un trocart unique de 10mm qui a l'avantage d'être moins volumineux que les « single ports » vendus sur le marché.

Des techniques encore moins invasives ont été introduites en Europe par moi-même, en collaboration avec la chirurgie thoracique menée par le Pr Olivier Tiffet, pour traiter certaines malformations de la paroi thoracique.

Application de la Coelioscopie en Pédiatrie

Les chirurgiens généraux ont été parmi les premiers à utiliser la chirurgie mini-invasive dans les années 1990, puis celle-ci a été transmise à d'autres spécialités. Cependant, l'enthousiasme a été « freiné » par certains chirurgiens pédiatres, pour un certain nombre de raisons: les coûts de la coelioscopie étaient jugés trop élevés, et les équipements développés pour les adultes n'étaient pas adaptés aux enfants. D'autre part, la technique mini-invasive en pédiatrie était jugée trop difficile à faire, à apprendre, trop longue à mettre en place en début d'intervention et son efficacité n'était pas prouvée. Pour beaucoup de chirurgiens pédiatres, la coelioscopie ne pouvait pas vraiment s'appliquer aux enfants et ils se flattaient déjà de faire des petites incisions, estimant donc inutile de changer de technique chirurgicale.

Au début des années 1990, on assistait à l'explosion de la chirurgie laparoscopique chez les adultes, à la suite de la réussite de la cholécystectomie laparoscopique. Néanmoins, l'intérêt pour la chirurgie laparoscopique chez les enfants est resté confiné à quelques amateurs initialement (45,46-48). Cependant, avec l'augmentation de l'expérience dans les techniques cœlioscopiques pédiatriques (49-50), et les progrès de l'instrumentation miniaturisée, la place de la cœlioscopie dans l'arsenal thérapeutique en chirurgie pédiatrique est enfin reconnue. Actuellement, la plupart des instruments pédiatriques mesurent entre 2 à 5 mm de diamètre. Les innovations technologiques telles que le bistouri à ultrasons (harmonic scalpel* et Ligasure*) ont grandement facilité la dissection laparoscopique et l'hémostase. Il est devenu clair pour beaucoup de chirurgiens que le développement de la cœliochirurgie pédiatrique a permis une nouvelle approche mini-invasive dont les bénéfices pour l'enfant et sa famille sont indiscutables, avec des séjours hospitaliers plus courts, une diminution de la douleur postopératoire, un retour plus rapide aux activités normales, ainsi qu'un retour plus rapide des parents au travail, tout ceci contrebalançant le coût élevé de la cœlioscopie.

En chirurgie pédiatrique, le spectre des patients est large, allant du prématuré à l'adolescent, ce qui ajoute une autre dimension à la complexité technique en termes de variations extrêmes de la taille du sujet à opérer. La chirurgie pédiatrique a subi un changement révolutionnaire dans ces dernières décennies, avec l'acceptation et l'adoption de la chirurgie endoscopique dans les différents groupes d'âge. C'est grâce aux efforts combinés des chirurgiens dévoués qui ont consacré un temps précieux dans la mise en œuvre, l'évaluation, l'innovation et l'adaptation des techniques cœlioscopiques, ce qui impliquaient la connaissance et la familiarisation de l'équipement existant avec la capacité de s'adapter constamment aux innovations en cours.

La perception du champ opératoire en deux dimensions nécessite une bonne coordination, un entraînement avec les procédures habituelles et l'acquisition de compétences pour les procédures les plus avancées, d'autant qu'il s'agit d'une spécialité, la chirurgie pédiatrique, où on est confronté à un grand nombre de pathologies rares. La chirurgie endoscopique comprend: la thoracoscopie, la coelioscopie ou laparoscopie et la rétropéritonéoscopie. Les progrès technologique en chirurgie pédiatrique permettent aujourd'hui, grâce à la miniaturisation des instruments, de tenir compte de l'espace de travail réduit, et de faire des modifications innovantes des techniques, au vu des pathologies en pédiatrie. L'introduction de différentes méthodes d'apprentissage a également permis d'élargir le champ d'application de la coeliochirurgie aux nouveau-nés, et aujourd'hui la chirurgie mini-invasive est largement appliquée aux nourrissons et aux enfants plus âgés. Toutefois, les petits nourrissons présentent des défis techniques importants liés en partie à la zone de travail plus petite. La performance de suture est très difficile et présente un risque de blessures des organes environnants. La chirurgie robotique permet de minimiser les risques de blessures aux tissus environnants et permet des mouvements précis et contrôlés en supprimant le tremblement du chirurgien ; le robot est réglé de telle manière que les grands mouvements de la console puissent être traduits en des mouvements beaucoup plus fins à la pointe de l'instrument. A l'avenir, la technologie robotique peut potentiellement jouer un rôle important dans l'expansion de la vidéo-chirurgie grâce à la miniaturisation des instruments robotiques.

En 1869, Charles Darwin disait: «Ce ne est pas le plus fort d'une espèce qui survit, mais celui qui est le plus adapté au changement». Les chirurgiens doivent prendre ce conseil au sérieux. En chirurgie pédiatrique les nouvelles technologiques vont s'intégrer dans la pratique habituelle et elles vont

permettre d'améliorer la prise en charge chirurgicale des enfants. Le choix ultime pour le patient doit être «la cure chirurgicale », et l'application de la coelioscopie aux problèmes chirurgicaux pédiatriques est un excellent exemple d'illustration de ce dicton.

Avantages de la Coelioscopie chez l'enfant

Les avantages potentiels de la coelioscopie ont été rapportés principalement chez l'adulte et comprennent une diminution des douleurs post-opératoires, une réduction des complications pariétales (abcès, éventration, éviscération), une réduction de la taille des cicatrices, une hospitalisation plus courte et un retour plus rapide des différentes fonctions que sont le transit intestinal et l'alimentation, ainsi qu'une reprise du travail plus précoce (51,52). D'un point de vue socio-économique, bien que le retour rapide des enfants à une activité normale après chirurgie coelioscopique n'implique pas directement la productivité d'un pays, la reprise rapide de leurs parents au travail y contribue. Les frais d'hospitalisation peuvent également être diminués grâce à une consommation moindre de médicaments liés à la douleur et surtout grâce à la réduction des séjours à l'hôpital ; plus important encore, le faible taux de complications liées à la chirurgie laparoscopique permet d'alléger les charges hospitalières, mais cela dépend en partie de l'expérience du chirurgien. Cette diminution des frais est cependant limitée par l'augmentation du temps opératoire et l'utilisation de consommables coûteux parfois. Aujourd'hui il existe plus de preuves que la coelioscopie chez l'enfant offre plus d'avantages et de bénéfices que d'inconvénients, ce qui était supposé être le cas initialement. Ces avantages ont été largement rapportés et l'emportent de façon significative ; les préoccupations concernant les difficultés techniques sont largement surmontées avec les

développements permanents du matériel laparoscopique et l'expérience des chirurgiens.

Les principes de la chirurgie en toute sécurité comprennent un accès adéquat, une bonne visualisation de l'organe concerné et un traumatisme tissulaire minime. Chez les enfants, l'accès peut être un véritable défi en raison du rapport hauteur / largeur de l'abdomen, particulièrement chez les patients de moins de 7 ans. La laparoscopie offre au chirurgien l'avantage de visualiser des zones profondes, difficiles d'accès, en offrant un bon éclairage et un grossissement, tout en réduisant le traumatisme tissulaire des organes ; qu'il s'agisse de l'organe concerné ou des organes de voisinage qui ne sont plus réclinés de façon large, comme on peut le faire en utilisant de grandes incisions de la paroi abdominale et en réclinant les organes à l'aide de compresseurs.

Un exemple de chirurgie fréquente est le traitement d'une hernie inguinale pour laquelle la laparoscopie offre des avantages significatifs par rapport aux méthodes conventionnelles et notamment une visualisation claire du canal déférent et des vaisseaux spermaticques avec réduction du risque de blessure pour ces structures. Après réduction d'une hernie étranglée, les tissus sont œdématiés et fragiles avec un risque plus élevé de complications ; l'approche laparoscopique offre encore ici une alternative plus sûre avec l'avantage de pouvoir inspecter les structures intra-abdominales réduites. Le taux de récurrence après réparation laparoscopique d'une hernie inguinale est inférieur à 1% alors que le taux global de récurrence après une cure de hernie par voie ouverte est de 0,3 à 3,8%, et de 8,6% chez le nouveau-né. L'approche laparoscopique pour hernie inguinale permet également l'évaluation du côté opposé et la fermeture de tout *processus vaginalis* alors découvert. Ceci est particulièrement important pour les nourrissons chez qui le taux de hernie synchrone découvert lors de la laparoscopie peut atteindre 40%. Le risque de hernie métachrone est de 10% chez

les enfants de plus de deux ans et peut aller jusqu'à 68% chez les nourrissons (53,54). L'approche laparoscopique a facilité le diagnostic et le traitement approprié, en évitant l'exploration inutile pour un *processus vaginalis* présumé. Chez l'enfant il s'agit d'un moyen sûr, rentable et efficace, applicable à des procédures de plus en plus complexes. Il offre des avantages significatifs par rapport à la chirurgie ouverte en cas d'appendicite perforée, avec moins de complications liées à l'incision (8,6% contre 17,6%), et moins de risque de développer des adhérences post-opératoires, 10% contre 28% (55,56). Différentes études et méta-analyses également ont démontré clairement les avantages d'une approche laparoscopique pour les appendicectomies avec une réduction des épisodes d'occlusion intestinale sur brides et également sur la qualité de vie à long terme suivi d'une appendicectomie. (57, 58,59).

Controverses en Cœlioscopie

Oncologie

La cœlioscopie a contribué de manière significative à la prise en charge des tumeurs abdominales chez l'enfant, tant sur le plan diagnostique que sur le plan thérapeutique. La cœlioscopie est un outil précieux pour la visualisation de la tumeur et l'obtention de tissu pour faire le diagnostic. La biopsie se fait sous vision directe, étant moins invasive que la biopsie par voie ouverte, elle entraîne moins de douleur post-opératoire et moins d'adhérences à la paroi abdominale. Contrairement la biopsie guidée par échographie ou scanner elle se fait sous anesthésie générale, mais offre à l'opérateur une bonne appréciation du site de biopsie et la possibilité de contrôler toute hémorragie résultante. Le lavage péritonéal peut aussi être obtenu lors de la cœlioscopie. Elle permet aussi de pouvoir faire des biopsies plus profondes et sûres que l'approche percutanée. Le

risque d'entraîner des lésions tissulaires collatérales et d'avoir un échantillonnage inadéquat est également réduit. Le chirurgien oncologue est perpétuellement confronté au défi d'obtenir un tissu de bonne qualité et en quantité suffisante pour les études immunohistochimiques, le caryotype et l'analyse moléculaire. Un mauvais diagnostic conduit à une gestion inappropriée, et doit donc être évitée à tout prix.

L'étendue de la lésion et sa résécabilité peuvent aussi être évaluées lors de la planification de la chirurgie définitive. La faisabilité de la cœlioscopie s'appuie sur l'existence d'un espace suffisant pour l'introduction de la caméra et des instruments avec création du pneumopéritoine en toute sécurité. Pour ces différentes raisons, les grosses tumeurs peuvent présenter un défi et nécessiteront une évaluation minutieuse avant de sélectionner celles pouvant bénéficier d'une chirurgie mini-invasive. Malgré ces avantages, elle reste limitée et controversée. Le développement de systèmes de coagulation tels que les pinces bipolaires ou les instruments d'électrocoagulation comme l'harmonic scalpel* ou le Ligasure*, les gels coagulants et la colle tissulaire a contribué de manière significative à la réduction du risque de saignement ainsi qu'à la gestion des complications hémorragiques en laparoscopie. Les préoccupations relatives à la diffusion de la tumeur dans la cavité péritonéale et à la survenue de métastases sur les orifices des trocars ont limité l'utilisation de la laparoscopie en oncologie alors qu'il y a peu d'exemples de ce type de complications chez l'enfant (60-63).

En gynécologie pédiatrique, le risque de rupture de la tumeur, d'exérèse incomplète et de métastases sur orifice de trocart est significativement plus élevé en cœlioscopie qu'en chirurgie ouverte (64).

En 2009, Iwanaka avait démontré que dans l'exérèse des neuroblastomes, la cœlioscopie avait réduit le délai de reprise de l'alimentation, la durée de séjour et le début de la chimiothérapie (65). L'approche trans-péritonéale était

recommandée car elle offre l'avantage de l'inspection de la glande surrénale controlatérale et de la biopsie des ganglions lymphatiques régionaux para-aortiques, ce qui est une exigence pour la classification internationale des neuroblastomes abdominaux et leur prise en charge. Bax et Van der Zee, en 2005, ont rapporté une amélioration des résultats pour la ligature de l'artère sacrée médiane et la dissection de la composante interne des tératomes sacro-coccygiens grâce à la laparoscopie (66). En 2009, Desai *et al* ont rapporté également la ligature de l'artère sacrée médiane chez un nouveau-né prématuré avec un tératome sacro-coccygien géant permettant un minimum de perte sanguine lors de l'exérèse de la tumeur (67).

Traumatisme abdominal chez l'enfant

La coelioscopie en traumatologie pédiatrique à encore une application limitée et les données disponibles sont le plus souvent des rapports de cas isolés ou peu nombreux. Il a été utilisé avec succès pour évaluer un traumatisme abdominal chez les enfants qui sont hémodynamiquement stables mais avec suspicion clinique de lésion et imagerie normale (68).

Une étude multicentrique rapportée en 2015 a démontré que chez le patient stable, la laparoscopie et la thoracoscopie peuvent être effectuées en toute sécurité et efficacement à but diagnostique et thérapeutique. Une conversion par laparotomie ou thoracotomie a été réalisée dans 35% des cas, principalement pour des raisons techniques. Dans 64% des cas la conversion était liée à des perforations intestinales nécessitant une ou plusieurs résections. Cependant, la taille de l'incision après laparoscopie peut être beaucoup plus petite que celle d'une laparotomie effectuée d'emblée, une fois toute la cavité abdominale explorée et après avoir exclu des lésions associées. La coelioscopie a réussi à traiter les lésions traumatiques dans 65% des cas (69).

Les considérations économiques

En 1997, Macarulla *et al* ont trouvé que l'approche par chirurgie ouverte dans l'appendicectomie avait un coût moyen de \$394, alors que l'approche par cœlioscopie avait un coût moyen de \$508 (70). L'équipement et les instruments laparoscopiques sont souvent à usage unique dans ces publications et ils contribuent au coût plus élevé que leurs équivalents en chirurgie ouverte, réutilisables après stérilisation. L'avantage de la réduction de séjour fait suffisamment d'économies pour couvrir le temps opératoire supplémentaire en début d'expérience et le coût des équipements. Cet avantage est plus évident lorsque la durée du séjour pour la chirurgie ouverte est normalement de quatre jours ou plus. La cœlioscopie est rentable, en particulier pour la fundoplicature, l'appendicectomie et la cholécystectomie. Une utilisation plus sélective des instruments réutilisables et le raccourcissement du temps opératoire devraient permettre d'augmenter les économies mondiales liées la laparoscopie (71).

Inconvénients et complications de la cœlioscopie

Sur le plan technique, la cœlioscopie présente un certain nombre d'inconvénients : image bidimensionnelle, réduction de retour de force tactile, difficulté à contrôler les saignements (aspiration limitée, pas de pression manuelle), limitation du nombre d'instruments, limitation des possibilités d'orientation des instruments, difficulté à suturer. Une courbe d'apprentissage est nécessaire et les compétences en cœlioscopie doivent être maintenues (72). Le défi est encore plus important pour les chirurgiens pédiatres que pour les chirurgiens d'adulte, ces derniers ayant un entraînement régulier avec des interventions comme la cholécystectomie laparoscopique pour affiner leurs

compétences. Pour cette intervention, la courbe d'apprentissage varie de 10 à 75 procédures (73). Pour la fundoplicature laparoscopique chez l'enfant, la compétence pourrait être atteinte après 25 procédures, or les indications de ce type d'intervention ne sont pas si fréquentes (74). Dans une série de pyloromyotomie laparoscopique, les bons résultats ont été obtenus après 23 procédures, mais ceux-ci ont été associés à sept complications (30%), dont six avec une reprise opératoire. La plupart des complications de la chirurgie cœlioscopique en pédiatrie sont liées à la technique. Les risques les plus importants sont dus à la mise en place du premier trocart par lésion vasculaire ou digestive particulièrement chez les patients ayant un indice de masse corporelle faible ou qui ont des antécédents de chirurgie abdominale (75). L'hémorragie est l'incident ou la complication la plus difficile à contrôler par cœlioscopie, et les enfants réagissent mal aux perturbations hémodynamiques.

Les lésions de diathermie (coagulation monopolaire) peuvent entraîner une perforation intestinale car des brûlures électriques peuvent se produire par diffusion du courant dans les tissus environnants, par un transfert d'énergie non reconnue, avec pour conséquence une perforation d'organe creux et une péritonite. La sécurité de l'électrochirurgie peut être améliorée par l'éducation chirurgicale concernant la biophysique de fréquence radio de l'énergie électrique, les choix techniques dans des instruments utilisant des systèmes de canule en métal et de l'évolution de l'ingénierie avec un système contrôlé dynamiquement pour défaut d'isolation et de couplage (76).

Une lésion digestive par inadvertance lors de l'insertion de trocart est une autre complication redoutée, d'où l'utilisation d'une technique ouverte pour l'insertion du premier trocart et le placement des trocarts suivants sous vision directe pour minimiser ce risque ; la conception de trocarts avec mécanisme de sécurité réduit ce risque, mais incomplètement et des accidents sont possibles si

on les introduit trop brusquement. L'insufflation de CO₂ peut aussi être à l'origine de complications pendant la cœlioscopie, notamment d'embolie gazeuse, de troubles cardiovasculaires et d'hypercapnie. Les risques sont minimisés par l'utilisation d'une faible pression d'insufflation de CO₂ chez les enfants. De légères augmentations d'hypercapnie en fin d'expiration et une augmentation de pression dans les voies aériennes pourraient être détectables pendant l'intervention. Cela peut généralement être compensé par une légère hyperventilation. L'état hémodynamique instable représente une contre-indication à la cœlioscopie en raison d'un temps prolongé d'exploration et du risque d'embolie gazeuse. La cœlioscopie doit être évitée chez les patients atteints de maladies cardiaques graves ou avec une insuffisance respiratoire. La cœlioscopie est plus dangereuse chez les patients avec des cicatrices abdominales et des adhérences résultant d'interventions abdominales antérieures, et chez les patients présentant un iléus, une occlusion intestinale, ou encore au cours de la grossesse. Dans le passé, un risque accru d'hypothermie a été décrit, notamment chez le nourrisson, en raison de l'utilisation de gaz froids pendant l'insufflation.

L'utilisation de la température ambiante et l'insufflation de CO₂ humidifié et chauffé serait plus approprié dans une chirurgie sous cœlioscopie prolongée, et permettrait de réduire ce risque d'hypothermie, avec moins de dommages péritonéaux et une diminution de formation des adhérences par rapport à l'insufflation de CO₂ froid et sec (77). Grâce à la connaissance de ces risques, le taux de complications est faible dans les grands centres de chirurgie cœlioscopique pédiatrique, de l'ordre de 1 à 2% (49-50). La chirurgie cœlioscopique est possible chez les nouveau-nés, à partir d'un poids de 1300g, sans complications supplémentaires (50).

Indications de la Cœlioscopie chez l'enfant

En chirurgie pédiatrique la place de la cœlioscopie est en constante évolution dans ses indications et remplace progressivement les procédures classiques. Bien que la lithiase biliaire soit plus rare chez l'enfant, la supériorité de la cholécystectomie laparoscopique sur la cholécystectomie ouverte a été confirmée (78). Le traitement laparoscopique apporte également de nombreux avantages pour un grand nombre de pathologies : appendicite aiguë (58), reflux gastro-œsophagien, sténose hypertrophique du pylore, destruction totale ou partielle du rein traitée par néphrectomie totale et néphrectomie partielle (79), hernie inguinale, testicules impalpables, pathologie ovarienne, pathologies spléniques (80), maladie de Hirschsprung (81), parmi les plus courantes. La liste est longue maintenant chez l'enfant et on peut énumérer ci-dessous les pathologies par groupes anatomiques ou régions :

Systeme gastro-intestinal

Malrotation intestinale et volvulus

Sténose hypertrophique du pylore

Fundoplicature

Cholécystectomie

Exploration de la voie biliaire

Kyste du cholédoque

Atrésie des voies biliaires

Invagination intestinale aiguë

Gastrostomie

Jejunostomie

Megaoesophage

Atrésie duodénale

Atrésie jéjunale

Duplication Intestinale

Enterolyse

Kyste du mésentère

Diverticule de Meckel

Maladie Intestinale inflammatoire

Perforation intestinale

Appendicectomie

Colectomie

Appendicostomie antérograde

continente

Malformation anorectale

Maladie de Hirschsprung

Defects de la paroi abdominale

Hernie épigastrique, inguinale et
fémorale

Obésité

Trauma

Organes solides intra-abdominaux

Splénectomie

Splénectomie partielle

Kyste hépatique, splénique

Biopsie: hépatique, pancréatique,
rénal et adrenal.

Neuroblastome

Hépatoblastome

Séquestration intra abdominale

Pancréatectomie totale et partielle

Surrenalectomie

Gynécologie

Kyste de l'ovaire

Torsion de l'ovaire

Ovariectomie

Douleur chronique

Tumeur de l'ovaire

Vaginoplastie colique

Urologie

Testicule intra-abdominal

Varicocèle

Agrandissement vésical

Jonction pyélo-ureterale

Nephroureterectomie

Héminéphrectomie

Cathéter de dialyse péritonéale

Tumeur rénale

Cloaque

Reflux vésico-uréteral

Mégauretere obstructif

Thorax

Lobectomie

Biopsie pulmonaire

Métastasectomie

Wedge pulmonaire

Pleurésie purulente

Pneumothorax

Hernie diaphragmatique congénitale

Eventration diaphragmatique

Atrésie de l'oesophage.

Œsocoplastie

Gastroplastie

| | |
|--------------------------------------|--------------------------------|
| Malformation de la paroi thoracique. | Scoliose par voie antérieure |
| Sympathectomie | Tamponnade cardiaque chronique |
| Exérèse tumorale | Thymectomie |
| Séquestration | Tumeur thoracique |
| Malformation adenomatoïde kystique | Tumeur Médiastinale |
| Séquestration pulmonaire | Hyperhydrose |
| Kyste bronchogénique | Aortopexie |

Evolution technologique de la Cœlioscopie Pédiatrique

Aujourd'hui, l'application de la cœlioscopie en pédiatrie est devenue largement populaire. L'insufflation des cavités abdominale et thoracique a des conséquences physiologiques importantes. En effet, quand la pression intra-abdominale du pneumopéritoine dépasse la capacité de la cavité péritonéale, les flux coronaires, hépatiques, mésentériques et rénaux peuvent être touchés ainsi que la pression du liquide céphalo-rachidien et la dynamique pulmonaire, pouvant conduire à des effets néfastes. C'est particulièrement vrai lorsque le volume de la cavité est réduit, comme chez les petits enfants. Une grande partie de cette physiologie a été étudiée chez les adultes, mais très peu chez l'enfant. Beaucoup de travail reste donc à faire encore sur les effets physiologiques du pneumopéritoine en pédiatrie. Les considérations anesthésiques et physiologiques sont les mêmes, sauf que l'enfant n'est pas un petit adulte. Les critères de surveillance anesthésique sont les mêmes : ventilation, température, capnie, SaO₂, etc... L'atropine utilisée comme prémédication est souhaitable, la gestion des fluides par voie intraveineuse doit être méticuleuse, l'induction avec le

Sévoflurane* est préférée avec cependant un plus grand risque de complications peropératoires chez l'enfant, et il faut donc être très vigilant à diagnostiquer et à traiter toute anomalie.

Grâce à la miniaturisation des instruments, aux progrès de l'anesthésie néonatale, et à la maîtrise croissante des chirurgiens pédiatres en vidéo-chirurgie, de nouvelles indications pour des procédures de plus en plus complexes sont progressivement introduites. L'application de la coelioscopie en période néonatale est récente, et reste le fait d'observations isolées ou de courtes séries, et pourtant des enfants de plus en plus jeunes semblent pouvoir en bénéficier. Les enfants opérés au cours des 28 premiers jours de vie présentent des caractéristiques anatomiques et cardio-respiratoires spécifiques.

La vidéo-chirurgie néonatale est possible en toute sécurité sans augmentation significative de la morbidité à condition d'une parfaite sélection des cas à risque (échographie cardiaque systématique) et d'un bon niveau de maîtrise technique. Les principaux avantages sont évidents. Elle permet d'éviter la morbidité d'une thoracotomie ou d'une laparotomie, et ses séquelles. Les excellents résultats cosmétiques et une récupération postopératoire plus rapide, tout en améliorant la qualité d'exposition grâce à la magnification de l'image pendant l'intervention donne des résultats comparables à ceux de la chirurgie ouverte.

Single incision

Un des bénéfices de la chirurgie laparoscopique est l'amélioration de l'aspect esthétique. Les chirurgiens ont voulu essayer de faire encore mieux, et cette impulsion a conduit à la faire en une seule incision, appelée couramment "Single Incision". Cette technique consiste à placer tous les instruments dans une incision cachée dans le nombril. En 2009, Todd Ponsky, rapporte la première expérience de "single incision" chez les enfants, en décrivant 72 procédures,

concluant qu'il s'agit d'une alternative sûre à la laparoscopie traditionnelle et à la chirurgie ouverte (82). Les chirurgiens pédiatres du monde entier effectuent désormais les appendicectomies à trocart unique, les cholécystectomies, et même des splénectomies ou des néphrectomies. Pourtant, cette approche crée des inconvénients mécaniques qui limitent probablement son utilisation parce que tous les instruments traversent la même incision, et la triangulation optique-instruments disparaît. Les instruments ont tendance à s'entrechoquer et la gestuelle du chirurgien s'en trouve perturbée. Les nouveaux instruments articulés peuvent surmonter ces limites, mais imposent encore au chirurgien de s'entraîner et de travailler avec des degrés de liberté réduits. D'autre part, l'incision ombilicale doit être relativement grande pour permettre de passer tous les instruments par la même ouverture et, bien que les données de la littérature soient rares sur les éventuelles complications, cette grande incision peut théoriquement conduire à une augmentation de la douleur postopératoire et des taux d'éventration qui avait disparu avec la coelioscopie. La chirurgie "single incision" dans sa forme actuelle est généralement plus difficile que l'approche laparoscopique traditionnelle. Le seul avantage démontré de la chirurgie à trocart unique est cosmétique, bien que la coelioscopie à 3 trocarts, dont 2 de 3mm, laisse des cicatrices à peine visibles.

Chirurgie Robotique

La chirurgie robotique utilise les mêmes techniques de base de la chirurgie coelioscopique, cependant, au lieu de manipuler directement les instruments, le chirurgien guide le mouvement des bras robotiques. Ainsi les "robots" actuels ne sont pas vraiment des robots, mais des télémanipulateurs avancés constitués d'une vision 3D et de fines commandes digitales. Le robot est un outil destiné à améliorer la précision des gestes grâce au déplacement des instruments dans les 3

dimensions, même dans un faible espace, ce qui est un avantage certain. Il améliore le confort du chirurgien et permettra certainement d'éviter les douleurs chroniques du cou et des épaules constatées depuis quelques années (83). Cependant, la chirurgie robotique a ses limites : coût très élevé (1,5 millions d'euros environ pour l'achat du robot et 2000€ de consommables par patient), nécessité d'utiliser de plus grands trocars, et de suivre une formation supplémentaire. Albassam a comparé la chirurgie cœlioscopique et robotique chez les enfants et n'a montré aucune différence significative concernant la douleur, le taux de complications postopératoires et la durée de séjour. La chirurgie robotique est faisable et sûre, mais doit probablement être limitée à des cas spécifiques. On attend beaucoup des améliorations technologiques des robots et de la miniaturisation des instruments dans les années à venir ainsi qu'une réduction des coûts ; la chirurgie robotique pourra alors trouver un rôle plus important en chirurgie pédiatrique. En particulier, le robot devrait trouver une place importante en combinaison avec des approches de type "single incision" où la gestuelle chirurgicale est difficile et nécessite d'utiliser des instruments courbes pour éviter de s'entrechoquer.

La chirurgie cœlioscopique assistée par des aimants.

« magnet-assisted laparoscopic surgery ».

Elle a été développée pour retrouver une partie de la triangulation qui disparaît en cas de « single port ». La chirurgie assistée par des aimants peut être réalisée en toute sécurité et introduite dans la pratique chirurgicale quotidienne chez les grands enfants, au-delà de 7-8 ans. Bien que cette technologie puisse être facilement appliquée comme un complément à la laparoscopie conventionnelle, elle permet également d'être faite par trocart unique (84-86).

Natural Orifices Transluminal Endoscopic Surgery (NOTES)

La chirurgie endoscopique transluminale par orifice naturel (NOTES) est un stade supplémentaire dans la chirurgie mini-invasive puisqu'elle permet aux chirurgiens de ne pratiquer aucune incision au niveau de la paroi abdominale. Cette fois, l'accession à la cavité péritonéale se fait grâce à des endoscopes multicanaux, au travers de l'estomac ou du vagin qui sont « perforés » ; l'opération peut être effectuée en faisant passer des instruments spécialement conçus pour les canaux de travail de l'endoscope. Cette technique a été décrite pour des appendicectomies et des cholécystectomies. Le plus grand défi pour les NOTES est la fermeture de l'orifice créé dans l'estomac ou le vagin. Cette voie d'abord n'a été que très peu utilisée par les chirurgiens pédiatres en raison du peu d'indications en chirurgie programmée. Récemment, un article rapporte un abaissement rectal trans-anal par NOTES pour un enfant présentant une maladie de Hirschsprung, permettant la mobilisation du côlon sigmoïde sans incision abdominale (87). D'autres se sont penchés sur des techniques hybrides combinant NOTES et mini laparoscopie (88), pour le traitement de l'atrésie de l'œsophage ou encore pour d'autres utilisations. Chez l'enfant, on en est toujours au stade expérimental.

Après cette large introduction sur la vidéo-chirurgie, nous allons voir plus en détail certaines applications que nous avons travaillées dans les différents domaines de la chirurgie pédiatrique, en commençant par la chirurgie néonatale.

Références

1. Varlet F, Petit T, Leclair MD, Lardy H, Geiss S, Becmeur F, Ravasse P, Rod J, de Lambert G, Braik K, Lardellier-Reynaud F, Lopez M. Laparoscopic Treatment of Renal cancer in children: A multicentric study and review of oncologic and surgical complications. *J Pediatr Urol*. 2014; 10:500-5
2. Kelling G. Uber osophagoskopie, gastrokopie und zolioskopie. *Munch Med Wochensc* 1902; 49:21-4.
3. Jacobeauss H. Uber die moglichkeit, die zystoskopie bei untersuchung seroser hohlungen anzuwenden. *Munch Med Wochenschr* 1910; 57:2090-2
4. Bernheim BM. Organoscopy: cystoscopy of the abdominal cavity. *Ann Surg* 1911; 53:764-7.
5. Orndoff BH. The peritoneoscope in diagnosis of diseases of the abdomen. *J Radiol* 1920; 1:307.
6. Veress J. Neues instrument zur ausfuhrung von brust-oder bauchpunktionen und pneumothorax behandlung. *Dtsch Med Wochenschr* 1938; 64:1480.
7. Hopkins HH. On the diffraction theory of optical images. *Proc Soc Lond* 1953; A217:408.
8. Palmer R. La coelioscopie gynécologique, ses possibilities et ses indications actuelles. *Semin Hop Paris* 1954; 30:441.
9. Zollikofer R. Zur laparoskopie. *Schweiz. Schweiz Med Wochenschr* 1924; 54:264.
10. Kalka H. the technic of laparoscopy and description of new laparoscopic instruments. *Med Klin* 1955 22; 50:696-9.
11. Ruddock JC. Peritoneoscopy. *West J Surg* 1934; 392.
12. Fervers C. Die laparoskopie mit dem cystoskope: ein beitrag zur vereinfachung der technik und zur endoskopischen strangdurchtrennung in der bauchhole. *Med Klin* 1933; 1042.

13. Boesch PF. Laparoskopie. Schweiz Z Krankenh Anstaltw 1936; 6:62.
14. Hope R. The differential diagnosis of ectopic pregnancy by peritoneoscopy Surg Gynecol Obstet 1937; 64:229.
15. Veress J. Neues instrument zur ausfuhrung von brust-oder bauchpunktionen und pneumothorax behandlung. Dtsch Med Wochenschr 1938; 64:1480.
16. Fourestier m, Gladu a, Vulmiere j. Improvements in medical endoscopy with special reference to bronchoscopy Presse Med. 1952 ;60:1292-4.
17. Hopkins HH. On the diffraction theory of optical images. Proc Soc Lond 1953; A217:408.
18. Palmer R. La coelioscopie gynécologique, ses possibilities et ses indications actuelles. Semin Hop Paris 1954; 30:441.
19. Klein R, Palmer R. Technique de prélèvement des ovules humains par ponction folliculaire sous coelioscopie. CR Seances Soc Biol Fil 1961; 155:1919-21
20. Steptoe PC, Edwards RG. Birth after the reimplantation of a human embryo 148. Lancet 1978; 2:366.
21. Semm K. Das pneumoperitoneum mit CO₂. Demling L, Ottenjann R (eds) In Endoscopie Methoden. Munich: 1967, 167.
22. Semm K. Tissue-puncher and loop-ligation: new aids for surgical therapeutic pelviscopy (laparoscopy): endoscopic intra-abdominal surgery. Endoscopy 1978; 10:119.
23. Hasson HM. Open laparoscopy vs closed laparoscopy: a comparison of complication rates. Adv Planned Parenthood 1978; 13:41.
24. Semm K. Endoscopic intraabdominal surgery. Kiel: Christian-Albrecht Universität, 1984.
25. Semm K. Endoscopic appendectomy. Endoscopy 1983; 15:59-64.
26. Semm K. Atlas of gynecologic laparoscopy and hysteroscopy. Philadelphia,

- PA: Saunders, 1975.
27. Nezhat C, Crowgey S, Nezhat F. Surgical treatment of endometriosis via laser laparoscopy. *Fertil Steril* 1986; 45:778-82.
 28. Nezhat C, Siegler A, Nezhat C, Seidman D, Luciana A. *Operative gynecologic laparoscopy: principles and techniques*. New York, NY: McGraw-Hill, 2000.
 29. Reich H, DeCaprio J, McGlynn F. Laparoscopic hysterectomy. *J Gynaecol Surg* 1989; 2:213-5.
 30. Litynski GS. Erich Muhe and the rejection of laparoscopic cholecystectomy (1985): a surgeon ahead of his time. *JLS* 1998; 2:341
 31. Berci G, Brooks PG, Paz-Partlow M. TV Laparoscopy. A new dimension in visualization and documentation of pelvic pathology. *J Reprod Med* 1986; 31:585-8.
 32. McGreevy MM, Humphries J. *Proceedings of the 1986 workshop on interactive 3-dimensional graphics*. ISBN 0897912284 1987; 1-12. Unger SW, Unger HM, Bass RT. AESOP Robotic Arm. *Surg Endosc* 1994; 8:1131.
 33. Schurr MO, Buess G, Neisius B, Voges U. Robotics and telemanipulation technologies for endoscopic surgery. A review of the ARTEMIS project. Advanced robotic telemanipulator for minimally invasive surgery. *Surg Endosc* 2000; 14:375-81.
 34. Aiono S, Gilbert JM, Soin B, Finlay PA, Gordan A. Controlled trial of the introduction of a robotic camera assistant (endoassist) for laparoscopic cholecystectomy. *Surg Endosc* 2002; 16:1267-70.
 35. Falcone T, Goldberg JM, Margossian H, Stevens L. Robotic-assisted laparoscopic microsurgical tubal anastomosis: a human pilot study. *Fertil Steril* 2000; 73:1040-2.

36. Boehm DH, Reichenspurner H, Detter C, Arnold M, Gulbins H, Meiser B, Reichart B. Clinical use of a computer-enhanced surgical robotic system for endoscopic coronary artery bypass grafting on the beating heart. *Thorac Cardiovasc Surg* 2000;48:198-202.
37. Abbou CC, Hoznek A, Salomon L, Lobontiu A, Saint F, Cicco A, Antiphon P, Chopin D. Remote laparoscopic radical prostatectomy carried out with a robot. Report of a case. *Prog Urol* 2000; 10:520-3. European Commission Joint Research Centre. <http://ec.europa.eu/dgs/jrc>. Accessed 27-3-2011.
38. Fader AN, Cohen S, Escobar PF, Gunderson C. Laparoendoscopic single-site surgery in gynecology. *Curr Opin Obstet Gynecol* 2010; 22:331-8.
39. Gans S, Berci C. Peritoneoscopy in infant and children. *J Pediatr Surg*. 1973; 8:399-405.
40. Varlet F, Chavrier Y. La coelioscopie chez l'enfant. *Pédiatrie*. 1992; 47; 243-245
41. Valla JS, Limonne B, Valla V, Montupet P, Chavrier Y. Appendicectomie chez l'enfant sous coelioscopie opératoire: 465 cas. *J Chir* 1991; 128: 306-312
42. Waldschmidt T, Schier F. Laparoscopic surgery in neonates and infants. *Euro J Pediatr surg*. 1991; 145-150
43. Alain JL, Grousseau D, Terrier G. Laparoscopie et vidéo-chirurgie dans le traitement de la sténose hypertrophique du pylore chez le nourrisson. *Presse Méd* 1990; 19:1950
44. Alain JL, Moulies D, Longis B, Grousseau D, Lansade A, Terrier G, Ugazzi M. Sténose du pylore chez le nourrisson. Apport de l'échographie et de la vidéo-chirurgie. *Pédiatrie* 1992; 47: 207-209
45. Sackier JM. Laparoscopy in pediatric surgery. *J Pediatr Surg*. 1991;26:1145-7.

46. Miller SS. Laparoscopic operations in paediatric surgery. *Br J Surg.* 1992 ;79:986-7.
47. Tan HL. The role of laparoscopic surgery in children. *Ann Chir Gynaecol.* 1994;83:143-7.
48. Najmaldin A. Minimal access surgery in paediatrics. *Arch Dis Child.* 1995 Feb;72(2):107-9.
49. Chung DH, Georgeson KE. Fundoplication and gastrostomy. *Semin Pediatr Surg.* 1998; 7:213-9.
50. Lobe TE. Laparoscopic surgery in children. *Curr Probl Surg.* 1998;35:859-948.
51. Rothenberg SS. Experience with 220 consecutive laparoscopic Nissen funduplications in infants and children. *J Pediatr Surg.* 1998;33:274-8
52. Leape LL, Ramenofsky ML. Laparoscopy in children. *Pediatrics.* 1980 Aug; 66(2):215-20.
53. Rogers DA, Lobe TE, Schropp KP. Evolving uses of laparoscopy in children. *Surg Clin North Am.* 1992;72(6):1299-313.
54. Morecroft JA, Stringer MD, Higgins M, Holmes SJ, Capps SN. Follow-up after inguinal herniotomy or surgery for hydrocele in boys. *Br J Surg.* 1993;80:1613-4.
55. Nagraj S, Sinha S, Grant H, Lakhoo K, Hitchcock R, Johnson P. The incidence of complications following primary inguinal herniotomy in babies weighing 5 kg or less. *Pediatr Surg Int.* 2006;22:500-2.
56. Nwokoma NJ, Swindells MG, Pahl K, Mathur AB, Minocha A, Kulkarni M, Tsang T. Pediatric advanced appendicitis: open versus laparoscopic approach. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech.* 2009 Apr;19:110-3
57. Nwokoma NJ, Hassett S, Tsang TT. Trocar site adhesions after laparoscopic surgery in children. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech.* 2009

Dec;19(6):511-3

58. Markar SR1, Penna M, Harris A. Laparoscopic approach to appendectomy reduces the incidence of short- and long-term post-operative bowel obstruction: systematic review and pooled analysis. *J Gastrointest Surg.* 2014;18:1683-92.
59. Varlet F, Tardieu D, Limonne B, Metafiot H, Chavrier Y. Laparoscopic versus open appendectomy in children--comparative study of 403 cases. *Eur J Pediatr Surg.* 1994;4:333-7.
60. Sartorelli KH, Partrick D, Meagher DP. Port-site recurrence after thoracoscopic resection of pulmonary metastasis owing to osteogenic sarcoma. *J Pediatr Surg* 1996;31:1443-4.
61. Wille GA, Gregory R, Guernsey JM. Tumor implantation at port site of video-assisted thoracoscopic resection of pulmonary metastasis. *West J Med* 1997;166:65-6.
62. Metzelder M, Ure B Port-site metastasis after laparoscopic biopsy of a posttransplant Burkitt lymphoma in a child. *Eur J Pediatr Surg* 2009;19:126-7
63. Berrebi D Benkirane A, Ferkdadji L, de Lagausie P, Delattre O, Chomette P, Schleiermacher G, Michon J, Peuchmaur M. Atypical desmoplastic small round cell tumor in a very young child *Ann Pathol.* 2007 Feb;27(1):53-5
64. Lacreuse I, Becmeur F, Marcellin L, Lutz P. Outcome of an adult granulosa cell tumour in an adolescent initially managed by laparoscopy. *Eur J Pediatr Surg* 2008;18:202-4
65. Iwanaka T, Arai M, Ito M, Kawashima H, Yamamoto K, Hanada R, Imaizumi S. Surgical treatment for abdominal neuroblastoma in the laparoscopic era. *Surg Endosc.* 2001;15:751-53
66. Bax KN, van der Zee DC. Laparoscopic ligation of the median sacral artery

- before excision of type I sacrococcygeal teratomas. *J Pediatr Surg.* 2005 ;40:885.
67. Desai AP, Wragg R, Kulkarni M, Tsang T. Sacrococcygeal teratoma: Excision aided by laparoscopic ligation of the median sacral artery in a premature neonate. *J Indian Assoc Pediatr Surg.* 2009; 14:39
 68. Stylianos S. Outcomes from pediatric solid organ injury: role of standardized care guidelines. *Curr Opin Pediatr.* 2005 Jun;17(3):402-6.
 69. Alemayehu H1, Clifton M, Santore M, Diesen D, Kane T, Petrosyan M, Franklin A, Lal D, Ponsky T, Nalugo M, Holcomb GW 3rd, St Peter SD. Minimally invasive surgery for pediatric trauma-a multicenter review. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2015 ;25:243-7
 70. Macarulla E1, Vallet J, Abad JM, Hussein H, Fernández E, Nieto B. Laparoscopic versus open appendectomy: a prospective randomized trial. *Surg Laparosc Endosc.* 1997;7:335-9.
 71. Luks FI, Logan J, Breuer CK, Kurkchubasche AG, Wesselhoeft CW Jr, Tracy TF Jr. Cost-effectiveness of laparoscopy in children. *Arch Pediatr Adolesc Med.* 1999 Sep;153(9):965-8.
 72. Dagash H, Chowdhury M, Pierro A. When can I be proficient in laparoscopic surgery? A systematic review of the evidence. *J Pediatr Surg.* 2003;38:720-4.
 73. Firilas AM, Jackson RJ, Smith SD. Minimally invasive surgery: the pediatric surgery experience. *J Am Coll Surg.* 1998 M;186:542-4
 74. Meehan JJ, Georgeson KE. The learning curve associated with laparoscopic antireflux surgery in infants and children. *J Pediatr Surg.* 1997;32:426-9.
 75. Mirhashemi R, Harlow BL, Ginsburg ES, Signorello LB, Berkowitz R, Feldman S. Predicting risk of complications with gynecologic laparoscopic surgery. *Obstet Gynecol.* 1998 Sep;92(3):327-31.

76. Voyles CR, Tucker RD. Education and engineering solutions for potential problems with laparoscopic monopolar electrosurgery. *Am J Surg.* 1992;164:57-62
77. Peng Y, Zheng M, Ye Q, Chen X, Yu B, Liu B. Heated and humidified CO₂ prevents hypothermia, peritoneal injury, and intra-abdominal adhesions during prolonged laparoscopic insufflations. *J Surg Res.* 2009 ;151:40-7.
78. Holcomb GW 3rd, Morgan WM 3rd, Neblett WW 3rd, Pietsch JB, O'Neill JA Jr, Shyr Y. Laparoscopic cholecystectomy in children: lessons learned from the first 100 patients. *J Pediatr Surg.* 1999;34:1236-40.
79. Holbrook C1, Abdel Salam S, Kulkarni M, Mathur A. Laparoscopic complete/partial nephroureterectomy in children in a single institution- nearly a decade of experience: what have we learned? *Pediatr Surg Int.* 2011;27:501-4.
80. Rescorla FJ1, Duffy BJ. Laparoscopic procedures on the spleen in children. *Adv Surg.* 2008;42:117-27.
81. Jona JZ, Cohen RD, Georgeson KE, Rothenberg SS. Laparoscopic pull-through procedure for Hirschsprung's disease. *Semin Pediatr Surg.* 1998;7:228-31.
82. Ponsky TA, Diluciano J, Chwals W, Parry R, Boulanger S. Early experience with single-port laparoscopic surgery in children. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2009;19:551-3.
83. Esposito C, El Ghoneimi A, Yamataka A, Rothenberg S, Bailez M, Ferro M, Gamba P, Castagnetti M, Mattioli G, Delagausie P, Antoniou D, Montupet P, Marte A, Saxena A, Bertozzi M, Philippe P, Varlet F, Lardy H, Caldamone A, Settini A, Pelizzo G, Becmeur F, Escolino M, De Pascale T, Najmaldin A, Schier F. Work-related upper limb musculoskeletal disorders in paediatric laparoscopic surgery. A multicenter survey. *J Pediatr Surg.*

- 2013 ;48:1750-6.
84. Millan C, Bignon H, Bellia G, Buella E, Rabinovich F, Albertal M, Martinez Ferro M. Novel hybrid (magnet plus curve grasper) technique during transumbilical cholecystectomy: initial experience of a promising approach. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2013 ;23:885-8.
 85. Padilla BE, Dominguez G, Millan C, Bignon H, Buella E, Bellia G, Elias ME, Albertal M, Martinez-Ferro M. Initial experience with magnet-assisted single trocar appendectomy in children. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2013 May;23(5):463-6.
 86. Padilla BE, Dominguez G, Millan C, Martinez-Ferro M. The use of magnets with single-site umbilical laparoscopic surgery. *Semin Pediatr Surg*. 2011;20:224-31
 87. Li N, Zhang W, Yu D, Sun X, Wei M, Weng Y, Feng J. NOTES for surgical treatment of long-segment hirschsprung's disease: report of three cases. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2013;23:1020-3
 88. Tyson MD1, Humphreys MR. Laparoendoscopic single-site surgery, minilaparoscopy and natural orifice transluminal endoscopic surgery in urology. *Minerva Urol Nefrol*. 2014 Mar;66(1):25-35.

Chirurgie Néonatale



Evaluation de la tolérance et la sécurité de la vidéo chirurgie néonatale.

L'utilisation de ces techniques mini-invasives chez les nourrissons et maintenant les nouveau-nés se propage lentement car les instruments chirurgicaux ont dû réduire leur taille, la courbe d'apprentissage pour les chirurgiens était relativement longue (maladies à traiter rares chez le nouveau-né) et les techniques anesthésiques pour assurer une bonne tolérance du pneumopéritoine et du pneumothorax se devaient d'être sûres et fiables, d'autre part.

Les enfants opérés au cours des 28 premiers jours de vie présentent des caractéristiques anatomiques et cardio-respiratoires spécifiques. Les stratégies de prise en charge chirurgicale et anesthésique doivent donc s'adapter à un organisme en voie de maturation. Elles ne peuvent pas se résumer à une simple transposition de celles mises en œuvre chez le grand enfant et l'adulte.

L'impact potentiel du dioxyde de carbone lors d'un pneumothorax ou d'un pneumopéritoine sur le système cardiorespiratoire immature du nouveau-né est un sujet de grande préoccupation. Peu d'études ont été publiées sur les conséquences cardiorespiratoires, et la plupart de celles qui soutiennent la faisabilité et la sécurité de ces méthodes dans le premier mois de la vie sont des rapports de cas ou de courtes séries cliniques.

Deux travaux ont fait l'objet de publications et de plusieurs communications scientifiques internationales avec comité de lecture en tant que co-auteur sous la direction du Pr Nicolas Kalfa au Centre Hospitalier Universitaire de Montpellier.

Une première étude a permis d'évaluer la tolérance de la vidéo-chirurgie néonatale et les objectifs étaient d'évaluer l'état respiratoire et hémodynamique ainsi que les effets thermiques au cours du premier mois de vie et de déterminer les facteurs de risque associés aux complications per et post-opératoire.

Tolerance of Laparoscopy and Thoracoscopy in Neonates

Nicolas Kalfa, MD*; Hossein Allal, MD*; Olivier Raux, MD‡; Manuel Lopez, MD*; Dominique Forgues, MD*; Marie-Pierre Guibal, MD*; Jean-Charles Picaud, PhD§; and René-Benoit Galifer, MD, PhD*

ABSTRACT. *Objectives.* Video-surgery in neonates is recent. Data on the respiratory, hemodynamic, and thermic effects during the first month of life are still sparse. This study aimed to evaluate the tolerance of video-surgery in neonates and to determine the risk factors of per-operative complications.

Methods. From 1994 to 2004, 49 neonates (mean age: 11 days; weight: 3285 g) underwent 50 video-surgical procedures. Indications for laparoscopy were duodenal atresias, volvulus with malrotation, pyloric stenosis, gastroesophageal reflux, cystic lymphangiomas, ovarian cysts, biliary atresia, and congenital diaphragmatic hernias; indications for thoracoscopy were esophageal atresias and tracheoesophageal fistula.

Results. Median operative time was 79 minutes. Mean insufflation pressure was 6.7 mm Hg (range: 3–13). Oxygen saturation decreased, especially with thoracic insufflation or high-pressure pneumoperitoneum. Systolic arterial pressure, which decreased in 20% of the patients, was controlled easily with vascular expansion. Thermic loss (mean postoperative temperature: 35.6°C) was proportional to the duration of insufflation. No surgical incident was noted. Ten anesthetic incidents occurred (20%), 3 of which required temporary or definitive interruption of insufflation (O₂ saturation <70%). Risk factors for an incident were low preoperative temperature, high variation of end-tidal pressure of CO₂, surgical time >100 minutes, thoracic insufflation, and a high oxygen or vascular expansion requirement at the beginning of insufflation.

Conclusion. The neonate's high sensitivity to insufflation is an important limiting factor of video-surgery. The described profile of the neonate at risk may help to reduce the frequency of adverse effects of this technique and improve its tolerance. *Pediatrics* 2005;116:e785–e791. URL: www.pediatrics.org/cgi/doi/10.1542/peds.2005-0650; *laparoscopy, minimally invasive surgery, thoracoscopy, neonate.*

From the *Département de Chirurgie Viscérale Pédiatrique, Hôpital Lapeyronie, CHU Montpellier, France; †Département d'Anesthésie Réanimation A, Hôpital Lapeyronie, CHU Montpellier, France; and ‡Département de Réanimation Pédiatrique et Néonatale, Hôpital Arnaud de Villeneuve, CHU Montpellier, France.

Accepted for publication Jun 13, 2005.

doi:10.1542/peds.2005-0650

Presented at the World Congress of Pediatric Surgery; June 22–26, 2004; Zagreb, Croatia; Award for Best Clinical Research.

No conflict of interest declared.

Address correspondence to Hossein Allal, MD, Visceral Pediatric Surgery Department, Lapeyronie Hospital, 275 Av Doyen Gaston Giraud, 34295 Montpellier, France. E-mail: h-allal@chu-montpellier.fr
PEDIATRICS (ISSN 0031 4005). Copyright © 2005 by the American Academy of Pediatrics.

ABBREVIATIONS. ETCO₂, end-tidal pressure of CO₂; O₂ sat, oxygen saturation; HR, heart rate; PIP, peak inflating pressure.

After the success of minimally invasive surgical techniques in adults, application in pediatric patients was a logical next step.^{1,2} The use of these techniques in young children spread slowly, however, because the surgical instruments had to be downsized, the learning curve was relatively long, and safe and reliable anesthetic procedures had to be developed to ensure good tolerance of pneumoperitoneum and pneumothorax. Recently, progress has accelerated and the number of procedures that are being performed in children is rising rapidly. More than 40 indications for video-surgery are currently listed, the most widely acknowledged of which are the cholecystectomy,^{3,4} fundoplication for gastroesophageal reflux,^{5–7} and splenectomy.⁸

Increasingly younger patients now benefit from these techniques, with laparoscopy and thoracoscopy in neonates among the most recent applications.⁹ Nevertheless, the potential impact of carbon dioxide pneumoperitoneum and pneumothorax on an immature neonatal cardiopulmonary system is a matter of great concern. Relatively few studies reporting on the cardiorespiratory consequences have been published,¹⁰ and most of those that support the feasibility and the safety of these methods in the first month of life are case reports or short clinical series. The advent of this new surgical procedure in such young children, given their cardiovascular, pulmonary, and thermoregulatory specificities, nevertheless requires a thorough evaluation of its tolerance. The aims of this study were to evaluate the respiratory, hemodynamic, and thermic effects of video-surgery in the first month of life and to determine the risk factors associated with per- and postoperative complications.

METHODS

Patients

From January 1994 to September 2004, 49 neonates who were undergoing 50 laparoscopic or thoracoscopic procedures in our Department of Pediatric Surgery were enrolled in this study. The indications were congenital or acquired gastrointestinal, thoracic, or genital pathologies and are summarized in Table 1. The mean age was 11 days (range: 0–28 days), and body weight ranged from 2130 to 4750 g (mean: 3285 g). The gender ratio was 2 girls to 1 boy. Eight percent of the infants were premature, but the causes (maternal–fetal infection, ruptured membranes, etc) were in all cases independent of the pathology requiring surgery. The preoperative hemodynamic status was stable in all patients. Those with mal-

TABLE 1. Indications for Laparoscopy and Thoracoscopy in 39 Neonates

| Diagnosis | Procedure | No. of Cases | Surgical Outcome |
|--|--|--------------|--|
| Laparoscopy | | | |
| Neonatal ovarian cysts | Resection of cysts (14) or ovariectomy (6) | 20 | No relapse, no second procedure required. |
| Congenital diaphragmatic hernia* | Reduction of hernia, diaphragmatic closure | 6 | Immediate closure without prosthetic material. Conversion to laparotomy in 3 cases (difficult to expose as a result of dilated bowel loops or liver). Postoperative chylothorax in 1 case. |
| Duodenal atresia | Duodeno-duodenal anastomosis | 6 | Neither postoperative fistula nor stenosis. |
| Volvulus with malrotation | Reduction of volvulus and Ladd procedure | 5 | Early postoperative feeding. Residual Ladd bands in 1 case. Conversion to laparotomy if >3 turns of volvulus. |
| Ileal atresia, duplication, or cystic lymphangioma | Ileo-ileal anastomosis | 3 | No postoperative complication. Feeding well tolerated. |
| Hypertrophic pyloric stenosis | Pyloromyotomy | 1 | No mucosal perforation. |
| Gastroesophageal reflux† | Fundoplication (Nissen) | 1 | Resolution of reflux symptoms. |
| Extrahepatic biliary atresia | Hepato-enterostomy | 1 | Complete regression of clinical and biological signs of cholestasis. No complication of the hepatojejunal anastomosis. |
| Thoracoscopy | | | |
| Esophageal atresia | Tracheoesophageal fistula closing and esophageal anastomosis | 5 | Immediate esophageal anastomosis in 4 cases. No anastomotic leakage. Esophageal stenosis in 1 case. Cul-de-sac was only approximated in 1 case with long gap atresia. |
| Tracheoesophageal fistula | Tracheoesophageal fistula closing | 1 | Definitive closure of fistula. |

One patient had an esophageal atresia and a duodenal atresia.

* Operated on for respiratory compromise and after stabilization of pulmonary hypertension.

† The indication for surgical treatment of gastroesophageal reflux was severe and threatening complications with cardiorespiratory symptoms.

formation underwent extensive preoperative examination, including cerebral ultrasonography, Doppler echocardiography, and cardiologic consultation if needed. In all cases, the parents were informed of the standard surgical procedure and the advantages and risks of video-surgery.

We excluded all newborns who required emergency surgery and had unstable preoperative hemodynamic status. Exploratory laparoscopies for diagnostic or biopsy purposes (eg, exploration of the biliary tract, liver biopsy) were also excluded, and only cases of therapeutic video-surgery were retained.

Surgical and Anesthetic Methods

The standard procedure for trocar insertion was always performed with an open technique for laparoscopy and with a Veress needle for thoracoscopy. A 3.5- to 5-mm scope with 0-degree or 30-degree vision was used. Two to 4 operative trocars were necessary. Most of the ports were 3.5 mm for 2.7-mm instruments. Anastomoses were performed with intracorporeal-knotted stitches using 5/0 resorbable sutures. The procedures for each indication are summarized in Table 1.

Premedication consisted of rectal Atropine (Renaudin, Ixasou, France) 20 µg/kg. An inhaled induction was performed with 7% sevoflurane (Sevorane [Abbott, Rungis, France]) in air and oxygen. A catheter was placed preoperatively in a major vein in all cases of intestinal atresia or diaphragmatic hernia and in low-weight infants who were at risk for hemodynamic instability. Muscle relaxation was needed for 83% of the patients (atracurium; Tracrium [Glaxo-Smith-Kline, Marly-Le-Roi, France]; 0.5 mg/kg). This was done either immediately (principally for abdominal surgery because of insufficient working space) or at the surgeon's request (elevated insufflation pressure). Peridural anesthesia with ropivacaine (Naropin [Astra-Zeneca, Rueil-Malmaison, France]; 1 mL/kg, dilution 2 mg/mL) completed the analgesia for surgery of the lower pelvis (ovarian cyst).

A controlled ventilation initially maintained the tidal volume at 10 mL/kg until hypercapnia developed. The respiratory and hemodynamic perturbations caused by insufflation were evaluated by monitoring end-tidal pressure of CO₂ (ETCO₂), oxygen saturation (O₂ sat; pulse oximetry), heart rate (HR), and blood arterial pressure (measured noninvasively with an automatic electronic

sphygmomanometer). The adjustments in ventilatory minute volume and peak inflating pressure (PIP), to ensure an ETCO₂ <40 mm Hg and O₂ sat >90%, were recorded every 5 minutes. The volume of fluid that was administered to maintain arterial systolic blood pressure >50 mm Hg was also measured. In cases of persistent alterations in ventilatory or hemodynamic constants, we noted the time to return to baseline values after the end of the insufflation. Rectal temperature was monitored continuously.

Conversion to open surgery and any surgical or anesthetic incidents were recorded, including the precipitating factor and consequences. Finally, the short-term postoperative course was studied (weaning of mechanical ventilation, length of stay in intensive care).

Statistical Methods

χ² tests for qualitative data and Student's *t* tests for quantitative data were used with SPSS 11.1 software (SPSS Inc, Chicago, IL). Tests for equal variances and 1-tailed tests were applied. Significance was accepted at the *P* < .05 level.

RESULTS

All procedures were performed with insufflation, with the duration and pressure of CO₂ pneumoperitoneum and pneumothorax varying according to the surgical indication. The mean time was 79 minutes (range: 10–190 minutes), and the mean pressure was 6.7 mm Hg (range: 3–13 mm Hg), with a maximum output of 6 L/min. For pneumothorax, the insufflation pressure ranged from 5 to 8 mm Hg (mean: 7 mm Hg, 125 minutes).

Respiratory Consequences of Insufflation (Table 2)

O₂ sat decreased in 29 (58%) patients, from 99.1% ± 0.8 to 94.2% ± 4.8 (*P* < .01). In most of these infants, the decrease was moderate and O₂ sat remained >90%. It returned to its preoperative value

TABLE 2. Respiratory Consequences of Pneumoperitoneum and Pneumothorax, With Required Adjustments in Ventilation

| | Before Insufflation | During Insufflation | P Value |
|-----------------------------|---------------------|---------------------|---------|
| Laparoscopy (n = 44) | | | |
| O ₂ sat, % | 98.8 ± 1.4 | 96.9 ± 4.6 | <.05 |
| ETCO ₂ , mm Hg | 28.2 ± 5.4 | 36.1 ± 6.9 | <.05 |
| Tidal volume, mL | 33.7 ± 12.1 | 37.1 ± 11.9 | <.05 |
| Peak inspiratory pressure | 16.9 ± 3.8 | 21.6 ± 4.8 | <.05 |
| Thoracoscopy (n = 6) | | | |
| O ₂ sat, % | 99.2 ± 1.3 | 86.8 ± 8.1 | <.05 |
| ETCO ₂ , mm Hg | 20.4 ± 8.2 | 34.2 ± 4.0 | <.05 |
| Tidal volume, mL | 31.0 ± 12.5 | 48.5 ± 15.1 | <.05 |
| Peak inspiratory pressure | 20.8 ± 4.3 | 29.2 ± 5.9 | <.05 |

Data are mean ± SD.

during surgery in 12 cases, but a moderate hypoxia, between 90% and 95%, persisted in 8 children despite high fraction of inspired O₂ (≥75%) with a spontaneous correction within 15 minutes of the end of insufflation. However, the O₂ sat decreased markedly under 80% in 4 cases. The insufflation was temporarily interrupted in 2 cases (O₂ sat <70%) to restore an acceptable saturation level and definitively stopped in 1 case. The greatest alteration in O₂ sat was observed during thoracic insufflation for thoracoscopic procedures (eg, esophageal atresia), with a mean decrease of 12.4% (maximum: 21%). These perturbations were significantly greater than during abdominal insufflation ($P < .01$). Per-operative correction nevertheless was reached in all cases once the tracheoesophageal fistula was closed.

ETCO₂ increased in 88% of the cases by an average of 9.1 ± 5.3 mm Hg. The increase was considered to be high in 8 cases (>15 mm Hg) and very high in 3 cases (>20 mm Hg). In 56% of the cases, hyperventilation did not completely correct the ETCO₂, and the return to the baseline value was reached only at the end of the insufflation; this occurred within 15 minutes in all cases. Both the pressure and the duration of CO₂ insufflation influenced the variations in ETCO₂. The smallest variations were observed with insufflation <6 mm Hg, and the ETCO₂ was significantly correlated to insufflation pressure ($P < .05$; Fig 1). These variations tended to be greater in cases of long procedures ($P > .05$; Fig 2). In 84% of the cases, an increase in ventilatory minute volume was needed to limit the perturbations once insufflation began (mean: 22.6%). The tidal volume increased from 33.4 ± 12.1 mL to 38.5 ± 12.5 mL ($P < .05$), and the PIP increased from 17.3 ± 4.0 cm H₂O to 22.2 ± 5.4 cm H₂O ($P < .05$).

Despite these ventilatory alterations, extubation on the operating table was possible in 60% of the patients. Nineteen infants required postoperative ventilatory assistance, however (mean: 3 days; range: 1–6 days). These were neonates with severe malformative disease (esophageal atresia) or pulmonary consequences of their pathology (diaphragmatic hernia), or they presented respiratory distress at extubation (Table 3).

Cardiovascular Consequences of Insufflation

In 80% of the children, the systolic blood pressure was stable during insufflation (with no variation or

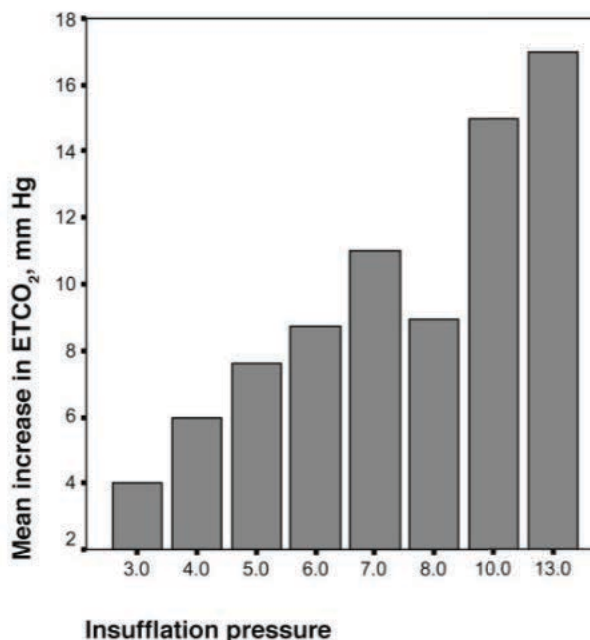


Fig 1. The mean variation in ETCO₂ depends on the insufflation pressure of pneumoperitoneum or pneumothorax ($P = .05$).

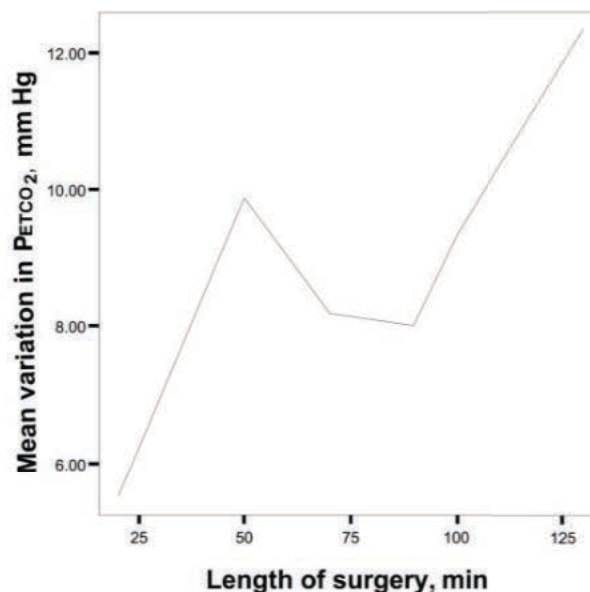


Fig 2. Variations in ETCO₂ according to the length of surgery. The observations were gathered per 25-minute insufflation period. The patients with extreme per-operative variations in ETCO₂ are not represented in this diagram.

<5 mm Hg). In these patients, an increase in HR nevertheless was observed (from 128 ± 15.9 to 140 ± 16.3 beats per minute; $P < .05$). This phenomenon was either transitory or resolved quickly when pneumoperitoneum was stopped. In 20% of the patients, blood pressure decreased by 10 mm Hg or more. Nine infants required per-operative vascular expansion with 4% albumin because of systolic blood pressure <45 mm Hg. In all cases, this single expansion was sufficient. The variation in arterial blood pressure tended to be greater in cases of esophageal

TABLE 3. Cause, Treatment, and Outcome of Incidents Encountered in 8 Neonates During Video-Surgery

| Type of Incident | Frequency | Cause | Treatment | Outcome |
|---|-----------|--------------------------------|--|---|
| Hypotensive episode | 3 | Initial insufflation | Temporary reduction of insufflation pressure | Spontaneous correction, no relapse |
| Moderate desaturation (O ₂ sat >80%) | 1 | Initial insufflation | Fio ₂ at 100% | Complete and quick regression (<10 min) |
| Severe desaturation (O ₂ sat <70%) | 3 | Initial insufflation | Insufflation stopped, ventilation with 100% O ₂ | Video-surgery continued in 2 cases, stopped in 1 case |
| Bradycardia with hypothermia <35.5°C | 1 | Length of surgery | Per-operative warming | Per-operative correction of bradycardia |
| Respiratory distress at extubation | 2 | Bilateral superior atelectasis | Re-intubation, kinesiotherapy | Extubation at day 2 |
| | | Cardiac malformation* | Re-intubation | Extubation at day 2 |

Fio₂ indicates fraction of inspired oxygen.

* Not noted during the preoperative work-up; surgical correction of the malformation required.

atresia and congenital diaphragmatic hernia than in other indications (-4.4 vs -1.6 mm Hg; not significant).

Thermic Consequences of Insufflation

The postoperative core body temperature was <36°C in 50% of the patients and <34.5°C in 12%. For 1 infant, the hypothermia (33.6°C) was complicated by an episode of bradycardia. Linear regression analysis according to the Pearson test showed a low but significant correlation ($\rho = .4$, $P < .05$) between the length of surgery and decreased temperature. The per-operative temperature loss in degrees Celsius was 0.01 of the surgical time in minutes (Fig 3). This loss was not influenced by the patient's age at the time of surgery or by weight.

Per-Operative Incidents and Risk Factors

We report no surgical incidents in our series, such as vascular lesion or intestinal perforation. No emergency conversion to laparotomy was needed. However, 10 insufflation-related incidents occurred: 5 mi-

nor incidents that did not require interruption of insufflation and 5 more threatening incidents. The incidents, causes, and outcomes are summarized in Table 3. The risk factors or events that were significantly linked to the occurrence of an incident were low preoperative body temperature, high variation of ETCO₂, high PIP after insufflation, an inspiratory oxygen fraction = 100% necessary from the start of surgery, and more frequent need of vascular expansion to maintain correct hemodynamic status (Table 4). Prematurity was not a risk factor for an incident. The premature infants (8% of the cases) nevertheless were extubated later than the others (3 ± 3 vs 0.9 ± 2.9 days; $P < .05$), whatever the surgical indication (ovarian cyst, diaphragmatic hernia).

Fourteen (32%) of the surgical procedures lasted >100 minutes. The ratio of laparoscopies ($n = 10$) to thorascopies ($n = 4$) did not differ significantly from that of the shorter surgeries (<100 minutes). Long operative time was associated with lower postoperative core body temperature; higher PIP increase; more frequent incidents, both minor and major; and more frequent stays in intensive care (Table 5).

The effects of pneumothorax were assessed in 6 patients. When compared with pneumoperitoneum, the initial required inspiratory fraction of oxygen was higher (100% fraction of inspired O₂ for the thorascopies vs 58% for the laparoscopies; $P < .01$), and vascular expansion was more often required (75% of the patients for the thorascopies vs 25% for the laparoscopies; $P < .01$). The frequency of incidents was also higher for thoracoscopy than for laparoscopy (60% vs 13%). The incidents occurred notably in cases of large permeable tracheoesophageal fistulas.

DISCUSSION

The use of minimally invasive surgery has been expanding steadily in pediatric surgical practice. Although it has been difficult to prove that infants who undergo this technique have a shorter and simpler postoperative course, some indications such as the fundoplication⁵ have clearly shown better cosmetic results and more rapid recovery. Neonates, however, have distinct physiologic and anatomic characteristics that increase the rate of surgical complica-

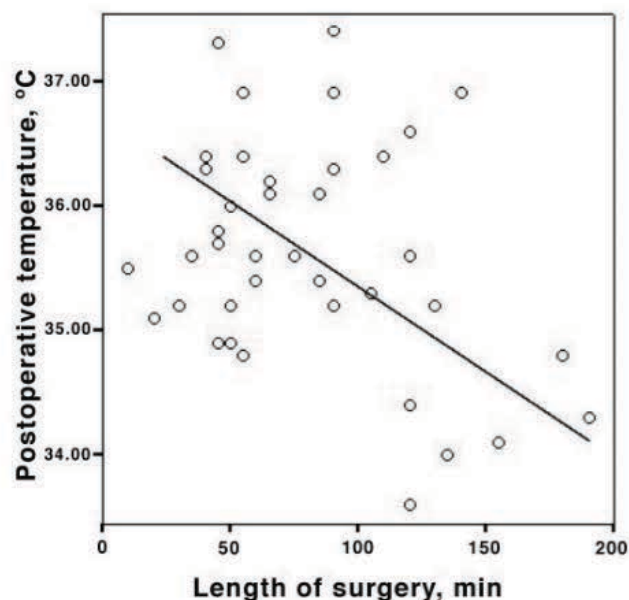


Fig 3. The decrease in body temperature during surgery is proportional to the length of insufflation (linear regression analysis, $P < .05$).

TABLE 4. Characteristics of Neonates Who Presented Incidents During or After Video-Surgery

| | Neonates With Anesthetic Incidents (n = 10) | Neonates Without Anesthetic Incidents (n = 39) | P Value |
|--|--|---|---------|
| Preoperative body temperature, °C; mean ± SD | 35.3 ± 0.5 | 36 ± 0.6 | <.05 |
| Variations of ETCO ₂ | 11.9 ± 34 | 7.6 ± 28 | <.05 |
| PIP after insufflation, cm H ₂ O; mean ± SD | 26 ± 22 | 21.4 ± 27 | <.05 |
| Proportion of patients who required an inspiratory fraction of oxygen at 100% to maintain O ₂ sat >90% at the start of insufflation | 40% | 7.7% | <.05 |
| Frequency of vascular expansion | 60% | 15.3% | <.05 |

TABLE 5. Effects of Video-Surgical Procedures Longer Than 100 Minutes in Neonates

| | Surgery <100 Min | Surgery >100 Min | P Value |
|--|------------------|------------------|---------|
| Postoperative body temperature, °C | 35.8 ± 0.5 | 34.1 ± 1.1 | <.05 |
| PIP increase, cm H ₂ O | 2.7 ± 3.4 | 9 ± 4.1 | <.01 |
| Frequency of incidents, % | 11.4 (n = 4) | 42.8 (n = 6) | <.05 |
| Frequency of postoperative intensive care, % | 25.7 (n = 9) | 71.4 (n = 10) | <.05 |

Data are mean ± SD.

tions.^{11,12} Laparoscopy and thoracoscopy thus have not been used widely in these patients, despite the reduced per-operative stress demonstrated in older populations by Fujimoto et al.¹⁰ This study was designed to evaluate the repercussions of CO₂ insufflation in infants who are younger than 1 month and to determine the characteristics of patients who are at risk for complication.

Neonatal ventilatory limitations, particularly the small airway caliber and the important instrumental deadspace, could explain the markedly perturbed gas exchanges noted in our series. The 33% increase in ETCO₂ over its initial value, despite ventilatory adjustment, was higher than that observed in adults.^{13–15} The peritoneal and pleural absorption surface per unit of weight is high in newborns.¹⁶ The low quantity of peritoneal fat and the slight distance between vessels and the serous surface increase the permeability of the peritoneum to CO₂. We found that the ETCO₂ was all the more heightened with high-pressure, thoracic, and long-duration insufflation and that a major increase in ETCO₂ was a risk factor for preoperative incident. It may expose the infant to the risk of per-operative acidosis and alteration of the cerebral circulation because it is correlated with high CO₂ arterial pressure and low pH.^{17,18}

For controlling ETCO₂ and counterbalancing a reduced respiratory compliance induced by insufflation,¹⁹ a great increase in ventilatory minute volume (22.6% in our series, 40% for Fujimoto¹⁰) and PIP was essential. However, it was applied to neonatal lungs that are highly sensitive to both volume and pressure. Although it is likely that the long-term consequences are minimal, given the short duration of the mechanical ventilation, this remains to be demonstrated.

Despite a low compliance in the neonatal myocardia,²⁰ a low functional reserve, and heightened sensitivity to changes in systolic pressure and telediastolic volume,²¹ the hemodynamic tolerance of insufflation in small infants is overall acceptable.

Gueugniaud et al²² evaluated the cardiac performance in infants of 6 to 30 months by per-operative cardiac echography and showed that the variations of cardiac output were without threatening clinical consequences. Bozkurt et al²³ confirmed the stability of arterial systolic pressure after 30 minutes of insufflation at <10 mm Hg in 27 infants of 1 month to 1 year. No hemodynamic instability in newborns was reported with an insufflation pressure of 8 mm Hg.¹⁰ In our series, the systemic arterial pressure was overall stable. The variation was null or <5 mm Hg in 80% of the cases. The use of minimal pressure nevertheless is advocated because tolerance is unknown above 13 mm Hg, and the stability of the arterial pressure does not exclude alterations of the cardiac output.^{24,25}

Postoperative hypothermia was frequent and the final temperature was <35°C in 25% of the infants. The heightened sensitivity to hypothermia in the newborns, caused by an increased caloric loss and a per-operative drop in thermogenesis, was aggravated by the frequently prolonged surgical times and the use of cold and dry gas.^{26–29} This hypothermia was well tolerated (only 1 case of bradycardia) and limited by the use of external heat sources (radiant lamps, pulsed air blankets). In all cases, it was rapidly corrected at the end of anesthesia. Nevertheless, the length of insufflation clearly influences the depth of hypothermia.

Technical innovations, advances in miniaturization, and experience have made laparoscopy and thoracoscopy safer and easier.^{30,31} Numerous publications have demonstrated the feasibility of these techniques in newborns. The major problem today is the need to establish criteria that distinguish neonates who will benefit from the techniques from those with a low tolerance for insufflation. A profile of the neonatal patient who is at risk for an insufflation-related incident emerged from our series: initially low body temperature, high variations of ETCO₂, a need for vascular expansion, and major modification in the oxygen inspiratory fraction or

PIP at the start of insufflation. When surgery unfolds in a neonate who presents these risk factors, the surgeon and the anesthesiologist should be aware that this patient is at a heightened risk for poor tolerance of the procedure. The correction of hypothermia by external warming, a reduction in the length of surgery if at all possible, and close surveillance of the hemodynamic and ventilatory status are strongly advised.

Other circumstances appeared as aggravating factors in our series. The neonates were more sensitive to thoracoscopy than laparoscopy. Pneumothorax required ventilation with a higher oxygen fraction and more frequent vascular expansion. The direct pressures on the lung and heart may impair more extensively the gas exchanges and the cardiac output. Incidents thus were more frequent with thoracoscopy. The surgical indications for thoracoscopy (esophageal atresia, tracheoesophageal fistula) may also be aggravating factors because a part of the ventilation is lost through the fistula until it is closed. Some authors thus have proposed 1-lung ventilation for thoracoscopy in small infants to avoid pressure in the chest from insufflation. This pressure can affect cardiac performance and may even impair contralateral lung function.³² One-lung ventilation has the advantage of providing good surgical exposure without the need to mechanically push back the contralateral lung and/or use insufflation to retract it into the pleural cavity.³³ However, 1-lung ventilation has never been described in neonates and would seem to pose some technical difficulties. Double-lumen endotracheal tubes of an adapted size are lacking. Bronchial blocking carries the risk for displacement of the blocker, causing tracheal obstruction because of the small size of the airways. Injury during bronchial blocking by nonspecific material such as the Fogarty balloon catheter is another risk, notably because of the high pressure generated by the balloon.³³ We observed a bronchial perforation caused by a Fogarty catheter in a young infant in our department (unpublished observation). Moreover, tolerance of thoracic video-surgery in very small children is worse under 1-lung ventilation than 2-lung ventilation.³⁴ It should also be noted that tracheal ventilation facilitates the detection of a tracheoesophageal fistula during the surgical repair of esophageal atresias, in which case, selective intubation would be inopportune. Last, insufflation of the pleural cavity, which is required to obtain a partial retraction of the lung, is accomplished with the same order of pressure as the intermittent positive intrathoracic pressure generated by mechanical ventilation.

Another risk factor of poor tolerance was the length of surgery. More than 100 minutes of insufflation required very close follow-up because of the heightened risks for hypothermia, anesthetic incidents, temporary interruption of insufflation, and delayed extubation. In contrast, patients' age and weight were not determining factors for insufflation tolerance.

Despite the diversity of surgical procedures seen in our series, this study points out the neonate's high sensitivity to insufflation as the main limitation to video-surgery. The pattern of the at-risk patient that emerged is as follows: a neonate undergoing thoracoscopy for >100 minutes, with high insufflation pressures and ETCO₂ variations, low body temperature, a need for vascular expansion, and major modification in ventilatory parameters at the start of insufflation. In addition to the widely reported feasibility of neonatal video-surgery, knowledge of these risk factors and precursor signs of incidents may help to improve the tolerance of this technique during the first month of life.

REFERENCES

- Zitsman JL. Current concepts in minimal access surgery for children. *Pediatrics*. 2003;111:1239–52
- Firilas AM, Jackson RJ, Smith SD. Minimally invasive surgery: the pediatric surgery experience. *J Am Coll Surg*. 1998;186:542–544
- Seguier-Lipszyc E, de Lagausie P, Benkerrou M, Di Napoli S, Aigrain Y. Elective laparoscopic cholecystectomy. *Surg Endosc*. 2001;15:301–304
- Holcomb GW 3rd, Olsen DO, Sharp KW. Laparoscopic cholecystectomy in the pediatric patient. *J Pediatr Surg*. 1991;26:1186–1190
- Laine S, Rantala A, Gullichsen R, Ovaska J. Laparoscopic vs conventional Nissen fundoplication. A prospective randomized study. *Surg Endosc*. 1997;11:441–444
- Allal H, Captier G, Lopez M, Forgues D, Galifer RB. Evaluation of 142 consecutive laparoscopic funduplications in children: effects of the learning curve and technical choice. *J Pediatr Surg*. 2001;36:921–926
- Rothenberg SS. Laparoscopic Nissen procedure in children. *Semin Laparosc Surg*. 2002;9:146–152
- Rescorla FJ, Engum SA, West KW, Tres Scherer LR 3rd, Rouse TM, Grosfeld JL. Laparoscopic splenectomy has become the gold standard in children. *Am Surg*. 2002;68:297–301; discussion 301–302
- Georgeson K. Minimally invasive surgery in neonates. *Semin Neonatol*. 2003;8:243–248
- Fujimoto T, Segawa O, Lane GJ, Esaki S, Miyano T. Laparoscopic surgery in newborn infants. *Surg Endosc*. 1999;13:773–777
- Coppola L, Avogaro F, Vendramin ML, Belloli GP. [Anesthesiologic management of surgery in the 1st month of life. Review of the literature and clinical contribution]. *Pediatr Med Chir*. 1985;7:503–511
- Bloch EC. Update on anesthesia management for infants and children. *Surg Clin North Am*. 1992;72:1207–1221
- Schleifer W, Bissinger U, Guggenberger H, Heuser D. Variance of cardiorespiratory parameters during gynaecological surgery with CO₂-pneumoperitoneum. *Endosc Surg Allied Technol*. 1995;3:167–170
- Wurst H, Schulte-Steinberg H, Finsterer U. [Pulmonary CO₂ elimination in laparoscopic cholecystectomy. A clinical study]. *Anaesthesist*. 1993;42:427–34
- Hirvonen EA, Nuutinen LS, Kauko M. Hemodynamic changes due to Trendelenburg positioning and pneumoperitoneum during laparoscopic hysterectomy. *Acta Anaesthesiol Scand*. 1995;39:949–955
- McHoney M, Corizia L, Eaton S, et al. Carbon dioxide elimination during laparoscopy in children is age dependent. *J Pediatr Surg*. 2003;38:105–10; discussion 105–110
- Hazebroek EJ, Haitsma JJ, Lachmann B, et al. Impact of carbon dioxide and helium insufflation on cardiorespiratory function during prolonged pneumoperitoneum in an experimental rat model. *Surg Endosc*. 2002;16:1073–1078
- Sefr R, Puszkailer K, Jagos F. Randomized trial of different intraabdominal pressures and acid-base balance alterations during laparoscopic cholecystectomy. *Surg Endosc*. 2003;17:947–950
- Makinen MT, Yli-Hankala A. Respiratory compliance during laparoscopic hiatal and inguinal hernia repair. *Can J Anaesth*. 1998;45:865–870
- Romero T, Covell J, Friedman WF. A comparison of pressure-volume relations of the fetal, newborn, and adult heart. *Am J Physiol*. 1972;222:1285–1290
- Minczak BM, Wolfson MR, Santamore WP, Shaffer TH. Developmental changes in diastolic ventricular interaction. *Pediatr Res*. 1988;23:466–469
- Gueugniaud PY, Abisseror M, Moussa M, et al. The hemodynamic effects of pneumoperitoneum during laparoscopic surgery in healthy infants: assessment by continuous esophageal aortic blood flow echodoppler. *Anesth Analg*. 1998;86:290–293

23. Bozkurt P, Kaya G, Yeker Y, Tunalı Y, Altıntaş F. The cardiorespiratory effects of laparoscopic procedures in infants. *Anaesthesia*. 1999;54:831–834
24. Huettemann E, Sakka SG, Petrat G, Schier F, Reinhart K. Left ventricular regional wall motion abnormalities during pneumoperitoneum in children. *Br J Anaesth*. 2003;90:733–736
25. Dorsay DA, Greene FL, Baysinger CL. Hemodynamic changes during laparoscopic cholecystectomy monitored with transesophageal echocardiography. *Surg Endosc*. 1995;9:128–133; discussion 133–134
26. Hazebroek EJ, Schreve MA, Visser P, De Bruin RW, Marquet RL, Bonjer HJ. Impact of temperature and humidity of carbon dioxide pneumoperitoneum on body temperature and peritoneal morphology. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2002;12:355–364
27. Moore SS, Green CR, Wang FL, Pandit SK, Hurd WW. The role of irrigation in the development of hypothermia during laparoscopic surgery. *Am J Obstet Gynecol*. 1997;176:598–602
28. Ott DE. Laparoscopic hypothermia. *J Laparoendosc Surg*. 1991;1:127–131
29. Gray RI, Ott DE, Henderson AC, Cochran SA, Roth EA. Severe local hypothermia from laparoscopic gas evaporative jet cooling: a mechanism to explain clinical observations. *JSLs*. 1999;3:171–177
30. Esposito C, Ascione G, Garipoli V, De Bernardo G, Esposito G. Complications of pediatric laparoscopic surgery. *Surg Endosc*. 1997;11:655–657
31. Peters CA. Complications in pediatric urological laparoscopy: results of a survey. *J Urol*. 1996;155:1070–1073
32. Miyaji K, Ka K, Okamoto H, Takasaki T, Ohara K, Yoshimura H. One-lung ventilation for video-assisted thoracoscopic interruption of patent ductus arteriosus. *Surg Today*. 2004;34:1006–1009
33. Hammer GB, Harrison TK, Vricella LA, Black MD, Krane EJ. Single lung ventilation in children using a new paediatric bronchial blocker. *Paediatr Anaesth*. 2002;12:69–72
34. Muralidhar K, Shetty DP. Ventilation strategy for video-assisted thoracoscopic clipping of patent ductus arteriosus in children. *Paediatr Anaesth*. 2001;11:45–48

Commentaires de l'article

La chirurgie mini-invasive a été utilisée avec une croissance soutenue dans la pratique chirurgicale pédiatrique et dans certaines équipes. Bien qu'il ait été difficile de prouver que les enfants traités par cette technique ont une évolution post-opératoire plus courte et plus simple, certaines indications telles que les fundoplicatures ont clairement montré de meilleurs résultats cosmétiques et une récupération plus rapide. Les nouveau-nés, cependant, ont des caractéristiques physiologiques et anatomiques distinctes susceptibles d'augmenter le taux de complications chirurgicales, réduisant ou empêchant l'utilisation de la laparoscopie et de la thoracoscopie chez ces patients.

Cette étude évalue les répercussions de l'insufflation de CO₂ chez les nourrissons âgés de moins de 1 mois afin de déterminer les caractéristiques de ceux présentant un risque de complication. Les limitations ventilatoires néonatales, en particulier le petit calibre des voies aériennes et l'espace mort, pourraient expliquer les échanges de gaz nettement perturbés trouvés dans notre série. L'augmentation de 33% de l'ETCO₂ par rapport à sa valeur initiale était supérieure à celle observée chez les adultes malgré les ajustements ventilatoires. L'absorption du CO₂ par la surface péritonéale et pleurale et par unité de poids est élevée chez les nouveau-nés, liée à la faible quantité de graisse péritonéale et à leur faible épaisseur. Nous avons trouvé qu'une augmentation importante de l'ETCO₂ était un facteur d'incident per-opératoire, de type acidose et altération de la circulation cérébrale car il est corrélé avec une pression artérielle élevée de CO₂ et à un faible pH. Pour contrôler l'ETCO₂ et contrebalancer une compliance respiratoire réduite, induite par l'insufflation de CO₂, une augmentation importante de la fréquence respiratoire et de la PIP, de 22,6% dans notre série et de 40% pour Fujimoto (10) était indispensable. Cependant, il a été appliqué aux poumons néonataux malgré le risque de barotraumatisme. Bien qu'il soit probable

que les conséquences à long terme soient minimales, compte tenu de la courte durée de la ventilation mécanique, cela reste à démontrer. Sur le plan cardiaque, ces modifications restent acceptables malgré une faible compliance du myocarde, une faible réserve fonctionnelle et une sensibilité aux variations de la pression systolique et télédiastolique du volume.

Gueugniaud a évalué la performance cardiaque chez les nourrissons de 6 à 30 mois par échographie cardiaque per-opératoire et a montré que les variations du débit cardiaque étaient sans conséquence clinique (1). Bozkurt confirme la stabilité de la pression artérielle systolique après 30 minutes d'insufflation à 10 mm Hg chez 27 nourrissons de 1 mois à 1 an (2). Aucune instabilité hémodynamique chez les nouveau-nés n'a été rapportée avec une pression d'insufflation de 8 mm Hg. Dans notre série, la pression artérielle systémique était toujours stable. La variation est nulle à 5 mm Hg dans 80% des cas. L'hypothermie postopératoire était fréquente et la température finale était de 35°C chez 25% des nourrissons. L'hypothermie chez les nouveau-nés, causée par une perte calorique et une baisse peropératoire de la thermogénèse, est aggravée par les temps chirurgicaux souvent prolongées et l'utilisation du gaz froid et sec. Cette hypothermie a été bien tolérée (seulement 1 cas de bradycardie) et limitée par l'utilisation de sources de chaleur externe. Dans tous les cas, elle a été rapidement corrigée à la fin de l'anesthésie. Néanmoins, la durée de l'insufflation influence nettement la profondeur de l'hypothermie. Les innovations techniques, les progrès de la miniaturisation et l'expérience des chirurgiens ont fait la laparoscopie et la thoracoscopie plus sûre et plus facile. De nombreuses publications ont démontré la faisabilité de ces techniques chez les nouveau-nés. Le principal problème aujourd'hui est la nécessité d'établir des critères spécifiques pour les nouveau-nés afin de distinguer ceux qui auront une faible tolérance pour l'insufflation. Le profil du patient nouveau-né à risque de faire un

incident lié à l'insufflation, d'après notre étude, est le suivant : faible température initiale du corps, fortes variations de l'ETCO₂, besoin d'expansion vasculaire, modification majeure de la fraction inspiratoire d'oxygène ou de la PIP au début de l'insufflation. Le chirurgien et l'anesthésiste doivent être conscients, chez ces patients, du risque de mauvaise tolérance de la procédure. La correction de l'hypothermie par le réchauffement externe, une réduction de la durée de la chirurgie, si possible, et la surveillance étroite de l'état hémodynamique et respiratoire sont obligatoires. D'autres circonstances sont apparues comme des facteurs aggravants dans notre série, et notamment les nouveau-nés sont plus sensibles à la thoracoscopie qu'à la laparoscopie. Le pneumothorax nécessite une ventilation avec une fraction d'oxygène plus élevée et l'expansion vasculaire est plus fréquente. Les pressions directes sur les poumons et le cœur peuvent aggraver de manière plus importante les échanges gazeux et le débit cardiaque. Les incidents étaient donc plus fréquents avec la thoracoscopie, d'autant que les indications chirurgicales comme l'atrésie de l'œsophage peuvent également être des facteurs aggravants, une partie de la ventilation étant perdue par la fistule jusqu'à sa fermeture. Certains auteurs ont donc proposé une ventilation sur un seul poumon chez le nouveau-né, pour éviter une pression trop importante dans l'hémithorax insufflé. Mais elle peut affecter la performance cardiaque et peut même nuire à la fonction du poumon controlatéral. L'exclusion pulmonaire n'a jamais été décrite chez les nouveau-nés et semble poser quelques difficultés techniques. Les sondes endo-trachéales à double lumière ne sont pas adaptées ; les bloqueurs bronchiques présentent un risque de déplacement, provoquant une obstruction de la trachée en raison de la petite taille des voies respiratoires. Il convient également de noter que la ventilation trachéale facilite la détection d'une fistule trachéo-œsophagienne pendant la cure chirurgicale d'une atrésie de l'œsophage, et dans ce cas, l'intubation sélective serait inopportune. Enfin,

l'insufflation de la cavité pleurale, qui est nécessaire pour obtenir une rétraction partielle du poumon, est réalisée avec le même ordre de pression que la pression intrathoracique positive intermittente générée par la ventilation mécanique. Un autre facteur de risque de mauvaise tolérance était la durée de la chirurgie avec des risques d'hypothermie quand l'intervention était supérieure à 100 minutes. Malgré la diversité des procédures chirurgicales dans notre série, cette étude souligne la sensibilité du nouveau-né à l'insufflation comme principale limitation à la vidéo-chirurgie. En conclusion, l'indication « à risque » est la suivante : une thoracoscopie du nouveau-né avec une durée d'intervention de plus de 100 minutes, de fortes pressions d'insufflation et des variations de l'ETCO₂, une température corporelle basse, un besoin d'expansion vasculaire, et une modification majeure des paramètres ventilatoires en début d'insufflation. La faisabilité de la vidéo-chirurgie chez le nouveau-né est de plus en plus rapportée et la connaissance de ces facteurs de risque permettra d'aider à améliorer progressivement la tolérance de cette technique au cours des premiers mois de la vie.

Pour évaluer cette technique en chirurgie néonatale, nous nous sommes basés sur une série de patients porteurs de pathologies congénitales ou acquises, concernant les sphères digestive, thoracique ou génitale, -ayant bénéficié d'un traitement par vidéo-chirurgie, laparoscopie et/ou thoracoscopie au cours des 28 premiers jours de vie -chez un enfant hémodynamiquement stable, en dehors de toute urgence chirurgicale extrême. Ont été exclus de l'étude les nouveau-nés ayant subi une laparoscopie exploratrice, à visée diagnostique ou biopsique (exploration des voies biliaires, biopsies hépatiques par exemple) pour ne retenir que les actes vidéo-chirurgicaux thérapeutiques.

La tolérance hémodynamique nous n'avons rencontré de problème majeur et les quelques cas d'hypotension transitoire ont été bien contrôlés par un simple

remplissage. Sous l'effet de l'insufflation abdominale ou thoracique, la spO_2 diminue en moyenne de 99,1% à 95,8 %, soit une diminution globale de 3,3 % de saturation. Cette baisse est significative ($p < 0,001$) et concerne 57 % des enfants (20 sujets). Elle est tout de même corrigée pendant l'intervention dans la majorité des cas. Elle est plus marquée en cas d'insufflation thoracique. La pression expiratoire en CO_2 augmente dans 95 % des cas après insufflation, elle est en moyenne de 32% de sa valeur initiale. Elle est jugée importante dans 6 cas (hausse de plus de 15 points), et très importante dans un cas (+ 21).

Dans 1/3 des cas, la correction est possible en per opératoire sans interruption de l'insufflation. Dans 2/3 des cas, c'est l'arrêt de l'insufflation en fin d'intervention qui permet le retour de la $Pet CO_2$ à son niveau de base. Cette correction s'effectue rapidement, toujours en moins de 15 minutes, sauf incident comme nous le verrons plus loin. Dans notre série, la $Pet CO_2$ s'est donc élevée en moyenne de 10 mm Hg, malgré l'adaptation de la ventilation (augmentation de la fréquence respiratoire et du volume courant). Cette variation est supérieure à celle décrite chez l'adulte. L'adaptation des paramètres ventilatoires conduit à une augmentation du volume courant d'autant plus importante que la variation de $Pet CO_2$ est importante.

La pression d'inspiration maximale (pic), est la pression max exercée par la ventilation mécanique augmente. C'est elle qui expose au risque de barotraumatisme. L'hyperventilation pour maintenir une $Pet CO_2$ et une SpO_2 acceptables est plus importante chez le nouveau-né. Dans notre série, après insufflation, l'augmentation de la ventilation minute est de 22%, avec le plus souvent une correction partielle de la $Pet CO_2$. Chez 4 enfants la perte thermique per-opératoire est supérieure à $1^\circ C$, avec un maximum de $1,9^\circ C$. Dans ces cas, le temps de récupération est très variable, de quelques dizaines de minutes à plus de 1h30. Cette perte calorique s'accroît au cours de l'intervention et la température

corporelle finale dépend de la durée opératoire. Par régression linéaire, on estime le refroidissement per opératoire en degrés à 1 centième de la durée opératoire en minute. Non influencée par l'âge du patient au moment de l'intervention ni par son poids.

Pour étudier spécifiquement l'effet de la température lors de l'insufflation, nous considérons comme température de départ celle enregistrée en début d'insufflation et non celle à l'induction de l'anesthésie. Il n'en reste pas moins que la température corporelle finale semble plus basse dans le cadre de la vidéo-chirurgie. Le refroidissement corporel est comparable à celui observé chez le plus grand mais il se surajoute à celui déjà important provoqué par l'anesthésie. Cette hypothermie nous semble néanmoins acceptable car: elle peut être rapidement corrigée dès l'arrêt de l'anesthésie, elle est dans l'ensemble bien tolérée (1 seul cas de bradycardie dans notre série), elle peut être prévenue ou pour le moins limitée.

Quels sont les facteurs influençant la tolérance ventilatoire et donc ceux sur lesquels on pourra agir pour améliorer la tolérance ? La pression d'insufflation semble corrélée à la variation de pet CO_2 qui est un marqueur de la tolérance respiratoire. Les interventions les plus longues (plus de 100 min) sont donc un facteur de risque, d'incidents mineurs ou majeurs plus fréquents, d'une extubation plus tardive et d'un séjour en réanimation plus fréquent. L'étude des patients ayant développé un incident a permis d'établir le profil type du nouveau-né à risque avaient une température corporelle pré opératoire basse, nécessitaient pour maintenir une bonne hématoxémie: une fraction inspiratoire en oxygène d'emblée élevée, une variation importante de volume courant présentaient une pression de crête élevée après insufflation nécessitant plus fréquemment un remplissage pour maintenir à l'insufflation un état hémodynamique satisfaisant.

Avant intervention, un bilan exhaustif des malformations associées, quelle que soit l'indication opératoire, est indispensable pour éviter les complications rares mais graves liées à une décompensation d'une anomalie cardiaque : l'échographie cardiaque doit être systématique.

L'application de la vidéo-chirurgie au champ de la néonatalogie est possible et les résultats restent à valider. Les évolutions technologiques actuelles et l'enthousiasme pour cette nouvelle méthode opératoire vont sans doute contribuer à son développement et à l'extension de ses indications. Cependant elle doit rester l'apanage d'opérateurs ou d'équipes déjà rompus à la vidéo-chirurgie du plus grand et son application, chez nos patients les plus fragiles, est un problème éthique délicat.

Toute avancée médicale et plus particulièrement chirurgicale nécessite un apprentissage et une prise de risques, calculée certes, mais toujours aux conséquences aléatoires. Mais dans le sujet qui nous préoccupe, nous proposons à des enfants fragiles du fait de leur âge et de leur pathologie, des techniques nouvelles, dont nous ne connaissons pas encore tous les inconvénients ou complications, alors que cette même pathologie est curable par des techniques classiques, fiables, codifiées, aux risques connus et le plus souvent modérés. Que dire dans ces conditions de la notion déjà soulignée de « learning curve » ? L'utilisation de simulateur doit limiter ce phénomène.

Puis nous avons participé à l'étude multicentrique ci-dessous permettant d'évaluer efficacement la tolérance et la sécurité de la vidéo chirurgie chez le nouveau-né.

Références

1. Gueugniaud PY, Abisseror M, Moussa M, et al. The hemodynamic effects of pneumoperitoneum during laparoscopic surgery in healthy infants: assessment by continuous esophageal aortic blood flow echo-Doppler. *Anesth Analg.* 1998; 86:290 –293
2. Bozkurt P, Kaya G, Yeker Y, Tunali Y, Altintas F. The cardiorespiratory effects of laparoscopic procedures in infants. *Anaesthesia.* 1999; 54: 831–834



Multicentric assessment of the safety of neonatal videosurgery

Nicolas Kalfa,¹ Hossein Allal,¹ Olivier Raux,² Hubert Lardy,³ Francois Varlet,⁴ Olivier Reinberg,⁵ Guillaume Podevin,⁶ Yves H eloury,⁶ Francois Becmeur,⁷ Isabelle Talon,⁷ Luke Harper,⁸ Pierre Vergnes,⁸ Dominique Forgues,¹ Manuel Lopez,¹ Marie-Pierre Guibal,¹ Rene-Benoit Galifer¹

¹ Service de Chirurgie Visc erale P diatrique, H pital Lapeyronie, 275 Av Doyen Gaston Giraud 34295 Montpellier, France

² D partement d'Anesth sie R animation A, H pital Lapeyronie, 275 Av Doyen Gaston Giraud 34295 Montpellier, France

³ Service de Chirurgie Visc erale P diatrique, H pital Clocheville, CHU Tours, France

⁴ Service de Chirurgie Infantile, H pital Nord, CHU St Etienne, France

⁵ Service de Chirurgie Visc erale P diatrique, H pital Vaudois, CHUV Lausanne, Switzerland

⁶ Service de Chirurgie P diatrique, H pital M re-Enfant, CHU Nantes, France

⁷ Service de Chirurgie Infantile, H pital de HautePierre, CHU Strasbourg, France

⁸ Service de Chirurgie P diatrique, H pital Pellegrin-Enfants, CHU Bordeaux, France

Received: 18 January 2006/Accepted: 31 May 2006/Online publication: 13 December 2006

Abstract

Background: Complex procedures for managing congenital abnormalities are reported to be feasible. However, neonatal videosurgery involves very specific physiologic constraints. This study evaluated the safety and complication rate of videosurgery during the first month of life and sought to determine both the risk factors of perioperative complications and the most recent trends in practice.

Methods: From 1993 to 2005, 218 neonates (mean age, 16 days; weight, 3,386 g) from seven European university hospitals were enrolled in a retrospective study. The surgical indications for laparoscopy ($n = 204$) and thoracoscopy ($n = 14$) were congenital abnormalities or exploratory procedures.

Results: Of the 16 surgical incidents that occurred (7.5%), mainly before 2001, 11 were minor (parietal hematoma, eventration). Three neonates had repeat surgery for incomplete treatment of pyloric stenosis. In two cases, the incidents were more threatening (duodenal wound, diaphragmatic artery injury), but without further consequences. No mortality is reported. The 26 anesthetic incidents (12%) that occurred during insufflation included desaturation (<80% despite 100% oxygen ventilation) ($n = 8$), transient hypotension requiring vascular expansion ($n = 7$), hypercapnia (>45 mmHg) ($n = 5$), hypothermia (<34.9°C) ($n = 4$), and metabolic acidosis ($n = 2$). The insufflation had to be stopped in 7% of the cases (transiently in 9 cases, definitively in 6 cases). The significant risk factors for an incident ($p < 0.05$) were young age of the patient, low body temperature, thoracic insufflation,

high pressure and flow of insufflation, and length of surgery.

Conclusion: Despite advances in miniaturizing of instruments and growth in surgeons' experience, the morbidity of neonatal videosurgery is not negligible. A profile of the patient at risk for an insufflation-related incident emerged from this study and may help in the selection of neonates who will benefit most from these techniques in conditions of maximal safety.

Key words: Intraoperative complications — Laparoscopy — Neonate — Surgery — Thoracoscopy

Minimally invasive surgery has been one of the major advances in the field of pediatric surgery during the last decade. With the recent development of adapted miniaturized instruments and a greater understanding of both the benefits and safety concerns with this approach, the number and type of laparoscopic and thoracoscopic procedures for children have grown exponentially in the past few years. Increasingly younger patients can now benefit from the advancing technology of mini-invasive surgery, and more complex procedures, such as those used to treat congenital abnormalities, are reported to be feasible for neonates [1–7].

Nevertheless, neonatal videosurgery faces the surgeon with very specific constraints and should not be considered as a simple transposition of a technique used for older children [8]. The reduced working space and the potential impact of carbon dioxide (CO₂) pneumoperitoneum and pneumothorax on an immature neonatal cardiopulmonary system are matters of great concern [9–11]. Surprisingly, however, reports of

Table 2. Surgical incidents

| Type of complication | Number of cases | Conversion to laparotomy | Adverse outcome |
|---|-----------------|--------------------------|-----------------------------|
| Incisional hernia* | 5 | No | None |
| Mucosal gastric perforation during pyloric stenosis treatment | 3 | Yes | None |
| Incomplete treatment of pyloric stenosis | 3 | No | Repeat surgery (laparotomy) |
| Parietal hematoma or bleeding | 2 | 1/2 | None |
| Ovarian cystic rupture during dissection | 1 | Yes | None |
| Vascular injury** | 1 | No | None |
| Digestive injury*** | 1 | Yes | None |

*Eversions occurred through 3-mm port access. They were diagnosed from day 5 to 2-years postoperative. **Diaphragmatic artery injury during gastro-esophageal reflux treatment. ***Duodenal wound during hypertrophic pyloric stenosis treatment

Table 3. Risk factors for an insufflation-related incident

| | Neonates with an insufflation-related incident ($n = 26$) | Neonates without anesthetic incident ($n = 192$) | Significance |
|------------------------------|---|--|--------------|
| Age (days) | 13.8 ± 10 | 16.6 ± 9.4 | $p < 0.05$ |
| Weight (g) | 3386 ± 644 | 3387 ± 687 | NS |
| Body temperature (°C) | 35.4 ± 1 | 36.1 ± 0.7 | $p < 0.05$ |
| Insufflation pressure (mmHg) | 6.5 ± 2.2 | 5.3 ± 1.8 | $p < 0.05$ |
| Insufflation flow (l/min) | 4.8 ± 1.9 | 3.9 ± 2.1 | $p < 0.05$ |
| Length of surgery (min) | 100 ± 44 | 44 ± 29 | $p < 0.05$ |
| Thoracoscopy | 23% ($n = 6$) | 4.2% ($n = 8$) | $p < 0.05$ |

190 patients vs 28.6% of the incidents in 28 patients; $p < 0.05$). In contrast to the surgical incidents, the risk for poor tolerance of insufflation remained constant over the study period.

Recent trends in neonatal videosurgery

This study also highlighted the importance of the neonatal surgeon's and anesthesiologist's experience in the field of videosurgery (Fig. 1) and indicated significant changes in practice over the past 10 years. Progress in anesthetic management led to improved control of the patients' body temperature (Fig. 2a) and the successful use of higher insufflation pressures (Fig. 2b). An insufflation pressure higher than 7 mmHg is now chosen in some centers. Furthermore, longer and more complex operative procedures are currently performed. Since 2002, the operative time has significantly increased (mean before 2002, 60 min vs 47 min; $p < 0.05$). Finally, the minimal age and weight of patients undergoing videosurgery have progressively decreased (Fig. 2c and d).

Discussion

Relatively few studies reporting on the complications and cardiorespiratory consequences of neonatal videosurgery have been published, and most of those that support the feasibility and safety of these methods in the first month of life are case reports or short clinical series. A multicentric analysis evaluating the actual practice of

these specific surgical procedures for such young patients and their tolerance in the neonatal period has been lacking to date [16].

The first observation from this study is that surgical complications occurred at a relatively high frequency. A total of 42 patients experienced a minor or major problem (7.3%). This rate is significantly higher than that reported for older pediatric populations (4–4.6%) [17, 19–19]. However, this seemingly worrisome finding should nevertheless be moderated by the following considerations:

1. The great majority of complications were non-threatening (12/16). Parietal hematomas resolved spontaneously, and incisional hernias, which were most often epiploic, proved to be easily managed. Moreover, mucosal lesions during the treatment of pyloric stenosis were repaired immediately without further consequences.
2. Most of the problems encountered during surgery were solved by laparoscopy or thoracoscopy without the need for conversion (10/16). It also is worth noting that laparoscopic suturing of the neonate's small intestine is feasible provided the surgeon's experience is adequate.
3. Most of the complications occurred during dissection. In the near future, robotically assisted surgery and highly miniaturized instruments such as bipolar coagulation equipment, ultrasonically activated scalpels, and vessel sealing systems probably will reduce these complications significantly.

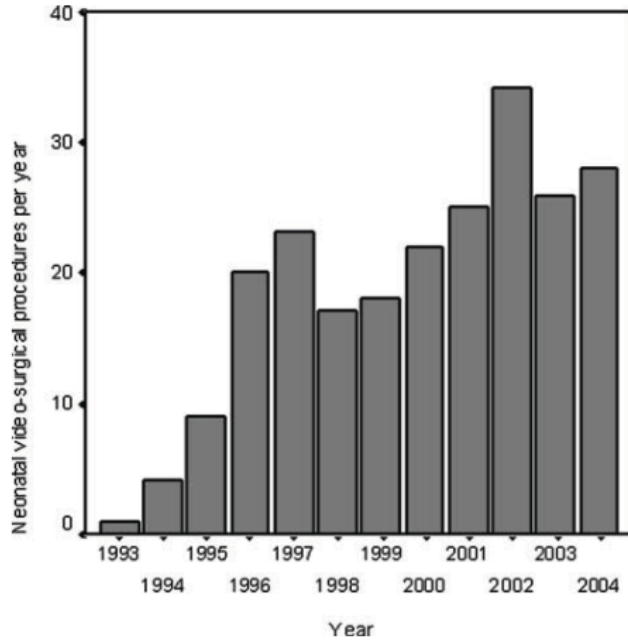


Fig. 1. Increasing experience of neonatal surgeons and anesthesiologists in the field of videosurgery.

4. The abdominal and thoracic measurements of a neonate, even during insufflation, are particularly small. For instance, we measured the maximal vertical working space of a 3-kg neonate with a 7-mmHg pneumoperitoneum at 3 cm. In these conditions, the neonatal surgeon's learning curve may be substantially longer than for older patients.

The rate of complications reported here decreased over the 10 years of this study to reach 5%, and may decrease further in the future.

The second major point emerging from this study is that the neonate has a high and specific sensitivity to insufflation. In 26 cases (12%), respiratory, hemodynamic, and thermic equilibrium was altered. It was possible to limit these imbalances in part by ventilatory adjustments, vascular expansion, and external warming, so that videosurgery could be continued. But insufflation was temporarily or even definitively stopped fairly frequently in our series. For older infants, such physiologic alterations induced by intraabdominal pressure have been described, but they remain limited and are most often easily controlled during the procedure [20–22]. The sensitivity to insufflation during the first month of life seems to be higher and specific to neonatal videosurgery. Three secondary effects were either frequently encountered or potentially risky: increased hypercapnia, hypoxia, and hypothermia.

A significant amount of CO₂ can be absorbed across the extended peritoneal surface, resulting in frequent and potentially marked hypercapnia [20]. In newborns, this peritoneal and pleural absorption surface per unit of weight is high [23]. The low quantity of peritoneal fat and the slight distance between vessels and the serous surface increase the permeability of the neonatal peritoneum to CO₂. Ventilatory compensation and increased minute ventilatory volume limit this

phenomenon, but were not always sufficient in our series to maintain it below 45 mmHg. End-tidal CO₂ should nevertheless be closely monitored in neonates because it is correlated with high CO₂ arterial pressure and low pH, and thus may expose the infant to perioperative acidosis and alteration of the cerebral circulation [24, 25]. Cyanotic congenital heart diseases, frequently associated with malformations requiring neonatal video surgery, increase this risk [26] and should be excluded preoperatively. The value of end-tidal CO₂ should not be overestimated, however, because the alveolo-arterial difference in CO₂ may be enhanced in neonates and during videosurgical procedures. Although arterial blood gas analysis would provide more accurate information about alveolar ventilation, it is not routinely performed perioperatively in view of its technical limitation in neonates.

Hypoxia, the other secondary effect on ventilation induced by the videosurgical approach, was observed more frequently with thoracoscopy. The application of insufflation pressures directly on the lung and myocardium may heighten the neonate's sensitivity to videosurgery by an increased shunt effect. The operative position (lateral decubitus) and the surgical indication (esophageal atresia with tracheoesophageal fistula and loss of a part of the ventilation) were probably aggravating factors. Pulse oxymetry provides a noninvasive, continuous, accurate, and sensitive tool for detecting hypoxic states. Close monitoring of O₂ saturation, a high inspiratory fraction of O₂, and the use of a minimal insufflation pressure can limit this phenomenon.

Postoperative hypothermia was not frequent in our experience, and the final temperature was below 34.9°C in less than 2% of the infants. This hypothermia was well tolerated (only 1 case of bradycardia occurred) and limited by the use of external heat sources (radiant lamps, pulsed air blankets). However, the risk of hypothermia is nevertheless real [12] and may have serious consequences for neonatal physiology, notably hemodynamics, with a risk of persistent fetal circulation syndrome. The increased neonatal caloric loss and the perioperative drop in thermogenesis may be aggravated by the use of a cold and dry gas [27–30] and by potential gas leakage around small 3-mm trocars. In our view, this risk justifies maximal efforts to avoid any gas leakage and the early use of these warming methods, particularly for long surgeries.

The following profile of the neonatal patient at risk for an insufflation-related incident emerged from our series: young age of patient, low body temperature, thoracic insufflation, high insufflation pressure and flow, and lengthy surgery. No risk factor could be linked to a single type of incident because the incidents were most often multifactorial. A surprising observation was the recent trend in some centers to operate on neonates with increasing numbers of risk factors. Each center widened the spectrum of indications during the study period, with result that the longest and most complex procedures, including mediastinal dissection and intracorporeal anastomoses, were the most recent ones. Similarly, the age and weight of the patients progressively decreased and no longer posed technical limits to

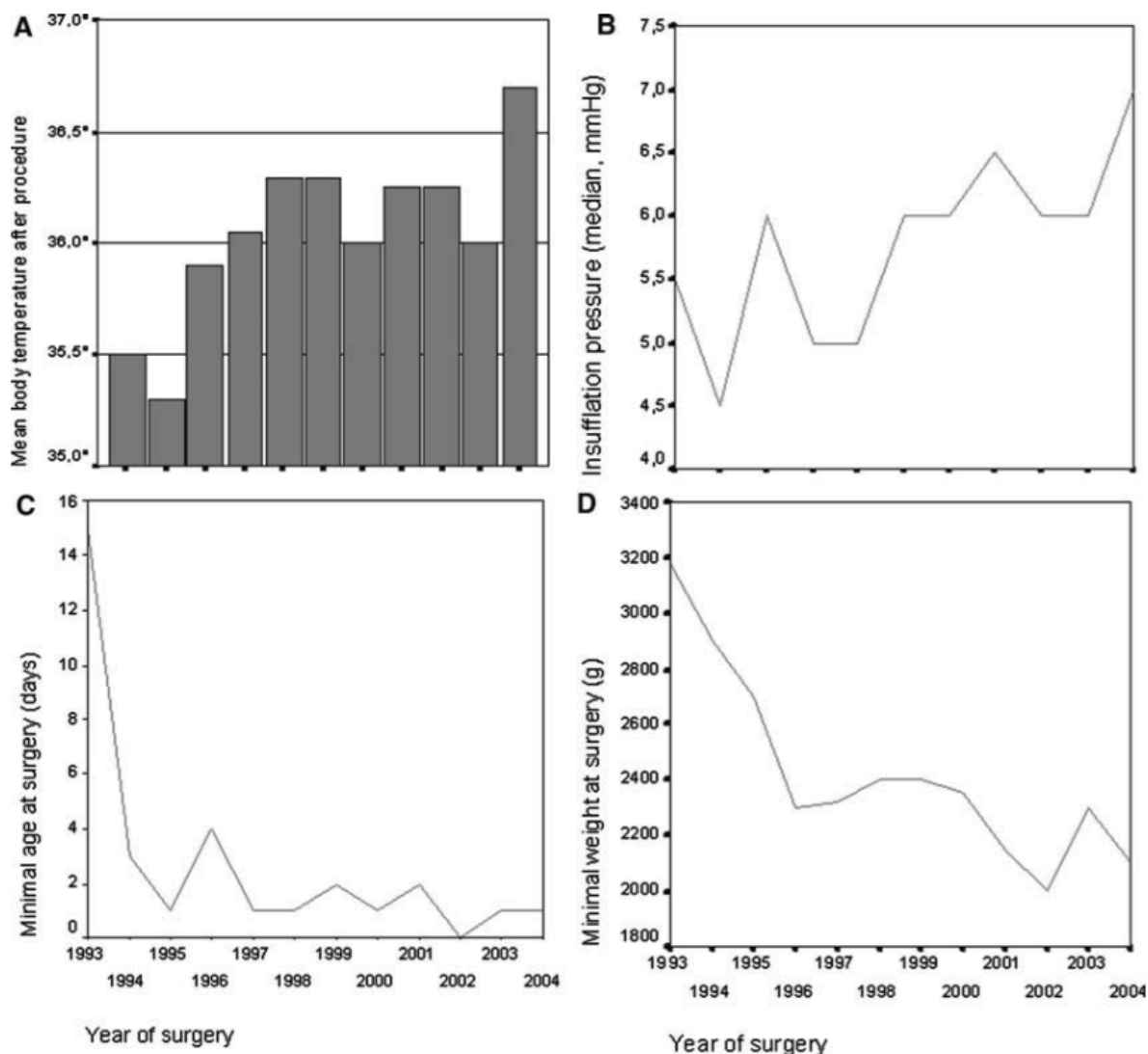


Fig. 2. Recent trends in the practice of neonatal videosurgery. **a** Improved control of the postoperative patients' body temperature. **b** Median insufflation pressure during the 10 years of the study. The minimal age (**c**) and weight (**d**) of patients undergoing videosurgery progressively decreased.

videosurgery. The risk factors we describe thus did not appear as definitive contraindications, but rather underscored the need for thorough preoperative evaluation of the neonate, close surveillance of the hemodynamic and ventilatory status during insufflation, and minute-by-minute collaboration between the surgical and anesthesia teams. These points are critical in neonatal videosurgery because congenital malformations are frequent surgical indications, and associated abnormalities or cardiopulmonary immaturity may affect the tolerance of insufflation.

The benefits of mini-invasive surgery are evident in the literature [31]. Less adhesion and scar tissue, less postoperative pain, and better cosmetic results have made this surgical advance one of the most hopeful in the field of neonatal surgery. The advances in specifically designed instruments for neonates and the growth in surgeons' experience will accelerate the diffusion of this promising approach. However, this multicentric study points out some of the particularities of these patients and their often high sensitivity to insufflation.

The limit of videosurgery for very small infants will no longer be the technical feasibility, but rather the right selection of the neonates who will benefit most from these techniques in conditions of maximal safety.

Acknowledgment. We thank Dr. I. Valioulis at the Department of Pediatric Surgery, Aghios Loukas Hospital, Panorama Thessaloniki, Greece, and Professor Michel Robert at the Service de Chirurgie Viscérale Pédiatrique, Hôpital Clocheville, CHU Tours, France, for their participation in this study.

References

1. Bax NM, Ure BM, van der Zee DC, van Tuijl I (2001) Laparoscopic duodenoduodenostomy for duodenal atresia. *Surg Endosc* 15: 217
2. Rothenberg SS (2002) Laparoscopic duodenoduodenostomy for duodenal obstruction in infants and children. *J Pediatr Surg* 37: 1088–1089
3. Rothenberg SS (2002) Thoracoscopic repair of tracheoesophageal fistula in newborns. *J Pediatr Surg* 37: 869–872
4. van der Zee DC, Bax NM (1995) Laparoscopic repair of acute volvulus in a neonate with malrotation. *Surg Endosc* 9: 1123–1124

5. Bax KM, van Der Zee DC (2002) Feasibility of thoracoscopic repair of esophageal atresia with distal fistula. *J Pediatr Surg* 37: 192–196
6. Gertner M, Farmer DL (2004) Laparoscopic cholecystectomy in a 16-day-old infant with chronic cholelithiasis. *J Pediatr Surg* 39: E17–E19
7. Gluer S, Scharf A, Ure BM (2002) Thoracoscopic resection of extralobar sequestration in a neonate. *J Pediatr Surg* 37: 1629–1631
8. Wurst H, Schulte-Steinberg H, Finsterer U (1993) Pulmonary CO₂ elimination in laparoscopic cholecystectomy: a clinical study. *Anaesthesist* 42: 427–434
9. Bozkurt P, Kaya G, Yeker Y, Tunalı Y, Altıntaş F (1999) The cardiorespiratory effects of laparoscopic procedures in infants. *Anaesthesia* 54: 831–834
10. Coppola L, Avogaro F, Vendramin ML, Belloli GP (1985) Anesthesiologic management of surgery in the 1st month of life: review of the literature and clinical contribution. *Pediatr Med Chir* 7: 503–511
11. Romero T, Covell J, Friedman WF (1972) A comparison of pressure–volume relations of the fetal, newborn, and adult heart. *Am J Physiol* 222: 1285–1290
12. Fujimoto T, Segawa O, Lane GJ, Esaki S, Miyano T (1999) Laparoscopic surgery in newborn infants. *Surg Endosc* 13: 773–777
13. Iwanaka T, Arai M, Ito M, Kawashima H, Imaizumi S (2000) Laparoscopic surgery in neonates and infants weighing less than 5 kg. *Pediatr Int* 42: 608–612
14. Truchon R (2004) Anaesthetic considerations for laparoscopic surgery in neonates and infants: a practical review. *Best Pract Res Clin Anaesthesiol* 18: 343–355
15. Kalfa N, Allal H, Raux O, Lopez M, Forgues D, Guibal MP, Picaud JC, Galifer RB (2005) Tolerance of laparoscopy and thoracoscopy in neonates. *Pediatrics* 116: e785–791
16. Rangel SJ, Henry MC, Brindle M, Moss RL (2003) Small evidence for small incisions: pediatric laparoscopy and the need for more rigorous evaluation of novel surgical therapies. *J Pediatr Surg* 38: 1429–1433
17. Esposito C, Ascione G, Garipoli V, De Bernardo G, Esposito G (1997) Complications of pediatric laparoscopic surgery. *Surg Endosc* 11: 655–657
18. Esposito C, Lima M, Mattioli G, Mastroianni L, Centonze A, Monguzzi GL, Montinaro L, Riccipetroni G, Garzi A, Savanelli A, Damiano R, Messina M, Settimi A, Amici G, Jasonni V, Palmer LS (2003) Complications of pediatric urological laparoscopy: mistakes and risks. *J Urol* 169: 1490–1492
19. Peters CA (1996) Complications in pediatric urological laparoscopy: results of a survey. *J Urol* 155: 1070–1073
20. Bannister CF, Brosius KK, Wulkan M (2003) The effect of insufflation pressure on pulmonary mechanics in infants during laparoscopic surgical procedures. *Paediatr Anaesth* 13: 785–789
21. Gueugniaud PY, Abisseror M, Moussa M, Godard J, Foussat C, Petit P, Dodat H (1998) The hemodynamic effects of pneumoperitoneum during laparoscopic surgery in healthy infants: assessment by continuous esophageal aortic blood flow echo-Doppler. *Anesth Analg* 86: 290–293
22. Manner T, Aantaa R, Alanen M (1998) Lung compliance during laparoscopic surgery in paediatric patients. *Paediatr Anaesth* 8: 25–29
23. McHoney M, Corizia L, Eaton S, Kiely EM, Drake DP, Tan HL, Spitz L, Pierro A (2003) Carbon dioxide elimination during laparoscopy in children is age dependent. *J Pediatr Surg* 38: 105–110
24. Hazebroek EJ, Haitzma JJ, Lachmann B, Steyerberg EW, de Bruin RW, Bouvy ND, Bonjer HJ (2002) Impact of carbon dioxide and helium insufflation on cardiorespiratory function during prolonged pneumoperitoneum in an experimental rat model. *Surg Endosc* 16: 1073–1078
25. Sefr R, Puzkailer K, Jagos F (2003) Randomized trial of different intraabdominal pressures and acid–base balance alterations during laparoscopic cholecystectomy. *Surg Endosc* 17: 947–950
26. Wulkan ML, Vasudevan SA (2001) Is end-tidal CO₂ an accurate measure of arterial CO₂ during laparoscopic procedures in children and neonates with cyanotic congenital heart disease? *J Pediatr Surg* 36: 1234–1236
27. Hazebroek EJ, Schreve MA, Visser P, De Bruin RW, Marquet RL, Bonjer HJ (2002) Impact of temperature and humidity of carbon dioxide pneumoperitoneum on body temperature and peritoneal morphology. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 12: 355–364
28. Moore SS, Green CR, Wang FL, Pandit SK, Hurd WW (1997) The role of irrigation in the development of hypothermia during laparoscopic surgery. *Am J Obstet Gynecol* 176: 598–602
29. Ott DE (1991) Laparoscopic hypothermia. *J Laparoendosc Surg* 1: 127–131
30. Gray RI, Ott DE, Henderson AC, Cochran SA, Roth EA (1999) Severe local hypothermia from laparoscopic gas evaporative jet cooling: a mechanism to explain clinical observations. *JSL* 3: 171–177
31. Georgeson KE, Robertson DJ (2004) Minimally invasive surgery in the neonate: review of current evidence. *Semin Perinatol* 28: 212–220

Commentaires de l'article

Peu d'études ont été publiées sur les complications et les conséquences cardio-respiratoires de la vidéo-chirurgie néonatale, et la plupart de ceux qui soutiennent sa faisabilité et la sécurité de ces méthodes dans le premier mois de vie ont rapporté des cas uniques ou de courtes séries cliniques. Notre analyse multicentrique évaluait la pratique effective de ces procédures chirurgicales spécifiques pour ces jeunes patients et leur tolérance en période néonatale.

Le premier commentaire de cette étude est que les complications chirurgicales ont eu lieu avec une fréquence relativement élevée et 42 patients ont connu un problème mineur ou majeur (7,3%). Ce taux est nettement plus élevé que celui rapporté habituellement, de 4 à 4,6%. Toutefois, cette constatation apparemment inquiétante doit être modérée par les considérations suivantes:

1. La grande majorité des complications étaient minimales (12/16) : hématomes pariétaux disparus spontanément, éventrations le plus souvent épiploïque et facilement gérés ou encore perforation de la muqueuse au cours du traitement d'une sténose hypertrophique du pylore, immédiatement réparée et sans conséquence.
2. La plupart des problèmes rencontrés lors de la chirurgie ont été résolus par laparoscopie ou thoracoscopie sans besoin de conversion (10/16). Il est également intéressant de noter que la suture laparoscopique de l'intestin grêle est faisable à condition que le chirurgien soit rompu à cette technique.
3. La plupart des complications sont survenues lors de la dissection. Dans un avenir proche, la chirurgie robotisée et des instruments hautement miniaturisés tels que les équipements de coagulation bipolaire, bistouri à ultrasons, permettront de réduire significativement ces complications.

L'espace de travail est particulièrement faible dans la cavité abdominale ou dans le thorax d'un nouveau-né, même avec l'insufflation. Par exemple, nous avons mesuré l'espace vertical de travail : il est au maximum de 3 cm pour un nouveau-né de 3 kg avec un pneumopéritoine de 7 mm Hg. Dans ces conditions, la courbe d'apprentissage peut être substantiellement plus longue que pour les patients plus âgés. Le taux de complications rapporté ici a diminué au cours des 10 années de l'étude pour atteindre 5% ; il diminuera probablement à l'avenir.

Le deuxième point important qui ressort de cette étude est que le nouveau-né a une sensibilité élevée et spécifique à l'insufflation de CO₂. Dans 26 cas (12%), les données respiratoires et hémodynamiques, et l'équilibre thermique ont été modifiés. Il fut possible de limiter partiellement ces déséquilibres par des ajustements ventilatoires, une bonne expansion vasculaire et un réchauffement externe, de sorte que la vidéo-chirurgie a pu être poursuivie. Mais l'insufflation fut temporairement ou même définitivement arrêtée dans bon nombre de cas. Pour les nourrissons plus âgés, ces modifications physiologiques induites par la pression intra-abdominale ont été décrites, mais elles restent limitées et sont le plus souvent facilement contrôlées durant l'intervention. Comment expliquer cette sensibilité à l'insufflation pendant le premier mois de vie ? Trois effets secondaires étaient fréquemment constatés et présentaient potentiellement un risque : hypercapnie, hypoxie et hypothermie. Comme nous l'avons indiqué plus haut, une quantité importante de CO₂ peut être absorbée à travers la surface péritonéale entraînant une hypercapnie fréquente et potentiellement marquée. La compensation ventilatoire et l'augmentation du volume ventilatoire par minute ne sont pas toujours suffisantes dans notre série pour maintenir la PCO₂ en dessous de 45 mm Hg. Le CO₂ doit être étroitement surveillé chez les nouveau-nés, car il est corrélé avec une pression artérielle élevée de CO₂ et un pH faible, et donc peut exposer l'enfant à une acidose per-opératoire et à une altération de la

circulation cérébrale. Les maladies cardiaques congénitales cyanosantes, souvent associées à des malformations nécessitant une vidéo-chirurgie néonatale, augmentent ce risque et représentent une contre-indication à la vidéo-chirurgie. Cependant la valeur de CO_2 ne doit pas être surestimée car la différence alvéolo-artérielle en CO_2 peut être améliorée chez les nouveau-nés pendant la vidéo-chirurgie. L'analyse artérielle des gaz du sang fournirait des informations plus précises sur la ventilation alvéolaire, mais elle n'est pas systématiquement effectuée pendant l'intervention en raison de ses limites techniques chez les nouveau-nés. L'hypoxie est un autre effet secondaire sur la ventilation induite par l'approche vidéo-chirurgicale et elle est observée plus fréquemment avec la thoracoscopie (pressions d'insufflation directement sur le poumon, position de travail en décubitus latéral, atrésie de l'œsophage avec fistule trachéo-œsophagienne et perte d'une partie de la ventilation. L'oxymétrie de pouls fournit un outil non invasif, continu, précis et sensible pour détecter des états hypoxiques. Une surveillance étroite de la SaO_2 , une fraction inspiratoire élevée d' O_2 , et l'utilisation d'une pression d'insufflation minimale peut limiter ce phénomène.

L'hypothermie postopératoire n'était pas fréquente dans notre expérience et la température finale était inférieure à $34,9^\circ\text{C}$ chez moins de 2% des nouveau-nés. Cette hypothermie a été bien tolérée avec un seul cas de bradycardie ; elle doit être limitée par l'utilisation de sources de chaleur externes comme les couvertures d'air pulsé. Cependant le risque d'hypothermie est réel et peut avoir de graves conséquences pour la physiologie du nouveau-né, notamment hémodynamique, avec un risque de syndrome de circulation fœtale persistante. La perte calorique néonatale et la baisse de la thermogénèse pendant l'intervention peuvent être aggravées par l'utilisation d'un gaz froid et sec et par une fuite de gaz potentielle autour des petits trocars de 3mm. À notre avis, ce

risque justifie des efforts maximaux pour éviter toute fuite de gaz et l'utilisation précoce de ces méthodes de réchauffement, particulièrement pour les longues interventions chirurgicales.

Ainsi le profil du nouveau-né à risque d'un incident lié à l'insufflation, selon notre étude, est le suivant : basse température corporelle, insufflation thoracique, pression d'insufflation et débit élevés, vidéo-chirurgie longue. Aucun facteur de risque n'intervient de façon isolée et les incidents étaient le plus souvent multifactoriels. Dans notre étude, une observation surprenante était la tendance, dans certains centres, à opérer les nouveau-nés avec des facteurs de risque augmentés. Ceci était lié à la volonté d'élargir l'éventail des indications au cours de la période d'étude, avec des procédures plus longues et plus complexes (dissection médiastinale, anastomoses intracorporelles). De même, l'âge et le poids des patients a progressivement diminué et ne représentait plus les limites techniques à vidéo-chirurgie. Les facteurs de risque que nous décrivons ne semblent donc pas être des contre-indications définitives à la vidéo-chirurgie, mais soulignent plutôt la nécessité d'une évaluation pré-opératoire approfondie du nouveau-né, d'une surveillance étroite de l'état ventilatoire et hémodynamique pendant l'insufflation de CO₂, et, minute par minute, d'une collaboration entre les équipes chirurgicales et anesthésiques. Ces points sont essentiels en vidéo-chirurgie néonatale car les malformations congénitales elles-mêmes ou les anomalies associées ou encore l'immaturation cardio-respiratoire peuvent affecter la tolérance de l'insufflation. Les avantages de la chirurgie mini-invasive sont évidents dans la littérature : moins d'adhérences et de tissu cicatriciel, moins de douleur post-opératoire et de meilleurs résultats cosmétiques ont fait de cette avancée chirurgicale l'une des plus prometteuses dans le domaine de la chirurgie néonatale. Cependant, cette étude multicentrique souligne quelques-unes des particularités de ces patients et de leur grande sensibilité à l'insufflation de CO₂.

La limite de vidéo-chirurgie pour les très petits enfants ne sera plus la faisabilité technique, mais plutôt le bon choix des nouveau-nés qui bénéficieront le plus de ces techniques dans des conditions de sécurité optimale.

Hernie Diaphragmatique congénitale & Thoracoscopie

La chirurgie mini-invasive est communément admise dans le traitement de la hernie diaphragmatique congénitale à révélation tardive depuis 1995 (1-3). Les premières tentatives de réparations cœlioscopiques chez les nouveau-nés ont été publiées en 2003 (4) Depuis plus de 250 nouveau-nés ont été traités par cette technique (4-21). L'approche thoracoscopique permet une meilleure exposition après la réintroduction des viscères dans la cavité abdominale nécessitant moins d'insufflation de CO₂. Un grand nombre de publications récentes suggèrent que la thoracoscopie est faisable et sûre, avec moins de douleur postopératoire (1-23), mais de nombreuses équipes restent réticentes à utiliser cette approche car elles n'ont pas l'habitude de la vidéo-chirurgie du nouveau-né et les indications ne sont pas claires. Seulement quelques publications ont essayé d'évaluer des critères de sélection (6,12,14,15,17,19,20), mais la plupart décrivent surtout les facteurs de risque potentiels d'échec de la thoracoscopie.

Le but de l'étude ci-dessous était d'identifier rétrospectivement les facteurs de risque d'échec de la thoracoscopie et les complications après la fermeture primaire thoracoscopique des hernies diaphragmatiques chez les nouveau-nés. Ces travaux ont fait l'objet de deux publications et de plusieurs communications scientifiques nationales et internationales avec comité de lecture en tant que co-auteur sous la direction du Dr Cindy Gomes et du Prof. François Becmeur (CHU de Strasbourg et CH Luxembourg).



Congenital diaphragmatic hernia: an evaluation of risk factors for failure of thoracoscopic primary repair in neonates^{☆,☆☆}

Cindy Gomes Ferreira^{a,c,*}, Pierre Kuhn^b, Isabelle Lacreuse^a, Christos Kasleas^a, Paul Philippe^c, Guillaume Podevin^d, Arnaud Bonnard^e, Manuel Lopez^f, Pascal De Lagausie^g, Thierry Petit^h, Hubert Lardyⁱ, François Becmeur^a

^aDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Strasbourg, France

^bDepartment of Neonatology of the University Hospitals, Strasbourg, France

^cDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Luxembourg, Luxembourg

^dDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Angers, France

^eDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Robert Debré/Paris, France

^fDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, St. Etienne, France

^gDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Marseille, France

^hDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Caen, France

ⁱDepartment of Pediatric Surgery of the University Hospitals, Tours, France

Received 14 April 2012; revised 18 August 2012; accepted 10 September 2012

Key words:

Congenital diaphragmatic hernia;
 Neonatal surgery;
 Thoracoscopy

Abstract

Purpose: Publications aiming to prove the feasibility and safety of thoracoscopic CDH-repair in neonates grow in numbers. Some teams use selection criteria, but none have proven statistical evidence. The aim of this study is to detect risk factors for failure of thoracoscopic primary closure of CDH in neonates.

Methods: In 8 centers performing minimal access surgery (MAS), complete prenatal, postnatal, and operative data were evaluated for a retrospective study concerning patients with thoracoscopic congenital diaphragmatic hernia (CDH) repair. Most of the selection criteria and risk factors mentioned in the literature were analyzed. Two groups were defined: Group A — neonates who tolerated thoracoscopic primary repair, and Group B — neonates who required conversion or presented with major complications

Abbreviations: CDH, congenital diaphragmatic hernia; EtCO₂, end tidal CO₂; HFOV, high frequency oscillatory ventilation; iNO, inhaled nitric oxide; LHR, lung over head ratio; LHR^{obs/exp}, LHR observed over LHR expected for the gestational age; MAP, mean airway pressure; MAS, minimal access surgery; NICU, neonatal intensive care unit; OI, oxygenation index; PDA, patent ductus arteriosus; PEEP, positive end-expiratory pressure; PIP, peak inspiratory pressure; PPHN, persistent pulmonary hypertension of the newborn; SD, standard deviation; WGA, weeks of gestational age.

[☆] With the approval of the French CDH Study Group.

^{☆☆} The authors have nothing to disclose.

* Corresponding author. CHU Strasbourg, Hôpital de Hautepierre; Service de Chirurgie Infantile, 67098 Strasbourg Cedex. Tel.: +33 3 88 12 73 07; fax: +33 3 88 12 72 95. Centre Hospitalier Luxembourg, Clinique Pédiatrique; Service de Chirurgie Pédiatrique; 4, rue Barblé, 1210 Luxembourg. Tel.: +352 4411 6109; fax: +352 4411 6886.

E-mail address: gomes.cindy@chl.lu (C. Gomes Ferreira).

after thoracoscopic repair. Univariate and multivariate logistic regressions were used to compare these two groups.

Results: From 2006 to 2010, thoracoscopy was performed in 40 neonates: Group A consisting of 28 neonates, and Group B 9 patients. Three patients were excluded because of insufficient data or major associated malformations. Significant statistical differences were found in Group B for postnatal PaCO₂ >60 mmHg, need of iNO during postnatal stabilization, intrathoracic position of the stomach, pulmonary hypertension signs on the postnatal cardiac ultrasound, and preoperative OI >3.0. On multivariate analysis, only an OI >3.0 was significantly associated with conversion or major post-operative complication of thoracoscopic primary repair.

Conclusion: CDH can be safely repaired in the neonatal period by thoracoscopy. The limiting factor for thoracoscopic CDH repair is PPHN. The best preoperative indicator for PPHN is OI. Prospective studies are nonetheless necessary to prove the effectiveness of using these risk factors as selection criteria to help design surgical management protocols for neonates presenting CDH.

© 2013 Elsevier Inc. All rights reserved.

Minimal access surgery (MAS) is commonly accepted for the treatment of late presenting congenital diaphragmatic hernia (CDH) since 1995 [1–3]. The first attempts of MAS repairs in neonates were published in 2003 [4]. Since then, more than 250 newborns were treated with MAS [4–21]. Even though the first attempts of MAS closure of CDH were done through laparoscopy [4], thoracoscopy is currently commonly used in the neonatal period as this approach allows better exposure of the diaphragmatic rims after replacement of the viscera into the abdominal cavity with less necessity of continuous CO₂ insufflation [16].

A great number of recent publications suggest that thoracoscopic CDH repair is feasible and safe [1–23], reducing postoperative pain and the physiological disturbances of surgery [15,22,23]. Nonetheless, there are still pediatric medico-surgical teams reluctant to use this approach as it requires a capnotherax increasing the thoracic and abdominal pressures through the defect, and as the insufflated CO₂ has to be eliminated through hypoplastic lungs [17,23,24]. Therefore some investigators have sought to establish selection criteria and/or searched for risk factors for adverse outcomes after thoracoscopic repair [6,12,14,15,17,19,20,25], but none of them have reached consensus: Only a few papers evaluate selection criteria through prospective studies [6,12,20], but most describe potential risk factors for thoracoscopic failure [14,15,17,19,25].

The aim of this study is to retrospectively identify risk factors for failure or adverse outcomes after thoracoscopic primary closure of CDH in neonates.

1. Patients and methods

A retrospective multicenter study was undertaken with the approval of the French CDH Study Group (Centre de référence des hernies de la coupole diaphragmatique).

In the neonatal period, eight centers in France and Luxemburg perform thoracoscopic CDH repair. In all centers, thoracoscopic CDH repair is done by a senior

surgeon, trained in pediatric MAS. From January 2006 to December 2010, all neonates who underwent thoracoscopy for CDH with the intention to treat were included. Patients were identified and collected through individual hospital health records. Chart reviews were conducted by one author, who traveled to each center where the chart review was conducted. The complete prenatal, postnatal, operative and postoperative data were evaluated. Patients with associated major malformations, incomplete charts or operated after the 7th day of life (as most of these patients presented a fortuitous diagnosis of CDH without cardiopulmonary implications) were excluded. The selection criteria and potential risk factors evaluated were based on previous studies [6,12,14,15,17,19,20,24] (see Table 1).

For each patient, we analyzed whether a prenatal diagnosis was done or not, the gestational age at diagnosis, as well as the prenatal predictors like the LHR, the LHR^{obs/exp} or the liver herniation [26–28]. As this last criterion is difficult to evaluate prenatally, only patients presenting a shift of the umbilical vein and/or of the hepatic vessels were considered to have an intra-thoracic liver [29].

In the immediate postnatal period, we analyzed for each newborn the place of birth (outborn/inborn), weight, gestational age, Apgar scores at 1 and 5 min and the need for ventilatory support immediately after delivery. From the admission-forms in the neonatal intensive care unit (NICU), we collected the PaCO₂ and post-ductal SpO₂ levels, the required FiO₂ to maintain a preductal SpO₂ >90%, the need and time of initiation of conventional mechanical ventilation, HFOV, iNO, vasoactive drugs as well as their durations, the need and time of instillation of exogenous surfactant. The first chest radiograph was analyzed to specify the side of the CDH and the stomach's position (intra-thoracic/intra-abdominal). The results from echocardiographic assessment performed within the first 24 h of life were analyzed to specify whether a PDA was present and the signs of PPHN: right-to-left PDA, left-to-right deformation of the interventricular septum, importance of the tricuspid valve insufficiency.

In the preoperative period, we analyzed the age at surgery, the ventilatory parameters (ventilation mode, PIP,

Table 1 Selection criteria and potential risk factors known from the literature.

| Authors | Prenatal criteria | Neonatal criteria | Anatomical criteria | Ventilation criteria | Respiratory criteria | Cardiovascular criteria | Others |
|--|-----------------------|--|--|---|--|--|---|
| Yang et al., 2005 [6] prospective study | / | / | intra-abdominal stomach on the initial X-Ray | PIP~20 cmH ₂ O | No clinical signs of PPHN | No clinical signs of PPHN | / |
| Shah et al., 2008 [12] prospective study | / | / | / | / | / | No, even patients with associated cardiac malformation were accepted | transport to the OR |
| Zamakshary et al., 2008 [25] retrospective study | No prenatal diagnosis | Weight at birth >2.7kg; term>37 WGA; Apgar 5 min>6 | / | No need for HFOV | Neonatal PaCO₂ <34 mmHg; neonatal SpO ₂ >93% | No need for iNO during surgery | / |
| Cho et al., 2008 [14] retrospective study | / | / | / | HFOV stopped; FiO ₂ <50%; SpO ₂ >90%; MAP<13 cmH ₂ O | No metabolic perturbations in the preoperative blood gas samples | Minimal inotropic drugs; echographic PPHN in mild suprasystemic range or lower | Infant tolerates decubitus position >2h |
| Gourlay et al., 2008 [15] retrospective study | / | / | / | PIP<26 cmH ₂ O on the day of surgery | OI<5 on the day of surgery | No need for ECMO, no associated cardiac malformations | / |
| McHoney et al., 2009 [17] retrospective study | / | / | / | FiO ₂ <40%, HFOV stopped >12h | / | No need for iNO _i or inotropic drugs during surgery; ECMO stopped>12h; cardiac malformations accepted | / |
| Keijzer et al., 2010 [19] retrospective study. | / | / | / | / | / | No need for ECMO | transport to the OR |
| Okazaki et al., 2011 [20] prospective study | / | / | / | Manual ventilation possible for transport | HFOV and iNO tolerated | PPHN "improved" on echocardiography after stabilization period; | transport to the OR; cardiac status stable in decubitus position >10min |

Bold letters: valid for multivariate logistic regression.

PEEP, MAP, FiO₂), the respiratory parameters (PaCO₂, PaO₂, pre- and postductal SpO₂), the preoperative echocardiographic data, the use of iNO and/or the use of vasoactive drugs. We also calculated for each patient the oxygenation index (OI=100 × FiO₂ × MAP/PaO₂). The OI was calculated after 24h of respiratory and ventilatory stability, just before considering surgery.

All treated newborns presented a "stable" haemodynamic (no inotropes requirement) and respiratory condi-

tion (low ventilatory support with PIP <24 cmH₂O, maximal PEEP of 3–4 cmH₂O and FiO₂ <40% for a SpO₂ >90% and a PaCO₂ <60 mmHg) for at least 24h before surgery, allowing thoracoscopy at the time of procedure. In all the participating medical centers and at the moment of the study, HFOV and iNO were used as rescue therapies with similar inclusion criteria (persistent PaCO₂ >60 mmHg, preductal SpO₂ <85%, PPHN even with optimal ventilation).

Risk factors for failure of thoracoscopic primary repair

Table 2 Prenatal data.

| | group A | group B | <i>P</i> |
|------------------------|--|--|----------|
| Prenatal | 15 / 28 (54%) | 7 / 9 (78%) | 0.2 |
| Diagnosis | (14/23 left sided CDH 1/5 right sided CDH) | (7/8 left sided CDH 0/1 right sided CDH) | |
| GA at diagnosis | 28.7 (21–36) WGA | 28.7 (20–36) WGA | 0.99 |
| LHR ^{obs/exp} | 70.7%±23.8% ^A | 52.3%±10.4% ^B | 0.09 |

WGA: weeks of gestational age; LHR: lung over head ratio; ^{obs/exp}: observed/expected; ^An=11; ^Bn=6.

Thoracoscopy was performed in the operating theater. The operative technique has already been described previously [16]. If needed, patch closure was done after conversion to thoracotomy or laparotomy to avoid an important increase of the operative time. The material used for patch closure is polytetrafluoroethylene (PTFE, Gore-Tex Dual Mesh®).

We defined two groups according to the success or not of the thoracoscopic primary repair: group A consists of patients with primary thoracoscopic closure and an immediate uneventful post-operative course; group B is composed of patients who required conversion or presented major complications after thoracoscopic repair.

For statistical analysis, the Statistical Package for the Social Sciences (SPSS Inc., Chicago, IL, USA) for Windows, ver. 17.0, software program was used. Results are presented as means±SDs. The Kolmogorov–Smirnov test was employed to identify parameters with skewed distribution. Mean values were compared using unpaired Student's *t*-test for parameters with normal distribution and Mann–Whitney for parameters with skewed distribution. χ^2 test was used to assess significance when qualitative parameters were compared. To allow for meaningful breakdown for continuous variables so they could be expressed as discriminatory predictors, 50th quartiles were used as a cut off point for continuous variables. A *P* value <0.05 was considered statistically significant.

Finally, univariate and multivariate logistic regressions were used to give the relative contribution of each independent variable to predict conversion for patch closure or major postoperative complication after thoracoscopic primary repair. The multiple logistic regression model was fit to the data by using a standard selection method. A *P* value of less than 0.05 was used as the criterion of the covariate for staying in the model. The Hosmer–Lemeshow test was used to evaluate the model's goodness-of-fit to the data. A *P* value of less than 0.05 was considered significant. All *P* values were 2-sided.

2. Results

2.1. Patients

From January 2006 to December 2010, thoracoscopy was performed in 40 neonates (Strasbourg 17, Angers 6, Luxembourg 5, Robert Debré/Paris 4, Marseille 3, St Etienne 2, Tours 2, Caen 1). The complete prenatal, perinatal, postnatal, operative and postoperative data of 37 patients have been evaluated. Three patients were excluded because of incomplete charts (2 patients) or because of major cardiac and neurological malformations (1 patient).

In group A, thoracoscopic primary repair was achieved in 28 neonates (14 boys, 14 girls): 23 presented left-sided CDH and 5 right-sided CDH.

Group B includes 9 patients (6 boys, 3 girls) who required conversion for patch closure in 8 cases or died in the immediate postoperative period in 1 case. Eight patients presented left-sided CDH and one a right-sided CDH.

2.2. Prenatal data

In group A, 15 patients (53%) had a prenatal diagnosis at a mean age of 28.7 WGA. In group B, 7 patients (78%) had a prenatal diagnosis at a mean age of 28.7 WGA. There were

Table 3 Postnatal data.

| | group A | group B | <i>P</i> |
|---|----------------------|--------------------|----------------|
| Outborn | 7 / 28 (25%) | 2 / 9 (22%) | not calculated |
| WGA at birth | 39.2 (31+5–41+5) | 38.6 (38–39+5) | 0.27 |
| weight at birth (g) | 3061 (1495–3675) | 2945 (2690–4010) | 0.48 |
| APGAR 1 min | 7.0 (1–10) | 5.2 (0–8) | 0.14 |
| APGAR 5 min | 8.6 (5–10) | 8.0 (3–10) | 0.38 |
| Ventilation at birth | 21 / 28 (75%) | 8 / 9 (89%) | 0.43 |
| PaCO₂ at admission (mmHg) | 48.4±14.4 | 61.8±12.58 | 0.037 |
| SpO ₂ at admission (%) | 94.8±5.0 | 88.78±12.05 | 0.18 |
| need for HFOV for the first 24h | 6 / 28 (21%) | 5 / 9 (56%) | 0.051 |
| need for iNO for the first 24h | 11 / 28 (39%) | 8 / 9 (89%) | 0.026 |
| intra-thoracic stomach at X-ray | 5 / 28 (18%) | 6 / 9 (67%) | 0.010 |
| bidirectional PDA or R/L shunt | 8 / 28 (28%) | 8 / 9 (89%) | 0.009 |

WGA: weeks of gestational age.

Table 4 Preoperative Findings.

| | group A | group B | P |
|--------------------|-----------------------------|-----------------------------|-----------------|
| PaCO ₂ | 40.93±8.7 mmHg | 47.44±10.1 mmHg | 0.07 |
| PaO ₂ | 65.96±14.9 mmHg | 55.86±14.6 mmHg | 0.14 |
| PIP | 16.9±2.9 cmH ₂ O | 18.6±1.6 cmH ₂ O | 0.13 |
| iNO during surgery | 7 / 28 (25%) | 5 / 9 (56%) | 0.09 |
| Bidirectional PDA | 3 / 28 (11%) | 3 / 9 (33%) | 0.10 |
| OI | 2.67±0.63 | 4.32±1.25 | <0.05 |

PIP: peak inspiratory pressure; OI: Oxygenation index.

no significant differences between these two groups for these two variables (see Table 2).

Although there was a large difference for the LHR^{obs/exp} in the two groups, this difference was not significant as these data were only available for 17 fetuses.

None of the fetuses in the two groups presented with prenatal liver herniation.

2.3. Postnatal data

As shown in Table 3, four variables among the postnatal data were significantly different between the two groups.

The PaCO₂ levels at admission in the NICU were significantly different between the two groups. The χ^2 test for the threshold-value of 60 mmHg reached significance. Neonates under that threshold may better tolerate thoracoscopy. Neonates presenting a bidirectional PDA or a right-to-left shunt at the first echocardiography, needing iNO in the first 24 h of life and/or presenting an intra-thoracic stomach at the initial radiograph, were more likely to need conversion from thoracoscopy.

The other parameters did not differ significantly in the two groups. In particular, place of birth, gestational age at birth, birth weights were similar and most neonates were intubated at birth for optimal ventilation.

2.4. Preoperative data

Thoracoscopy was performed at a median age of 3 days of life (range 1–6). HFOV was stopped preoperatively in all

cases. Table 4 shows the distribution of the main preoperative data.

As the neonates who underwent thoracoscopy were in stable ventilatory and haemodynamic conditions before surgery, there were no significant differences for all these variables in the two groups. The only variable that reached statistical significance is the oxygenation index (OI)>3. On multivariate logistic regression, only an OI>3 was significantly associated with the need of conversion for patch closure or a severe post-operative complication after thoracoscopic primary repair (see Table 5).

2.5. Operative findings

All the neonates underwent initial thoracoscopy with a mean CO₂ insufflation pressure of 4.7 mmHg. In 12 cases, CO₂ insufflation was stopped after reduction of the abdominal viscera. No single-lung ventilation was required in the two groups. In 13 cases, gentle manual balloon ventilation was performed. The other 24 neonates were ventilated conventionally with a pressure-limited mode: the PIP after CO₂ insufflation reached a mean value of 24.9 cmH₂O (range 15–30), i.e. +7.0 cmH₂O compared to the preoperative data. The intraoperative progress of PCO₂ could not properly be assessed as EtCO₂ values were recorded in only 12 cases.

In group A, 28 neonates benefited from primary repair with a mean operative time of 81.6±28.6 min. The operative time tends to decrease with the surgeon's experience reaching 35 to 40 min in the more recent attempts of primary thoracoscopic closure. Three neonates presented with a CDH with a sac. Reduction of the intra-thoracic contents was easily achieved in 24 cases. In 3 occurrences, reduction was considered difficult and in one case impossible. In this last case, the neonate presented with a CDH with sac: the liver could be seen through the defect but without any chance of repair without a considerable risk of damaging it. The surgeon decided to convert to laparoscopy to reduce the liver under vision and repair the defect through thoracoscopy. As the whole procedure was done by MAS, it was included in group A. Primary repair was totally achieved through thoracoscopy whether with intracorporeal or extracorporeal knots. In 11 cases, rib-anchoring stitches were used when the posterior diaphragmatic rim was insufficient for suture.

Table 5 Logistic regression models (univariate and multivariate, stepwise) for prediction of conversion for patch closure or major post-operative complication.

| | Univariate analysis | | | Multivariate logistic regression analysis | | |
|------------------------------------|---------------------|---------------|--------------|---|----------------------|--------------|
| | OR | 95% C.I. | P | beta | 95% C.I. | P |
| PaCO ₂ at birth>60 mmHg | 1.064 | 1.004 1.128 | 0.017 | 0.111 | -0.005 0.012 | 0.452 |
| need of NOi for the first 24h | 12.364 | 1.352 113.028 | 0.026 | 0.157 | -0.126 -0.396 | 0.297 |
| intra-thoracic stomach at X-ray | 9.200 | 1.698 49.858 | 0.010 | 0.162 | -0.133 -0.438 | 0.283 |
| bidirectional PDA or RL shunt | 20.000 | 2.140 186.874 | 0.009 | 0.189 | -0.118 -0.446 | 0.244 |
| Oxygenation index>3 | 12.420 | 1.942 79.432 | 0.007 | 0.407 | -0.026 -0.301 | 0.022 |

Risk factors for failure of thoracoscopic primary repair

In group B, eight patients needed conversion and one neonate had a primary thoracoscopic repair: in the latter case, the newborn presented with significant post-operative pulmonary hypertension leading to death within the first 24h after surgery. As the responsibility of the capnothorax could not be excluded, this case was included in group B. There were 8 conversions: four to conventional subcostal laparotomy and four to thoracotomy. All of these neonates presented a major diaphragmatic defect needing patch-closure. In five cases, the need for patch closure was considered to be the main reason for conversion. In two cases, difficult reduction of the thoracic contents required conversion and in one case, respiratory distress after CO₂ insufflation forced conversion. There was 1 case of CDH with a ruptured sac which needed conversion to help reduce the herniated organs.

2.6. Postoperative course and complications

In the postoperative period, the two groups showed different courses (see Table 6): Patients in group A had an uneventful postoperative course without mortality and with shorter postoperative ventilation periods, whereas patients in group B included 3 deaths, longer postoperative ventilation times and longer hospital stays. These differences were certainly partially due to the operative trauma of conversion, but mostly because of the pulmonary hypoplasia, which was more severe in group B with a higher requirement of postoperative treatment of PPHN requiring more than 3 different medications (iNO, sildenafil, milrinone or epoprostenol): 1 case in group A versus 3 out of the nine patients in group B.

The median follow-up duration was 47 months (see Table 7).

Recurrences were mostly observed in group A patients. There were 11 cases (39%): 2 early and 9 late recurrences. In 6 cases, the redo procedure could be completed through MAS with closure of the defects using interrupted non-absorbable sutures. Four cases required laparotomy for hernia reduction (1 patient) or patch-closure (3 patients).

Table 6 Postoperative data.

| | group A | group B |
|-----------------------------------|---------------------|----------------------|
| PPHN needing ≥2 treatments | 3 / 28 (11%) | 4 / 9 (44%) |
| PPHN needing ≥3 treatments | 1 / 28 (4%) | 3 / 9 (33%) |
| Mortality | 0 / 28 (0%) | 3 / 9 (33%) |
| Extubation (hours after surgery) | 71.25 (range 3–384) | 231.3 (range 50–648) |
| Oral feeding (days after surgery) | 7.2 (range 1–20) | 13.2 (range 7–30) |
| Hospital stay (days of life) | 18.5 (range 7–39) | 40.7 (27–60) |

PPHN: persistent pulmonary hypertension of the newborn.

Table 7 Follow-up and Complications.

| | group A | group B | P |
|---------------------------|----------------------|------------------|------|
| Median follow up (months) | 45 (12–66) | 58 (range 12–66) | 0.29 |
| Recurrence | 11 / 28 (39%) | 1 / 5 (20%) | 0.41 |
| Small bowel obstruction | 6 / 28 (21%) | 3 / 5 (60%) | 0.10 |
| | 4 recurrences | 1 recurrence | |
| | 1 Meckel perforation | 2 adhesions | |
| | 1 adhesion | | |

Thoracotomy was performed in one case for hernia reduction. In group B, one of the five surviving patients (20%) presented with a recurrence at 12 months of age.

Another important post-operative complication was the occurrence of small bowel obstruction: in most cases, this condition signaled a recurrence (see Table 7). All these cases required a secondary laparotomy.

3. Discussion

Our study could identify 5 risk factors for failure of thoracoscopic primary repair: four of them are related to physiological aspects, investigating the severity of pulmonary hypertension and the capacity to tolerate capnothorax. Only one criterion has an anatomical consideration. On multivariate logistic regression analysis, only the oxygenation index (OI) could predict the outcome of a thoracoscopic primary repair: hence, the severity of pulmonary hypertension still is the main prohibiting factor for thoracoscopic repair.

Yang [6] was the first author to propose selection criteria for thoracoscopic CDH repair: He selected patients preoperatively with anatomical (abdominal position of the stomach on a radiograph) and physiological criteria (minimal ventilatory support with PIP in the low 20scmH₂O, no clinical evidence of pulmonary hypertension before surgery). Our data confirm two of those selection criteria. First, the intra-abdominal presence of the stomach in the initial radiography suggests an intact esophageal hiatus and therefore a smaller defect with presence of a posterior diaphragmatic rim. This anatomical criterion is the only one in this study that may inform about the defect size and the eventual need for patch-closure. Second, no evidence of PPHN before surgery: Yang selected his patients with only clinical evidence of PPHN. In this study, every child had echocardiographic investigations at birth and before surgery. Those who presented a bidirectional or a right-to-left shunt through their PDA had a significantly higher risk of conversion. The last selection criterion of Yang was “minimal ventilatory support with PIP in the low 20scmH₂O”. We fully agree with this criterion indicating respiratory stability that was present in all the patients of our study.

Two other criteria indicating the severity of pulmonary hypoplasia have already been proposed by Zamakhshary et al. [25], who tried to figure out physiological criteria to determine the risk of patch closure in a historical cohort of neonates who underwent CDH repair by laparotomy. Like many pediatric surgeons, Zamakhshary et al. consider that patch closure increases the technical difficulty and the operative time, and hence the operative risks. Univariate analyses found that the following variables were significantly associated with the need for patch closure: prenatal diagnosis, birth weight <2.7kg, age <37 WGA, Apgar at 5 min <6, immediate postnatal PCO₂ >34 mmHg, immediate oxygen saturation <93%, use of iNO and the need for HFOV before surgery. On multivariate analyses, only a PaCO₂ >34 mmHg and the need for HFOV were significantly associated with the need for patch closure. Our study also found statistical significance for two of these criteria:

- The need for iNO in the first 24 h of life demonstrates the difficulty of the neonate to stabilize in the immediate postnatal period, certainly related to the importance of the lung hypoplasia. Past the period of the first 24 h of life, the use of iNO was not helpful to identify an optimal candidate for thoracoscopic repair. For 11 patients in the two groups, the use of iNO was extended to the post-operative period. Also the need for iNO during surgery was not significantly different between our groups as many pediatric teams prefer to extend this therapy postoperatively to help stabilize the patients even if not strictly necessary [30].
- The immediate postnatal PCO₂ is a good indicator of pulmonary hypoplasia and therefore for the potential capacity to tolerate capnothorax. Zamakhshary et al. propose an upper limit of 34 mmHg, whereas our study finds a threshold value of 60 mmHg. Is this major difference due to the fact that thoracoscopy may underestimate the size of the diaphragmatic defect and pushes to close defects that would have benefited from patch closure through a conventional approach? Nonetheless, a PCO₂ value of 34 mmHg is usual in neonates, even a little low in neonates presenting with a CDH when considering that you employ gentle ventilation allowing permissive hypercapnia. A postnatal PCO₂ level <60 mmHg would therefore really help select newborns presenting with CDH for thoracoscopic repair.

The last criterion that was significantly different between our groups was the oxygenation index (OI). This criterion was initially proposed by Gourlay et al. [15], who tried to characterize a cohort of newborns undergoing thoracoscopic repair and compared it to an historical group repaired through laparotomy. The thoracoscopic group had an average OI of 2.8, however Gourlay intentionally chose to increase this value to 5 to use it as a selection criterion for thoracoscopic repair. In our study, we find a threshold value of 3, where

thoracoscopy can be performed safely if the OI is <3. Hence this value is in accordance with the one calculated by Gourlay et al. Furthermore, OI is the most interesting risk factor of thoracoscopic failure, as shown on multivariate logistic regression analysis. This criterion might be the best indicator of PPHN, which is the limiting factor for thoracoscopic primary repair.

Right sided CDH seems not to be a prohibiting condition for thoracoscopic primary repair as long as there is no associated PPHN. In our series, six patients presented with a right CDH: all of them could be repaired through a thoracoscopic approach, but one died during the post-operative course due to pulmonary distress. This last patient was therefore placed in group B: retrospectively we could identify that this patient presented identical respiratory and ventilatory profiles as the other patients in group B, witnessing that PPHN is the restricting factor for the thoracoscopic approach.

Even if minimal access surgery is gaining more and more popularity among pediatric surgeons, its superiority for CDH repair in the neonatal period has still not been proven [23,31,32].

Evidence-based selection criteria may improve post-operative outcomes and enhance patient safety. They may also help engineering comparative studies as they help characterize study cohorts.

As described in the latest publications [19,32], hernia recurrence is the Achilles' heel of thoracoscopy. Also in our study, we find a significant recurrence rate of 39% far above the results that have been previously published. This discrepancy may be due to a longer follow-up period in our study compared to the previous ones. Another possible explanation to consider is the learning curve: It is a multicenter study that reports the first experiences of thoracoscopic CDH repairs from 8 different centers. Likewise, these same surgeons experiencing for the first time thoracoscopic CDH-repair have a greater urge to finish their procedure through this approach, perhaps underestimating the defect's size and closing the diaphragmatic rims with considerable tension.

Some authors consider that the high recurrence rate of thoracoscopic repair is due to a lack of dissection and mobilization of the posterior rim [23]. Others propose the larger use of patch closure to reduce the recurrence rate [19] as it enables a tension-free repair of the diaphragmatic defect. At the time of our study, patch closure was not done through thoracoscopy as the authors considered that this approach considerably increases operative time with prolonged capnothorax that can worsen an already tenuous physiologic condition. With more experience, some of the surgical teams now feel ready for thoracoscopic patch closure. Moreover, the risk factors presented in this study will help plan surgery not only by selecting those patients that will tolerate capnothorax, but also by detecting those who may need patch closure for tension-free and safe repair (by open or MAS approach).

However, all the risk factors are not perfect to use them as selection criteria. There are many biases in this study: first of all, it is a retrospective multicenter study, using data from eight different pediatric centers with different views of neonatal “stability”, even if the French CDH Study Group tries to standardize neonatal care all over the country. We also noticed different experience levels: while most centers performed 2 to 5 thoracoscopic repairs, one center reported 15 thoracoscopies for CDH repair. The experience acquired in this last center may help the surgical/anesthetic and pediatric teams facing more severe cases of CDH by a thoracoscopic approach than teams with lesser experience. In such large centers, selection criteria may be different than in smaller ones. Thus prospective studies are warranted to validate the effectiveness of using these risk factors as selection criteria in order to help small surgical centers select newborns for their first attempts of safe thoracoscopic CDH-repair.

CDH can be safely repaired in the neonatal period by thoracoscopy in specific situations. The limiting factor for thoracoscopic CDH repair is PPHN. The best indicator for PPHN is the oxygenation index (OI). Although thoracoscopic patch closure seems feasible and safe, it involves a longer operative time that could threaten the stability of the newborn. Prospective studies are nonetheless necessary to prove the effectiveness of using the risk factors described in this study as selection criteria to help protocolize neonatal CDH-management.

References

- [1] van der Zee DC, Bax NM. Laparoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in a 6-month-old child. *Surg Endosc* 1995;9:1001-3.
- [2] Becmeur F, Jamali RR, Moog R, et al. Thoracoscopic treatment for delayed presentation of congenital diaphragmatic hernia in the infant. *Surg Endosc* 2001;15:1163-6.
- [3] Silen ML, Canvasser DA, Kurkchubasche AG, et al. Video-assisted thoracic surgical repair of a foramen of Bochdalek hernia. *Ann Thorac Surg* 1995;60:448-50.
- [4] Arca MJ, Douglas CB, Lelli JL, et al. Early experience with minimally invasive repair of congenital diaphragmatic hernias: results and lessons learned. *J Pediatr Surg* 2003;38:1563-8.
- [5] Liem NT. Thoracoscopic surgery for congenital diaphragmatic hernia: a report of nine cases. *Asian J Surg* 2003;26:210-2.
- [6] Yang E, Allmendinger N, Johnson S, et al. Neonatal thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: selection criteria for successful outcome. *J Pediatr Surg* 2005;40:1369-75.
- [7] Holcomb III GW, Ostlie DJ, Miller KA. Laparoscopic patch repair of diaphragmatic hernias with Surgisis. *J Pediatr Surg* 2005;40:E1-5.
- [8] Schaarschmidt K, Strauß J, Kolberg-Schwerdt A, et al. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia by inflation-assisted bowel reduction, in a resuscitated neonate: a better access? *Pediatr Surg Int* 2005;21:806-8.
- [9] Liem NT, Dung LA. Thoracoscopic repair for congenital diaphragmatic hernia: lessons learned from 45 cases. *J Pediatr Surg* 2006;41:1713-5.
- [10] Ponsky TA, Rothenberg SS. Minimally invasive surgery in infants less than 5 kg: experience of 649 cases. *Surg Endosc* 2008;22:2214-9.
- [11] Shalaby R, Gabr K, Al-Saied G, et al. Thoracoscopic repair of diaphragmatic hernia in neonates and children: a new simplified technique. *Pediatr Surg Int* 2008;24:543-7.
- [12] Shah SR, Wishnew J, Barsness KA, et al. Minimally invasive congenital diaphragmatic hernia repair: a 7-year review of one institution's experience. *Surg Endosc* 2008;23:215.
- [13] Shah SR, Gittes GK, Barsness KA, et al. Thoracoscopic patch repair of a right-sided congenital diaphragmatic hernia in a neonate. *Surg Endosc* 2008;23:215.
- [14] Cho S, Krishnaswami S, Mckee J, et al. Analysis of 29 consecutive thoracoscopic repairs of congenital diaphragmatic hernia in neonates compared to historical controls. *J Pediatr Surg* 2009;44:80-6.
- [15] Gourlay DM, Cassidy LD, Sato, et al. Beyond feasibility: a comparison of newborns undergoing thoracoscopic and open repair of congenital diaphragmatic hernias. *J Pediatr Surg* 2009;44:1702-7.
- [16] Gomes Ferreira C, Reinberg O, Becmeur F, et al. Neonatal minimally invasive surgery for congenital diaphragmatic hernias: a multicenter study using thoracoscopy or laparoscopy. *Surg Endosc* 2009;23:1650-9.
- [17] McHoney M, Giacomello L, Nah SA, et al. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: intraoperative ventilation and recurrence. *J Pediatr Surg* 2010;45:355-9.
- [18] Said SM, Moir CR, Ishitani MB, et al. Successful thoracoscopic repair of bilateral congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg* 2010;45:E5-8 *J Pediatr Surg* 2010;45:E5-E8, 953-957.
- [19] Keijzer R, van de Ven C, Vlot J, et al. Thoracoscopic repair in congenital diaphragmatic hernia: patching is safe and reduces the recurrence rate. *J Pediatr Surg* 2010;45:953-7.
- [20] Okazaki T, Nishimura K, Takahashi T, et al. Indications for thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in neonates. *Pediatr Surg Int* 2011;27:35-8.
- [21] Liem NT, Nhat LQ, Tuan TM, et al. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: experience of 139 cases. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2011;27:35-8.
- [22] Kalfa N, Allal H, Raux O, et al. Multicentric assessment of the safety of neonatal videosurgery. *Surg Endosc* 2007;21:303-8.
- [23] Lansdale N, Alam S, Losty PD, et al. Neonatal endosurgical congenital diaphragmatic hernia repair: a systematic review and meta-analysis. *Ann Surg* 2010;252:20-6.
- [24] Bishay M, Giacomello L, Retrosi G, et al. Decreased cerebral oxygen saturations during thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia and esophageal atresia in infants. *J Pediatr Surg* 2011;46:47-51.
- [25] Zamakhshary M, Mah K, Mah D, et al. Physiologic predictors for the need for patch closure in neonatal congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Surg Int* 2008;24:667-70.
- [26] Jani J, Nicolaidis KH, Keller RL, et al. Observed to expected lung area to head circumference ratio in the prediction of survival in fetuses with isolated diaphragmatic hernia. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2007;30:67-71.
- [27] Peralta CFA, Cavoretto P, Csapo B, et al. Assessment of lung area in normal fetuses at 12-32 weeks. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2005;26:718-24.
- [28] Jani J, Peralta CFA, Van Schoubroeck D, et al. Relationship between lung-to-head ratio and lung volume in normal fetuses and fetuses with diaphragmatic hernia. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2006;27:545-50.
- [29] Doné E, Gucciardo L, Van Mieghem T, et al. Prenatal diagnosis, prediction of outcome and in utero therapy of isolated congenital diaphragmatic hernia. *Prenat Diagn* 2008;28:581-91.
- [30] Clark RH, Kueser TJ, Walker MW, et al. Low-dose nitric oxide therapy for persistent pulmonary hypertension of the newborn. *Clinical Inhaled Nitric Oxide Research Group. N Engl J Med* 2000;342:469-74.
- [31] Tsao K, Lally PA, Lally KP, et al. Minimally invasive repair of congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg* 2011;46:1158-64.
- [32] Gander JW, Fisher JC, Gross ER, et al. Early recurrence of congenital diaphragmatic hernia is higher after thoracoscopic than open repair: a single institutional study. *J Pediatr Surg* 2011;46:1303-8.

Commentaires de l'article

Cette étude a permis d'identifier cinq facteurs de risque d'échec de la thoracoscopie dans le traitement de la hernie diaphragmatique congénitale (HDC). Parmi eux, quatre étaient associés à des problèmes physiologiques comme la sévérité de l'hypertension artérielle pulmonaire et la capacité de tolérance du CO₂, et un seul critère était anatomique. Seul l'index d'oxygénation pourrait prédire la possibilité de cure de HDC par thoracoscopie, mais la sévérité de l'hypertension artérielle pulmonaire en serait encore le principal facteur de contre-indication. Ainsi nous avons pu proposer des critères de sélection pour la thoracoscopie : des critères anatomiques comme la position intra-abdominale de l'estomac sur la radiographie, suggérant que le hiatus de l'œsophage est intact, que l'orifice est petit avec présence d'une berge diaphragmatique postérieure qui seul nous oriente sur la nécessité ou non d'une éventuelle fermeture du diaphragme avec plaque ; et des critères physiologiques comme la ventilation assistée avec des pressions inspiratoires inférieures à 20cmH₂O sans évidence clinique d'hypertension pulmonaire avant la chirurgie. Ceux qui présentaient un shunt bidirectionnel droite-gauche au travers du canal artériel avaient significativement plus de risque de conversion en thoracotomie. Le dernier critère de sélection était la ventilation assistée avec des pressions inspiratoires inférieures à 20 cmH₂O. Nous sommes complètement d'accord avec ce critère de stabilité respiratoire qui a été présent chez tous les enfants de notre étude.

Deux autres critères de sévérité d'hypoplasie pulmonaire ont été proposés par Zamakhshary : la nécessité d'utiliser du NO dans les premières 24 heures de vie et la PCO₂ en postnatal immédiat ; ces deux critères sont des bons indicateurs d'hypoplasie pulmonaire (25).

Zamakhshary rapportait également que la fermeture avec patch augmentait la difficulté technique, le temps opératoire et le risque de complication. Dans

notre série, nous avons trouvé une association significative entre le degré d'hypoplasie pulmonaire et la nécessité d'une fermeture avec plaque chez les enfants qui avaient une naissance à moins de 37 SA, un poids de naissance inférieur à 2700g, un Apgar inférieur à 6 à 5 minutes de vie, une PCO_2 supérieure à 34 mm Hg immédiatement après la naissance, une saturation d'oxygène inférieure à 93, la nécessité de NO et d'une oscillation à haute fréquence (OHF) avant la chirurgie. Notre analyse multivariée a montré que seules la $PACO_2$ supérieure à 34mm Hg et la nécessité d'une OHF étaient associées à la nécessité de mettre en place une plaque. La nécessité de NO dans les premières 24h de vie montre la difficulté du nouveau-né à être stable dans la période post-natale et certains associent ce critère à une hypoplasie pulmonaire importante (24). Par contre, la nécessité de NO pendant l'intervention n'a pas montré de différence significative de résultats entre les groupes. La PCO_2 post-natale immédiate est un bon indicateur d'hypoplasie pulmonaire et un facteur important à l'intolérance de l'insufflation lors de la vidéo-chirurgie. Certains proposent une limite supérieure à 34mm Hg et notre étude avait trouvé des valeurs à 60mm Hg. Pour nous, une PCO_2 inférieure à 60mm Hg en post-natal permet une bonne sélection des cas pour ceux pouvant bénéficier d'un traitement thoracoscopique. Cependant, tous les facteurs de risque ne sont pas parfaits pour être utilisés comme critères de sélection. De nombreux biais existent dans cette étude : tout d'abord, c'était une étude multicentrique rétrospective, utilisant les données de huit centres pédiatriques différents avec des attitudes variées, même si le Centre de référence HDC français tente d'uniformiser la prise en charge néonatale dans le pays. Nous avons également remarqué différents niveaux d'expérience : alors que la plupart des centres effectue 2 à 5 réparations thoracoscopiques par an, un centre a rapporté 15 thoracosopies la même année alors que d'autres n'en ont que 0 ou 1. Dans les grands centres, les critères de sélection peuvent être différents que dans

les petits. Ainsi des études prospectives sont nécessaires pour valider l'efficacité de l'utilisation de ces facteurs de risque comme critères de sélection afin d'aider au choix des nouveau-nés candidats à la thoracoscopie en toute sécurité, d'autant qu'il s'agira d'une « première » dans certains services. Le facteur limitant pour la réparation sous thoracoscopie est l'hypertension artérielle pulmonaire et le meilleur indicateur de celle-ci est l'indice d'oxygénation (OI). Bien que la fermeture avec patch sous thoracoscopie semble faisable et sûre, cela implique un temps opératoire plus long qui pourrait menacer la stabilité du nouveau-né. C'est redire la nécessité d'études prospectives pour démontrer l'efficacité des facteurs de risque décrits dans cette étude comme critères de sélection pour aider la prise en charge des HDC.

Références

1. Van der Zee DC, Bax NM. Laparoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in a 6-month-old child. *Surg Endosc* 1995;9: 1001-3.
2. Becmeur F, Jamali RR, Moog R, et al. Thoracoscopic treatment for delayed presentation of congenital diaphragmatic hernia in the infant. *Surg Endosc* 2001;15:1163-6.
3. Silen ML, Canvasser DA, Kurkchubasche AG, et al. Video-assisted thoracic surgical repair of a foramen of Bochdalek hernia. *Ann Thorac Surg* 1995;60:448-50.
4. Arca MJ, Douglas CB, Lelli JL, et al. Early experience with minimally invasive repair of congenital diaphragmatic hernias: results and lessons learned. *J Pediatr Surg* 2003;38:1563-8.
5. Liem NT. Thoracoscopic surgery for congenital diaphragmatic hernia: a report of nine cases. *Asian J Surg* 2003;26:210-2.
6. Yang E, Allmendinger N, Johnson S, et al. Neonatal thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: selection criteria for successful outcome. *J Pediatr Surg* 2005;40:1369-75.
7. Holcomb III GW, Ostlie DJ, Miller KA. Laparoscopic patch repair of diaphragmatic hernias with Surgisis. *J Pediatr Surg* 2005;40:E1-5.
8. Schaarschmidt K, Strauß J, Kolberg-Schwerdt A, et al. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia by inflation-assisted bowel reduction, in a resuscitated neonate: a better access? *Pediatr Surg Int* 2005;21:806-8.
9. Liem NT, Dung LA. Thoracoscopic repair for congenital diaphragmatic hernia: lessons learned from 45 cases. *J Pediatr Surg* 2006;41: 1713-5.
10. Ponsky TA, Rothenberg SS. Minimally invasive surgery in infants less than 5 kg: experience of 649 cases. *Surg Endosc* 2008;22:2214-9.
11. Shalaby R, Gabr K, Al-Saied G, et al. Thoracoscopic repair of diaphragmatic hernia in neonates and children: a new simplified technique. *Pediatr Surg Int* 2008;24:543-7.
12. Shah SR, Wishnew J, Barsness KA, et al. Minimally invasive congenital diaphragmatic hernia repair: a 7-year review of one institution's experience. *Surg Endosc* 2008;23:215.
13. Shah SR, Gittes GK, Barsness KA, et al. Thoracoscopic patch repair of a right-sided congenital diaphragmatic hernia in a neonate. *Surg Endosc* 2008;23:215.

14. Cho S, Krishnaswami S, Mckee J, et al. Analysis of 29 consecutive thoracoscopic repairs of congenital diaphragmatic hernia in neonates compared to historical controls. *J Pediatr Surg* 2009;44:80-6.
15. Gourlay DM, Cassidy LD, Sato, et al. Beyond feasibility: a comparison of newborns undergoing thoracoscopic and open repair of congenital diaphragmatic hernias. *J Pediatr Surg* 2009; 44:1702-7.
16. Gomes Ferreira C, Reinberg O, Becmeur F, et al. Neonatal minimally invasive surgery for congenital diaphragmatic hernias: a multicenter study using thoracoscopy or laparoscopy. *Surg Endosc* 2009; 23: 1650-9.
17. McHoney M, Giacomello L, Nah SA, et al. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: intraoperative ventilation and recurrence. *J Pediatr Surg* 2010; 45:355-9.
18. Said SM, Moir CR, Ishitani MB, et al. Successful thoracoscopic repair of bilateral congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg* 2010;45: E5-8 *J Pediatr Surg* 2010;45:E5-E8, 953–957.
19. Keijzer R, van de Ven C, Vlot J, et al. Thoracoscopic repair in congenital diaphragmatic hernia: patching is safe and reduces the recurrence rate. *J Pediatr Surg* 2010; 45:953-7.
20. Okazaki T, Nishimura K, Takahashi T, et al. Indications for thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in neonates. *Pediatr Surg Int* 2011; 27:35-8.
21. Liem NT, Nhat LQ, Tuan TM, et al. Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: experience of 139 cases. *J Lapar- oendosc Adv Surg Tech A* 2011; 27:35-8.
22. Kalfa N, Allal H, Raux O, et al. Multicentric assessment of the safety of neonatal videosurgery. *Surg Endosc* 2007; 21:303-8.
23. Lansdale N, Alam S, Losty PD, et al. Neonatal endosurgical congenital diaphragmatic hernia repair: a systematic review and meta-analysis. *Ann Surg* 2010; 252:20-6.
24. Clark RH, Kueser TJ, Walker MW, et al. Low-dose nitric oxide therapy for persistent pulmonary hypertension of the newborn. Clinical Inhaled Nitric Oxide Research Group. *N Engl J Med* 2000; 342:469-74.
25. Zamakhshary M, Mah K, Mah D, Cameron B, Bohn D, Bass J, Scott L, Kim PC. Physiologic predictors for the need for patch closure in neonatal congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Surg Int*. 2008;24:667-70.

Neonatal minimally invasive surgery for congenital diaphragmatic hernias: a multicenter study using thoracoscopy or laparoscopy

Cindy Gomes Ferreira · Olivier Reinberg · François Becmeur ·
 Hossein Allal · Pascal De Lagausie · Hubert Lardy · Paul Philippe ·
 Manuel Lopez · François Varlet · Guillaume Podevin · Jürgen Schleef ·
 Max Schlobach

Received: 23 May 2008 / Accepted: 7 December 2008 / Published online: 5 March 2009
 © Springer Science+Business Media, LLC 2009

Abstract

Background Minimally invasive surgery (MIS) for late-presenting congenital diaphragmatic hernia (CDH) has been described previously, but few neonatal cases of CDH have been reported. This study aimed to report the multicenter experience of these rare cases and to compare the laparoscopic and thoracoscopic approaches.

Methods Using MIS procedures, 30 patients (16 boys and 14 girls) from nine centers underwent surgery for CDH within the first month of life, 26 before day 5. Only one patient had associated malformations. There were 10 preterm patients (32–36 weeks of gestational age). Their weight at birth ranged from 1,800 to 3,800 g, with three

patients weighing less than 2,600 g. Of the 30 patients, 18 were intubated at birth.

Results The MIS procedures were performed in 18 cases by a thoracoscopic approach and in 12 cases by a laparoscopic approach. No severe complication was observed. For 20 patients, reduction of the intrathoracic contents was achieved easily with 15 thoracoscopies and 5 laparoscopies. In six cases, the reduction was difficult, proving to be impossible for the four remaining patients: one treated with thoracoscopy and three with laparoscopy. The reasons for the inability to reduce the thoracic contents were difficulty of liver mobilization (1 left CDH and 2 right CDH) and the presence of a dilated stomach in the thorax. Reductions

C. Gomes Ferreira (✉) · F. Becmeur
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Pôle Mère-Enfant – Hôpital de Hautepierre, Hôpitaux Universitaires de Strasbourg, Avenue Molière, 67100 Strasbourg, France
 e-mail: cindy.gomes.ferreira@chru-strasbourg.fr

O. Reinberg
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Centre Hospitalier Universitaire Vaudois, 1011 Lausanne, Switzerland

H. Allal
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Hôpital Lapeyronie, 275, Avenue Doyen Gaston Giraud, 34295 Montpellier, France

P. De Lagausie
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Hôpital La Timone, Hôpitaux de Marseille, 264, rue Saint Pierre, 13385 Marseille Cedex 05, France

H. Lardy
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Centre Hospitalier Gatién de Clocheville, 49, Boulevard Beranger, 97044 Tours, France

P. Philippe
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Clinique Pédiatrique, Centre Hospitalier du Luxembourg, 4, rue Ernest Barblé, 1210 Luxembourg, Luxembourg

M. Lopez · F. Varlet
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Centre Hospitalier Saint Etienne, 42055 Saint Etienne Cedex 02, France

G. Podevin
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Pôle Mère-Enfant, Centre Hospitalier Universitaire Hôtel Dieu, 44093 Nantes Cedex 01, France

J. Schleef
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Children's Hospital of Trieste, IRCCS Bo Garafolo, Via dell'Istria 65/1, 34137 Trieste, Italy

M. Schlobach
 Département of Pediatric Surgery, University Hospital, Hospital Felício Rocho, Avenida do Contorno, 9530 Belo Horizonte, Brazil

were easier for cases of wide diaphragmatic defects using thoracoscopy. There were 10 conversions (5 laparoscopies and 5 thorascopies). The reported reasons for conversion were inability to reduce ($n = 4$), need for a patch ($n = 5$), lack of adequate vision ($n = 4$), narrow working space ($n = 1$), associated bowel malrotation ($n = 1$), and an anesthetic problem ($n = 1$). Five defects were too large for direct closure and had to be closed with a patch. Four required conversion, with one performed through video-assisted thoracic surgery. The recurrences were detected after two primer thorascopic closures, one of which was managed by successful reoperation using thoracoscopy.

Conclusions In the neonatal period, CDH can be safely closed using MIS procedures. The overall success rate in this study was 67%. The indication for MIS is not related to weeks of gestational age, to weight at birth (if $>2,600$ g), or to the extent of the immediate neonatal care. Patients with no associated anomaly who are hemodynamically stabilized can benefit from MIS procedures. Reduction of the herniated organs is easier using thoracoscopy. Right CDH, liver lobe herniation, and the need for a patch closure are the most frequent reasons for conversion.

Keywords Congenital diaphragmatic hernia · Laparoscopy · Newborn · Thoracoscopy

Congenital diaphragmatic hernia (CDH) results from a failure of pleuroperitoneal canal closure, which usually occurs between weeks 6 and 8 of gestation. Usually, good results are obtained after surgical treatment for late-presenting CDH, but CDH manifested by respiratory distress in the neonatal period remains a challenge for both pediatric reanimation and pediatric surgical teams.

Despite the advances in neonatal care during the past decade and the improving survival rate, exceeding 90% in some centers [1], there has been no significant evolution in the surgical management of neonatal CDH. The arrival of small videoscopic instrumentation allowed the management of neonatal CDH by pediatric surgeons trained to perform MIS procedures. The MIS approach can lead to less postoperative morbidity, faster recovery, and shorter hospitalization, but it also can precipitate complications such as pulmonary acidosis, hypoxemia, pulmonary hypertension, and mortality [2].

The first report of a laparoscopic CDH repair in a 6-month-old infant was published in 1995 by Van der Zee and Bax [3]. In 2001, Becmeur et al. [4], published a report of successful thorascopic repair in three cases of late-presenting CDH.

Ever since these first reports, the benefits of MIS for late-presenting CDH have been described, but very few

neonatal cases have been reported [5–12]. The use of MIS for those fragile patients remains controversial. This report aims to describe the multicenter experience with these rare cases, to determine the feasibility and safety of the MIS approach for newborns, and to compare the laparoscopic and thorascopic approaches.

Materials and methods

Patients

Since 2003, newborns from nine centers have been offered the possibility of MIS. The diagnosis of right or left CDH was determined prenatally or in the neonatal period by respiratory distress. Delivery was done as close to term as possible to ensure lung maturation and in a hospital using both neonatal intensive care and pediatric surgery to avoid transportation of unstable neonates.

All the neonates had a thoracoabdominal X-ray for diagnosis of CDH and localization of the nasogastric tube (thoracic or abdominal position). Pulmonary hypertension is a common finding in patients with CDH, resulting, for the most severely affected cases, in right-to-left shunting at the atrial septal or ductal levels, hypoxemia, and right heart failure. Because increased pulmonary resistance and elevated right ventricular pressures can be encountered in these infants, with no clinical manifestation of ductal shunt [13], some centers have preferred to do an echocardiography for a better pre- and postoperative survey.

Associated malformations had been sought preoperatively and ruled out. The need for intubation at birth was not considered to be a contraindication for MIS. Permissive hypercapnia with “gentle ventilation” progressing to high-frequency oscillatory ventilation and inhalation of nitric oxide are used to improve oxygenation without causing barotrauma [13].

When surgery was projected, patients had been in stable cardiovascular and respiratory conditions for at least 24 h. No inotropic therapy was tolerated, nor major ventilatory support: oxygen saturation had to be greater than 90% with a peak inspiratory pressure lower than 24 cmH₂O, a fraction of inspired oxygen less than 40%, and, if required, a maximum peak end-expiratory pressure of 3 to 4 cmH₂O. Neonates with a high partial pressure of carbon dioxide (CO₂) (>60 mmHg), acidosis (pH < 7.25), persistent pulmonary hypertension, severe associated malformations, and presumed large diaphragmatic defects requiring a patch closure were considered for conventional open procedures after medical care. Large diaphragmatic defects were presumed at prenatal detection of intrathoracic liver or severe lung hypoplasia.

Materials

The MIS procedure was performed with the patient under general endotracheal anesthesia. The choice of the anesthetic technique was left to each participating center according to the habits of the local anesthetic team.

The thoracoscopic approach no longer requires single-lung ventilation. Patients are ventilated with a pressure-limited mode and have an adequate intravenous access. Pre- and postductal oxygen saturations are monitored. Preductal saturations are kept above 80% to ensure optimal nervous oxygenation. No perioperative antibiotics are required. A nasogastric tube is used to reduce the size of the stomach.

Short 3-mm instruments are preferred for neonates because the jaws of 5-mm instruments are too large for the small working space. Most centers use a 5-mm camera (0° or 30°) to provide better light than a 3-mm camera. A monopolar electrocautery usually is sufficient. All centers but one use nonabsorbable sutures (Ethibond 2/0 or 3/0, Mersuture 2/0 (Ethicon, Sommerville, NJ, USA)) for defect closure. For large defects, patches such as Gore-Tex (Gore, Newark, DE, USA) or Mersilene (Ethicon, Sommerville, NJ, USA) meshes are available in the theater, as well as sets of conventional instruments if a conversion becomes necessary.

Methods

Thoracoscopy

Patients are placed in a lateral decubitus position as for open thoracotomy, with a small roll under the chest that allows widening of the contralateral intercostal spaces. The upper arm is left free to avoid any interference with the movements of the instruments or the thoracoscope. The surgical team faces the patient, and the monitor is positioned behind the patient. The surgeon stands close to the head of the patient with the camera holder next to him and the scrub nurse by the feet of the patient.

The first trocar for the thoracoscope is inserted immediately below the edge of the scapula through an open access under direct vision to avoid any bowel injury. The following two operating ports are placed in the fifth intercostal space on the anterior axillary line and in the fourth intercostal space between the thoracoscope port and the spine (Fig. 1).

Carbon dioxide is insufflated at a low flow rate of 1.5 l/min and a maximal pressure of 4 to 6 mmHg. The low-pressure insufflation collapses the pulmonary parenchyma sufficiently to achieve a good exposure of the diaphragm without increasing ventilatory pressures or end-tidal CO₂ concentrations.

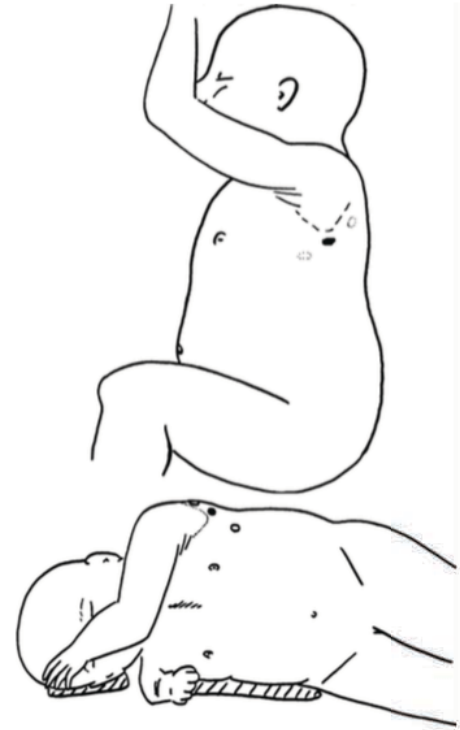


Fig. 1 Visualization of the port position for the thoracoscopic approach. The solid dot indicates the position of the optic trocar. The gray dots indicate the positions of the operating ports

The first step of the procedure consists of reducing the herniated viscera within the abdomen. The CO₂ insufflation helps to turn back the hernia content, avoiding an endoscopic retractor, and can be stopped after this step. The insufflation alone can be sufficient to reduce CDH with a sac so that manipulation of the sac with an instrument is not needed. If no sac is present, the herniated intestine, omentum, stomach, and finally the spleen or liver are gently pushed back into the abdomen with help of the CO₂ clearance and two videoscopic blunt retractors.

The reduction of the spleen can be difficult, especially in the case of small defects. A third operating trocar can be used to keep the defect wide open during the reduction. But after reduction, the arrangement of the intestine within the abdomen and the elements of the bowel malrotation cannot be evaluated from the thorax. Because this step requires CO₂ insufflation, ventilation parameters and arterial blood gases are carefully monitored. No significant variation is tolerated, forcing the operator to stop temporary insufflation. After reduction of the hernia, CO₂ insufflation is no more needed and is stopped.

In the second step, the size of the defect is evaluated for repair. Usually, it is not necessary to resect a sac. If advisable, this must be done carefully without electrocautery to avoid any damage to the diaphragmatic innervation or vascularization. When no sac is present, the muscular diaphragmatic

borders are scarified in an attempt to mobilize the diaphragmatic circumference. Small defects can be closed primarily with interrupted nonabsorbable sutures. The threads can be tightened either intra- or extracorporeally.

Large defects often require the use of a patch, which is preferred to direct closure under tension [11]. The introduction of a patch usually needs a conversion (thoracotomy), but it also can be inserted through small incisions and fixed by video-assisted thoracic surgery (VATS). The more lateral portion of the defect (lacking a lateral diaphragmatic rim) can be repaired with a pledgetted rib-anchoring stitch. Because of the narrow working space, some centers prefer to pass the stitch from the outside to the inside, then through the diaphragmatic rim with a pledget, making a U-shaped stitch, and finally from the inside to the outside, with tightening of this stitch extracorporeally over the appropriate rib.

Once the diaphragmatic repair is done, manual ventilation helps to expand the collapsed lung. The ports then are removed and the wounds closed. A catheter is inserted into the chest through the last port hole and placed under water seal to remove as much air as possible before removal of the catheter and closure of the port hole, thus avoiding the use of a chest tube postoperatively.

Laparoscopy

Patients are placed supine in a slight reverse Trendelenburg position. The arms are kept over the shoulders. The surgeon stands at the foot of the table, thus facing the diaphragm, with the scrub nurse to his right and the camera holder to his left. Two monitors are used, one at each side of the table.

Three to four trocars are used. The laparoscope is placed in the umbilicus and the operator ports on the right midclavicular line, left midclavicular line, and, if needed, on either the left or right anterior axillary line (Fig. 2). The third operator trocar can be of great help to keep the defect wide open during the reduction and to expose the cleft while it is sutured.

The CO₂ insufflation is kept at a low flow rate of 1.5 l/min. A maximal pressure of 6 to 8 mmHg is needed during the whole procedure. Indeed, after reduction of the herniated viscera, the abdominal space becomes restricted, and insufflation must be maintained to help expose the area of interest.

As with the thoracoscopic approach, the first step is to reduce the herniated bowel into the abdomen. The defect is kept open with a blunt retractor while the bowel is gently pulled with one or two laparoscopic instruments. Until the bowel is completely replaced in the abdomen, a gradient of pressure persists between the abdomen and the thorax, which impairs reduction and perhaps leads to conversion. Moreover, some traction using thin instruments must be applied to the bowel, which can be damaged in unskilful hands.

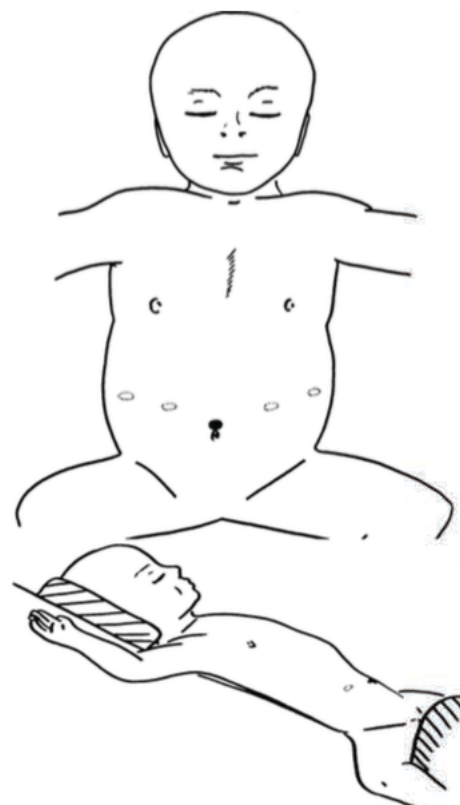


Fig. 2 Visualization of the port positions for the laparoscopic approach. The solid dot indicates the position of the optic trocar. The gray dots indicate the positions of the operating ports. The most lateral dots are used only if a third operating trocar is needed to help expose a right or left congenital diaphragmatic hernia (CDH)

After the reduction, the defect is examined and repaired. The pulmonary hypoplasia can be inspected by introduction of the laparoscope through the defect. Small defects are closed with interrupted nonabsorbable sutures. To avoid tension on the edges of the cleft during the suturing, the upper thread can be pulled through the abdominal wall as a suspension thread or lifted up with a forceps. Large defects require a patch closure, which needs a conversion for insertion and an adequate fit to the size of the defect (conventional laparotomy). Usually, bowel malrotation cannot be explored properly with this technique because the abdominal space is very confined after defect closure. The pneumoperitoneum then is deflated and the port wounds closed.

Results

Patients

Since 2003, 30 neonates (16 boys and 14 girls) from nine centers have benefited from a CDH repair by MIS procedure during the first month of life (26 before day 5;

mean, 4.33 days) after respiratory and cardiovascular stabilization.

A prenatal diagnosis of CDH was determined in 19 cases, whereas 3 right CDH and 27 left CDH were diagnosed at birth. None of the neonates presented associated malformations preoperatively, but in one case, a total diaphragmatic defect with an associated pericardial defect was discovered during the procedure.

There were 10 preterm newborns ranging in gestational age from 32 to 36 weeks. Their weight at birth varied from 1,800 to 3,800 g. Three of the full-term newborns weighed less than 2,600 g (mean, 2879 g).

A total of 18 newborns were intubated at birth. In three cases, postnatal respiratory distress was the revelatory form of CDH needing immediate ventilatory support. In most cases, intubation was performed by the neonatology team for better respiratory management of infants with a prenatal diagnosis of CDH.

Operative findings

Among the 30 MIS procedures performed in the nine centers, 18 were performed using thoracoscopy (Table 1), and 12 using laparoscopy (Table 2). Perioperative findings showed total defects in 5 cases, large defects in 19 cases, and small defects in 6 cases.

Reduction of the intrathoracic contents was easily achieved in 20 cases. Among the 18 reductions by thoracoscopy, 15 were easily achieved, but only 5 of the 12 were performed using laparoscopy. Reduction was easier in the case of large defects. Reduction was considered difficult in six cases: two managed thoracoscopically and four managed laparoscopically. The reduction difficulties were related primarily to the presence of the stomach or the liver in the thorax and to the smallness of the defect.

In four cases, the videoscopic reduction was impossible. In the first reported case, a laparoscopic approach found a narrow diaphragmatic defect, with the colon, the intestine, and the spleen in the hernia. The traction needed for reduction was considered too hazardous, and the surgeon preferred a conversion to a laparotomy. In two other cases of right CDH with liver in the hernia, the laparoscopic approach did not succeed in reducing the liver although the defects were considered to be large.

In the last reported case, a thoracoscopy visualized a total diaphragmatic defect with ascension of the stomach, the intestine, the colon, the left liver, and the spleen. The nasogastric tube could not be placed preoperatively, leaving the stomach to be deflated and reduced. During the reduction attempts, some bleeding from the liver occurred, and the procedure was converted to a thoracotomy. The reduction of the spleen was always achieved by either thoracoscopy or laparoscopy.

There were 10 conversions: 5 laparoscopies converted to a conventional subcostal laparotomy and 5 thoracoscopies converted to thoracotomy α to VATS in one case. As shown in Table 3, the reasons reported for conversion were

- the impossibility of reduction
- the need for a patch to near a large defect
- the lack of adequate vision and restricted working space with laparoscopic approaches after reduction
- associated bowel malrotation diagnosed during a laparoscopy
- an anesthetic problem experienced by a patient presenting with severe respiratory distress through lateral decubitus even before thoracic insufflation. This patient, born at a gestational age of 39 weeks, had to be intubated at birth. He was immediately taken to the operating room without clear determination of his respiratory condition. The procedure had to be performed by conventional laparotomy, and the boy experienced no complications postoperatively.

Five defects were too wide for direct closure and needed a patch. The insertion and closure were performed after conversion to thoracotomy in three cases and to laparotomy in one case. In one case, the surgeon made a 2-cm-long thoracic incision and completed the procedure using VATS. All these procedures were achieved without severe operative complications.

Postoperative course and complications

Postoperative care is related to the degree of pulmonary hypoplasia and to the persistence of pulmonary hypertension, which dictate further hemodynamic and ventilatory outcomes. The immediate postoperative course was reported to be simple in 28 cases (16 thoracoscopies and 12 laparoscopies). One newborn experienced a small bowel obstruction on day 8 after thoracoscopic surgery, which was resolved conservatively. Another newborn had peritonitis on day 10, with a laparotomy showing a perforation of a Meckel's diverticulum. He initially underwent surgery by a thoracoscopic approach, which failed to diagnose the heterotopic gastric tissue.

Two cases of recurrence were observed, both after operation by thoracoscopy with direct closure of the defects using interrupted nonabsorbable sutures. In the first case, a partial recurrence was experienced 1 month after the repair. The patient underwent successful reoperation by the thoracoscopic approach, with the addition of two rib-anchoring stitches to the sutures, which closed and secured the defect. In the second case, the recurrence was diagnosed 1 year after repair. In this case also, the repair was initiated by a thoracoscopic approach, which diagnosed a small defect (2–3 cm) with a hernia of the stomach. The stomach could

Table 1 Results of the thoracoscopic approach

| No. | Center | Sex | WGA | Weight at birth (g) | Side | Age (days) | Defect position | Defect size | Herniated content | Reduction | Closure | Conversion |
|-----|-------------|-----|-----|---------------------|-------|------------|-----------------|-------------|-------------------------------|------------|-----------------|------------------|
| 1 | Strasbourg | M | 41 | 3,120 | Right | 3 | Posterior | Large | Bowel | Easy | Direct suture | No |
| 2 | Strasbourg | M | 40 | 3,600 | Left | 1 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Difficult | Direct suture | No |
| 3 | Strasbourg | F | 32 | 1,800 | Left | 2 | Posterior | Large | Bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 4 | Strasbourg | M | 38 | 3,000 | Left | 2 | Posterior | Large | Bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 5 | Strasbourg | M | 35 | 3,400 | Left | 1 | Posterior | Total | Stomach, bowel, spleen, liver | Easy | Direct suture | No |
| 6 | Strasbourg | M | 39 | 2,800 | Left | 2 | Posterior | Small | Bowel | Easy | Direct suture | No |
| 7 | Strasbourg | F | 35 | 3,800 | Left | 2 | Posterior | Total | Stomach, bowel, spleen, liver | Difficult | Gore-Tex patch | Yes, thoracotomy |
| 8 | Strasbourg | M | 37 | 2,600 | left | 3 | Posterior | Total | Bowel, spleen, liver | Easy | Gore-Tex patch | Yes, VATS |
| 9 | Strasbourg | M | 41 | 3,200 | Left | 2 | Posterior | Total | Stomach, bowel, spleen | Impossible | Vicryl patch | Yes, thoracotomy |
| 10 | Marseille | M | 40 | 3,150 | Left | 1 | Posterior | Large | Bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 11 | Marseille | F | 40 | 2,700 | Left | 2 | Posterior | Large | Bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 12 | Luxembourg | F | 38 | 2,920 | Left | 4 | Posterior | Total | Stomach, bowel, spleen | Easy | Mersilene patch | Yes, thoracotomy |
| 13 | Nantes | M | 37 | 3,400 | Left | 2 | Posterior | Small | Bowel | Easy | Direct suture | No |
| 14 | Nantes | M | 39 | 3,100 | Left | 2 | Anterior | Small | Bowel | Easy | Direct suture | No |
| 15 | Lausanne | F | 36 | 2,800 | Left | 4 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 16 | Trieste | F | 40 | 2,900 | Left | 1 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 17 | Trieste | F | 34 | 2,110 | Left | 1 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 18 | St. Etienne | F | 39 | 2,840 | Left | 0 | Posterior | Large | Bowel, spleen | Easy | Direct suture | Yes, laparotomy |

WGA weeks of gestational age; VATS video-assisted thoracic surgery

Table 2 Results of the laparoscopic approach

| No. | Center | Sex | WGA | Weight at birth (g) | Side | Age (days) | Defect position | Defect size | Herniated content | Reduction | Closure | Conversion |
|-----|---------------|-----|-----|---------------------|-------|------------|-----------------|-------------|------------------------|------------|----------------|-----------------|
| 1 | Montpellier | M | 34 | 2,300 | Right | 19 | Posterior | Large | Liver | Impossible | Direct suture | Yes, laparotomy |
| 2 | Montpellier | M | 38 | 3,060 | Left | 2 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Difficult | Direct suture | No |
| 3 | Montpellier | M | 39 | 3,700 | Left | 3 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 4 | Montpellier | F | 36 | 2,400 | Left | 2 | Posterior | Small | Bowel, liver | Difficult | Direct suture | Yes, laparotomy |
| 5 | Montpellier | F | 36 | 2,400 | Left | 1 | Posterior | Small | Stomach, bowel, spleen | Impossible | Direct suture | Yes, laparotomy |
| 6 | Lausanne | F | 38 | 3,200 | Left | 4 | Posterior | Large | Bowel | Easy | Direct suture | No |
| 7 | Lausanne | F | 38 | 2,900 | Left | 2 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Easy | Direct suture | No |
| 8 | Lausanne | M | 38 | 2,900 | Right | 3 | Posterior | Large | Liver | Impossible | Gore-Tex patch | Yes, laparotomy |
| 9 | Lausanne | F | 38 | 3,200 | Left | 14 | Posterior | Large | Bowel | Easy | Direct suture | No |
| 10 | Belohorizonte | M | 34 | 2,300 | Left | 17 | Posterior | Large | Stomach, bowel | Easy | Direct suture | No |
| 11 | Belohorizonte | M | 34 | 2,270 | Left | 28 | Posterior | Small | Stomach, bowel | Difficult | Direct suture | No |
| 12 | St. Etienne | F | 39 | 2,750 | Left | 0 | Posterior | Large | Stomach, bowel, spleen | Difficult | Direct suture | Yes, laparotomy |

WGA weeks of gestational age

not be reduced through this small opening, and a conversion was preferred.

Discussion

As MIS gained more and more popularity among pediatric surgeons, its use for CDH repair was only a matter of time. Several reports of late-presenting CDH closures through MIS procedures have been published, but very few are related to successful closure in newborns (Table 4).

Currently, the use of MIS in newborns remains controversial. Carbon dioxide insufflation can rapidly worsen the respiratory and hemodynamic conditions of these fragile beings, increasing partial pressure of CO₂ levels, pulmonary acidosis, hypoxemia, and pulmonary hypertension. For these reasons, the use of physiologic criteria to select the healthier newborns who would tolerate CO₂ insufflation is mandatory.

The selected patients demonstrated respiratory and hemodynamic stability at the time of the procedure. Severe pulmonary hypoplasia causing respiratory distress, pulmonary hypertension, and hemodynamic instability were considered to be contraindications for MIS. Associated malformations also have been sought preoperatively to rule out other contraindications such as cardiovascular malformations causing right-to-left shunts, but also to exclude patients with intracranial hypertension.

The experience of the various involved centers shows that neither the gestational age, nor the weight at birth, nor the need for immediate ventilatory support at birth must be considered as contraindications for MIS as long as the patient is stabilized before surgery.

With the use of these selection criteria, the overall success rate for MIS used to manage CDH in neonates is 67%. The reduction and repair of wide defects are reported to be easier using the thoracoscopic approach. The thoracoscopic success rate reaches 72%, whereas the laparoscopic success rate is only 58%.

This success rate could be raised with more selection criteria, as suggested by Yang et al. [8]. In Yang's study, to avoid intraoperative physiologic perturbations, newborns were selected using physiologic criteria such as the absence of pulmonary hypertension and the use of minimal ventilatory support preoperatively. Anatomic criteria such as the presence of the stomach in the abdomen, which suggests an intact esophageal hiatus with a normal position of the stomach and liver, also have been considered for the selection of patients whose diaphragm can be primarily repaired. The authors estimate that 25% to 30% of neonates with CDH could be eligible for MIS repair.

Conversions were mostly due to the need for a patch and to the impossibility of reduction in our study. These could be avoided with the anatomic selection criteria of Yang

Table 3 Conversion cases

| No. | Center | Sex | Gestation age (weeks) | Weight at birth (g) | Prenatal diagnosis | Intubated at birth | Side | Associated malformation | Age (days) | Approach | Defect size | Hernia content | Reduction | Closure | Reason for conversion |
|-----|-------------|-----|-----------------------|---------------------|--------------------|--------------------|-------|-------------------------|------------|--------------|-------------|-------------------------------|------------|---------|--|
| 1 | Montpellier | M | 34 | 2,300 | No | No | Right | | 19 | Laparoscopy | Large | Liver | Impossible | Direct | Liver reduction impossible |
| 2 | Montpellier | F | 36 | 2,400 | No | Yes | Left | | 2 | Laparoscopy | Small | Bowel, liver | Difficult | Direct | Associated bowel malrotation |
| 3 | Montpellier | F | 36 | 2,400 | Yes | Yes | Left | | 1 | Laparoscopy | Small | Stomach, bowel, spleen | Impossible | Direct | Reduction impossible |
| 4 | Strasbourg | F | 35 | 3,800 | Yes | Yes | Left | Pericardial defect | 2 | Thoracoscopy | Total | Stomach, bowel, spleen, liver | Difficult | Patch | Reduction difficulty, insertion of a patch |
| 5 | Strasbourg | M | 37 | 2,600 | Yes | Yes | Left | | 3 | Thoracoscopy | Total | Bowel, spleen, liver | Easy | Patch | Patch insertion required a 2-cm large thoracotomy (VATS) |
| 6 | Strasbourg | M | 41 | 3,200 | Yes | Yes | Left | | 2 | Thoracoscopy | Total | Stomach, bowel, spleen, liver | Impossible | Patch | Reduction impossible, insertion of a patch |
| 7 | Luxemburg | F | 38 | 2,920 | Yes | Yes | Left | | 4 | Thoracoscopy | Total | Stomach, bowel, spleen | Easy | Patch | Insertion of a patch |
| 8 | Lausanne | M | 38 | 2,900 | Yes | No | Right | | 3 | Laparoscopy | Large | Liver | Impossible | Patch | Reduction impossible, insertion of a patch |
| 9 | St. Etienne | F | 39 | 2,840 | Yes | Yes | Left | | 0 | Thoracoscopy | Large | Bowel, spleen | Easy | Direct | Respiratory distress through lateral decubitus, even before insufflation |
| 10 | St. Etienne | F | 39 | 2,750 | No | No | Left | | 0 | Laparoscopy | Large | Stomach, bowel, spleen | Difficult | Direct | Lack of visibility and restricted working space after reduction |

VATS video-assisted thoracic surgery

Table 4 Reports of congenital diaphragmatic hernia (CDH) repair in neonates

| Author | Date of publication | Thoracoscopy | | Laparoscopy | |
|------------------------|---------------------|---------------------------------|---------|---------------------|--------------------------------|
| | | Success | Failure | Success | Failure |
| Shah AV and Shah AV | 2002 | | | 1 | 0 |
| Wang Z et al. | 2002 | 1 | 0 | | |
| Arca MJ et al. | 2003 | 1 (conversion from laparoscopy) | 3 | 1 (Morgagni hernia) | 1 (conversion to thoracoscopy) |
| Yang EY et al. | 2005 | 7 | 0 | | |
| Schaarschmidt K et al. | 2005 | 1 | 0 | | |
| Holcomb GW III et al. | 2005 | | | 1 | 0 |
| Liem NT and Dung LA | 2006 | 16 | 3 | | |
| Current study | | 13 | 5 | 7 | 5 |
| Total | | 50 | | 16 | |
| | | 39 | 11 | 10 | 6 |

et al. [8], which suppose a preoperative abdominal plain film to check the presence of the nasogastric tube in the abdomen. An endoscopic diaphragmatic patch closure is technically feasible but should be avoided because the additional time needed could lead to physiologic perturbation, intraoperative crisis, and further postoperative complications in neonates [7, 12].

Since 1995, when the first laparoscopic CDH repair was reported by Van der Zee and Bax [3], the thoracoscopic approach, first described for adults, has gained increasing popularity among pediatric surgeons. Thoracoscopy allows an extended thoracic examination, easier reduction, a large working space after reduction, and intermittent CO₂ insufflation. On the other hand, this technique does not allow examination of the intraabdominal viscera. The bowel is pushed down without any control below the diaphragm, making subsequent diagnosis of bowel malrotation or other abdominal anomaly impossible. Consequently, the risk of abdominal viscera puncture during suture has been reported [7].

The benefits of laparoscopy are the possibility of an abdominal viscera examination, a secure suturing without risk of visceral injury, and an easy conversion (by the conventional approach) if needed. However, the laparoscopic approach offers limited working space with a lack of vision after reduction. It also requires a sustained CO₂ insufflation and the frequent use of a third operating trocar to maintain the defect open during reduction. Laparoscopic examination of associated bowel malrotation or other abdominal anomalies is difficult because of the restricted working space. In one case, an efficient examination allowed the diagnosis of an associated bowel malrotation, but its laparoscopic repair was not possible because of a limited working space, and a conversion was necessary. Furthermore, one patient presented with a perforation of a Meckel's diverticulum on day 8 after thoracoscopic repair. The Meckel's diverticulum could not be seen through the

thoracoscopic approach. But even if it had been diagnosed, its systematic resection remains controversial, even during a conventional procedure.

Therefore, both the thoracoscopic and laparoscopic approaches have their respective benefits. Even if the success rate for thoracoscopy is higher than for laparoscopy, both techniques have to be considered for CDH repair. As Becmeur et al. [12] describe, in the case of an incarcerated hernia, both thoracoscopy and laparoscopy can be used. Better bowel control can be accomplished through the laparoscopic approach, with easy reduction and defect repair performed through the thoracoscopic approach.

The aim of this study was not to claim superiority of MIS in the treatment of CDH during the neonatal period, but to assess the feasibility and the safety of this technique for newborns who present with a stable hemodynamic and respiratory status and no severe associated malformations. Only future prospective studies can demonstrate the superiority of one of these techniques.

References

- Downard CD, Jaksic T, Garza JJ et al (2003) Analysis of an improved survival rate for congenital diaphragmatic hernia. *J Pediatr Surg* 38:729–732
- Kalfa N, Allal H, Raux O et al (2007) Multicentric assessment of the safety of neonatal videosurgery. *Surg Endosc* 21:303–308
- Van der Zee DC, Bax NM (1995) Laparoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in a 6-month-old child. *Surg Endosc* 9:1001–1003
- Becmeur F, Jamali RR, Moog R et al (2001) Thoracoscopic treatment for delayed presentation of congenital diaphragmatic hernia in the infant. *Surg Endosc* 15:1163–1166
- Shah AV, Shah AA (2002) Laparoscopic approach to surgical management of congenital diaphragmatic hernia in newborn. *J Pediatr Surg* 37:548–550
- Wang Z, Zhang Z, Yang C et al (2002) Clinical practice of video-assisted thoracoscopic surgery in children. *Zhonghua Wai Ke Za Zhi* 40:401–403

Commentaires de l'article

L'expérience des différents centres impliqués montre que ni l'âge gestationnel, ni le poids de naissance, ni la nécessité d'une assistance respiratoire immédiate à la naissance, ne doivent être considérés comme des contre-indications pour la vidéo-chirurgie. Avec l'utilisation de ces critères de sélection, le taux de réussite globale de la vidéo-chirurgie dans la cure de la HDC chez les nouveau-nés est de 67%. La réduction et la réparation de larges défauts sont signalées être plus faciles en utilisant l'approche thoracoscopique. Le taux de réussite atteint 72% par thoracoscopie, tandis que le taux de réussite par laparoscopie est de seulement 58%. Ce taux de réussite pourrait être amélioré avec plusieurs critères de sélection, comme suggéré par Yang *et al* dans leur étude où, pour éviter des perturbations physiologiques peropératoires, les nouveau-nés ont été sélectionnés sur des critères physiologiques tels que l'absence d'hypertension artérielle pulmonaire et l'utilisation du soutien ventilatoire minimum préopératoire (1). Ils décrivaient également des critères anatomiques tels que la présence de l'estomac dans l'abdomen, suggérant un hiatus intact avec une position normale de l'estomac et du foie. Les auteurs estiment que 25% à 30% des nouveau-nés avec HDC seraient opérables sous vidéo-chirurgie. La thoracoscopie permet une réduction plus facile, un espace de travail plus grand après réduction et l'insufflation de CO₂ intermittente. Dans notre étude, des conversions se sont avérées nécessaires, dans la plupart de cas en raison de l'impossibilité de réduction de la hernie ou de la mise en place d'un patch. D'autre part, la thoracoscopie ne permet pas l'examen des viscères intra-abdominaux ; l'intestin est poussé vers le bas sans contrôle en dessous du diaphragme, rendant le diagnostic de malrotation associée de l'intestin ou autre anomalie abdominale impossible.

Les avantages de la laparoscopie sont la possibilité d'un examen des viscères abdominaux, une suture sécurisée sans risque de blessure viscérale, et une conversion facile (par la méthode conventionnelle par laparotomie) si nécessaire. Cependant, l'approche laparoscopique offre un espace de travail limité lié à un manque de vision après réduction. Il exige aussi une insufflation de CO₂ soutenue et l'utilisation fréquente d'un troisième trocart opérateur. L'examen laparoscopique d'une malrotation intestinale associée ou d'autres anomalies abdominales est difficile en raison de l'espace de travail restreint. Dans une observation, un examen efficace a permis le diagnostic d'une malrotation intestinale associée, mais sa réparation laparoscopique n'a pas été possible en raison d'un espace de travail limité, et une conversion fut nécessaire. En outre, un patient a présenté une perforation d'un diverticule de Meckel au 8^{ème} jour après la réparation thoracoscopique. Il ne pouvait pas être vu par l'approche thoracoscopique. Mais même s'il avait été diagnostiqué, son exérèse systématique reste controversée, même au cours d'une procédure classique. Par conséquent, les deux approches laparoscopique et thoracoscopique ont leurs avantages respectifs. Même si le taux de réussite pour la thoracoscopie est plus élevé que pour la laparoscopie, les deux techniques doivent être prises en considération pour la réparation de la HDC. Le but de cette étude n'était pas de revendiquer la supériorité de la chirurgie mini-invasive au cours de la période néonatale, mais d'évaluer la faisabilité et la sécurité de cette technique pour les nouveau-nés qui présentent une hémodynamique et un état respiratoire stables, et aucune malformation associée sévère.

Références

1. Yang EY, Allmendinger N, Johnson SM, Chen C, Wilson JM, Fishman SJ. Neonatal thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia: selection criteria for successful outcome. *J Pediatr Surg.* 2005;40:1369-75.

L'atrésie de l'œsophage & Thoracoscopie

L'approche classique de la cure d'atrésie de l'œsophage se fait par une thoracotomie postéro-latérale. Les inconvénients d'une thoracotomie ont été reconnus depuis longtemps : asymétrie de la paroi thoracique, fusion costale, scoliose, mauvais développement du sein chez la fille, et du muscle pectoral, scapula lata. De plus la douleur chronique après une intervention chirurgicale thoracique, au moins chez les adultes, est un problème rapporté dans plus de 50% des cas. La première cure thoracoscopique d'atrésie de l'œsophage sans fistule trachéo-œsophagienne a été rapportée en 1999 par Lobe et Rothenberg (1) et la première atrésie de l'œsophage avec fistule distale par Rothenberg en 2000 (2), alors que Bax et Van der Zee publiait une première série de huit cas avec fistule distale en 2002, avec des résultats comparables à ceux de la chirurgie ouverte (3). Le principal avantage de l'abord thoracoscopique est la réduction de la morbidité liée à la thoracotomie. L'excellente visibilité des structures anatomiques permet une dissection efficace et précise, en particulier dans le médiastin supérieur pour séparer l'œsophage supérieur de la trachée. Cette visibilité dépend de deux facteurs: l'insufflation de la cavité pleurale et la rétraction du poumon. L'insufflation de CO₂ dans l'espace pleural semble être bien tolérée chez les nouveau-nés si elle reste modérée (4-5mmHg).

Nous nous sommes beaucoup intéressés à ce sujet, tout d'abord à Montpellier sous la direction du Dr H Allal avec deux articles. Dans notre premier travail nous rapportons les bénéfices de la thoracoscopie pour traiter les fistules trachéo-œsophagienne en H.

Thoracoscopic Repair of H-Type Tracheoesophageal Fistula in the Newborn: A Technical Case Report

By H. Allal, F. Montes-Tapia, G. Andina, M. Bigorre, M. Lopez, and R. B. Galifer
Montpellier, France

H-type tracheoesophageal fistula (H-TEF) without esophageal atresia makes up 4% to 5% of esophageal congenital abnormalities. The authors present the thoracoscopic treatment of a 2.47-kg newborn boy with a fistula between the second and third thoracic vertebrae diagnosed by esophagography. Four trocars were used for fistula closure, and tracheal and esophageal suturing were accomplished without intraoperative incident. Five days after surgery, results of

a barium swallow excluded anastomotic leaks. The chest tube was removed, and oral feeding was initiated.
J Pediatr Surg 39:1568-1570. © 2004 Elsevier Inc. All rights reserved.

INDEX WORDS: H-type tracheoesophageal fistula, thoracoscopy.

H-TYPE TRACHEOESOPHAGEAL fistula (H-TEF) is a communication between the posterior wall of the trachea that extends over an oblique course like the letter N to a more caudal position on the anterior wall of the esophagus. This rare anomaly makes up 4% to 5% of esophageal congenital abnormalities (ECA). The symptoms of H-TEF start mainly at birth, but diagnosis may be difficult and delayed.

Fistulas below the second thoracic vertebra make up only 30% of H-TEF cases, and surgical treatment is via thoracotomy, with sectioning of the fistula and suturing of the esophageal and tracheal ends.^{1,2}

We present our surgical technique for a case of intrathoracically treated H-TEF using a thoracoscopic approach, and we believe this is the first time such a case has been reported in the literature.

CASE REPORT

A premature boy weighing 2.47 kg presented with vomiting, cyanosis, and cough from birth, and the suspicion of tracheoesophageal communication. He was transferred to our department on the eighth day of life for further workup and management. An H-TEF without associated anomalies was diagnosed by esophagography, which showed an oblique course of the fistula and a level between the second and third thoracic vertebrae (Fig 1).

Surgical Technique

After induction of general anesthesia and nonselective orotracheal intubation, the patient was positioned in the left lateral decubitus

position, slightly prone. The surgeon and assistant stood in front of the patient. Four trocars were used: first, a pneumothorax was created with the Palmer needle in the fifth intercostal space in the midaxillary line. A 5-mm trocar was then placed there to admit a 5-mm 0° telescope. The second and third 3-mm trocars were placed in the fourth and sixth intercostal spaces in the anterior axillary line for instrumentation, and a fourth 3-mm trocar was placed in the sixth intercostal space in the posterior axillary line for downward and medial lung retraction (Fig 2). Insufflation with CO₂ (6 mm Hg) was used to maintain the decompression of the right lung. The pleura overlying the posterosuperior mediastinum was incised, exposing the azygos vein. Dissection of the tracheoesophageal space showed the fistula (Fig 3) just above this vein. Distal-to-proximal closure of the tracheal side of the fistula was performed by 4 simple stitches of Vicryl 5-0 (Fig 4). The esophageal side of the fistula then was sectioned and closed with simple stitches of Vicryl 5-0, first the mucous membrane and then the muscular layer. Finally, the 8F chest tube was left by the office of the sixth intercostal space in the posterior axillary line with the tip located near the anastomosis, without suction. Closure of the other orifices was accomplished with Monocryl 4-0. The operating time was 90 minutes, and there were no intraoperative incidents. Barium swallow excluded anastomotic leaks on postoperative day 5 (Fig 5); the chest tube then was removed, and oral feeding was initiated.

DISCUSSION

The first cases of thoracoscopic treatment of esophageal congenital abnormalities used video-assisted thoracoscopy,³⁻⁴ but, more recently, different types of ECA have been treated exclusively by thoracoscopy.⁵⁻⁶ The key in the approach to H-TEF is determining the exact localization of the fistula, cervical or thoracic, with the thoracic approach appropriate for only one third of H-TEF cases. In this report, we show that fistulas below T2 are easily approached by thoracoscopy. Some investigators recommend an open insertion of the first trocar, but others use the Veres needle.^{7,8} Gentle insufflation with CO₂ (6 mm Hg of pressure), aided by a clamp that retracts the lung, allows good visualization of the thoracic entrance without respiratory or hemodynamic compromise. Some investigators prefer to apply clips on the

From Service de Chirurgie Viscérale Pédiatrique, Hôpital Lapeyronie, Montpellier, France.

Address reprint requests to Hossein Allal, MD, Service de Chirurgie Viscérale Pédiatrique, Hôpital Lapeyronie, 371 Avenue du Doyen Gaston Giraud, 34295 Montpellier Cedex 5, France.

© 2004 Elsevier Inc. All rights reserved.

0022-3468/04/3910-0024\$30.00/0

doi:10.1016/j.jpedsurg.2004.06.030



Fig 1. Esophagography shows an oblique course of H-TEF in the chest.

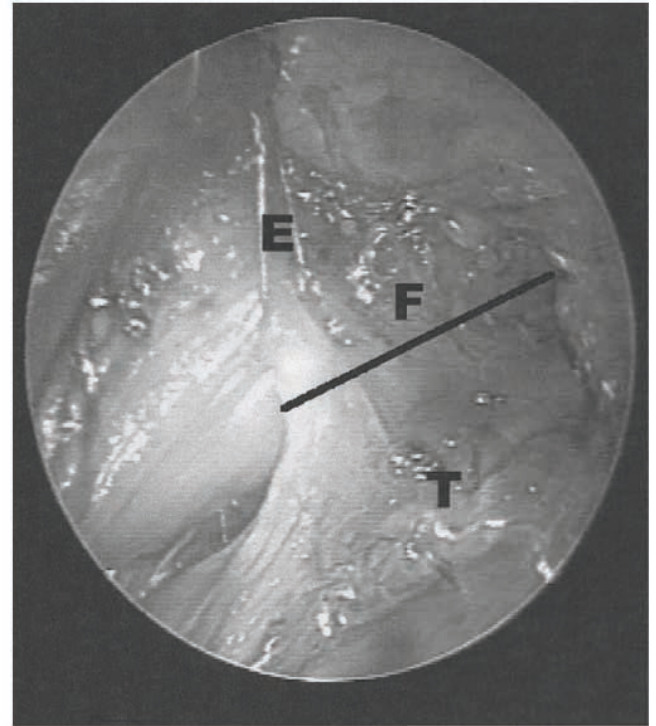


Fig 3. Dissection of the tracheoesophageal space shows the fistula just above the azygos vein. E, esophagus; T, trachea; F, fistula.

fistula in cases of esophageal atresia,⁵ whereas others prefer separated knots.⁷ To date, no randomized studies have compared the 2 methods. One major benefit of the thoracoscopic approach is that magnification allows better assessment of the exact fistula ligation site on the

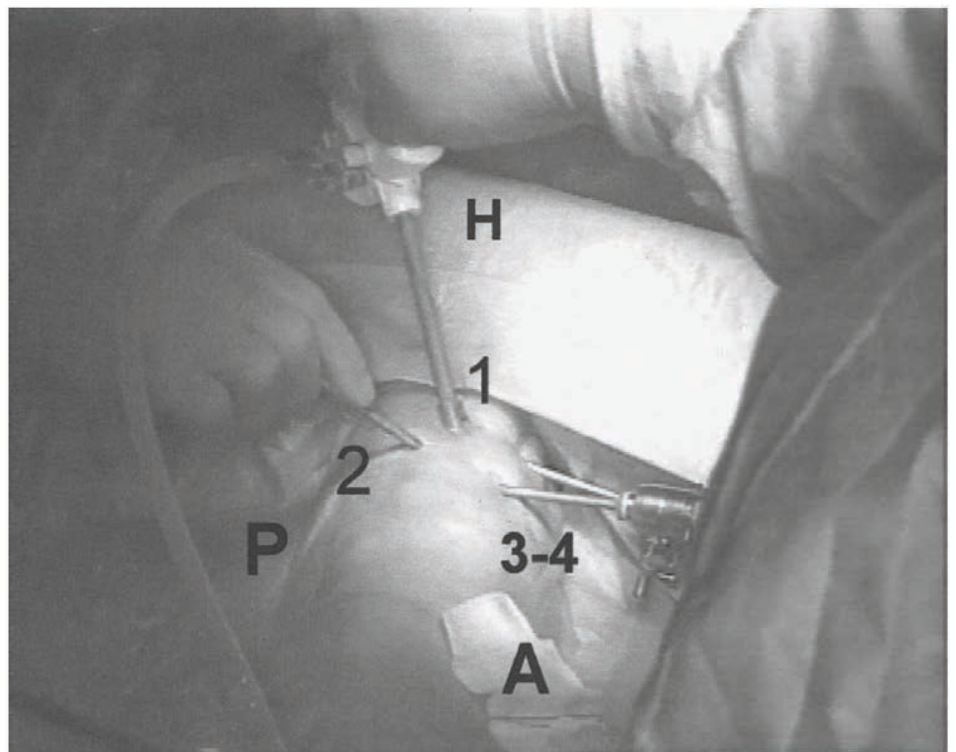


Fig 2. Placement of the trocars. H, head; A, anterior; P, posterior; 1, telescope; 2, lung retractor; 3 and 4, instruments.

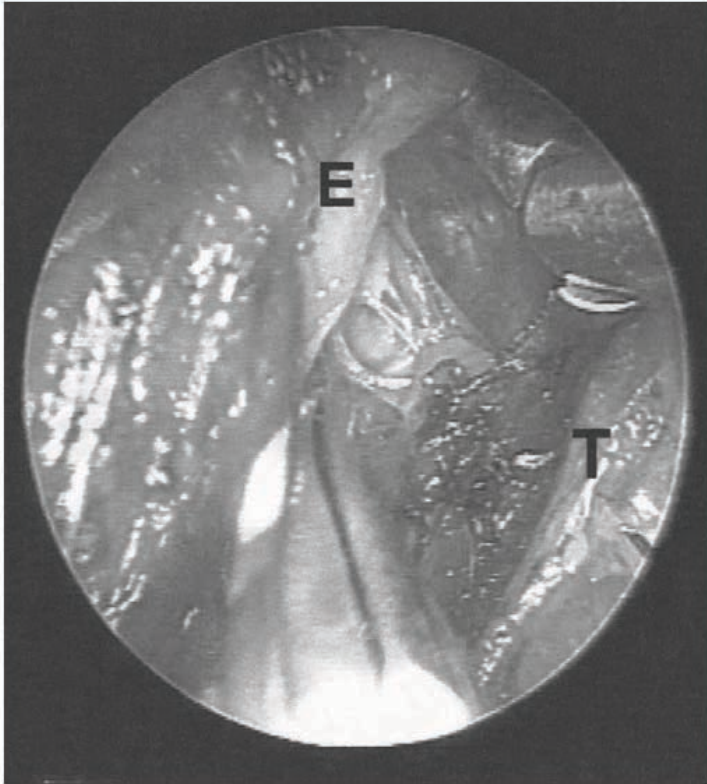


Fig 4. The fistula was closed with interrupted 5-0 Vicryl sutures. E, esophagus; T, sutured trachea.

tracheal membranous side as well as of the 2 esophageal layers for closure, thereby requiring only minor dissection of neighboring tissues. The greatest benefit is that thoracotomy is avoided; pain is easier to manage and the thoracic muscles are not sectioned, which prevents long-term sequelae like scoliosis. Finally, the cosmetic result is better.

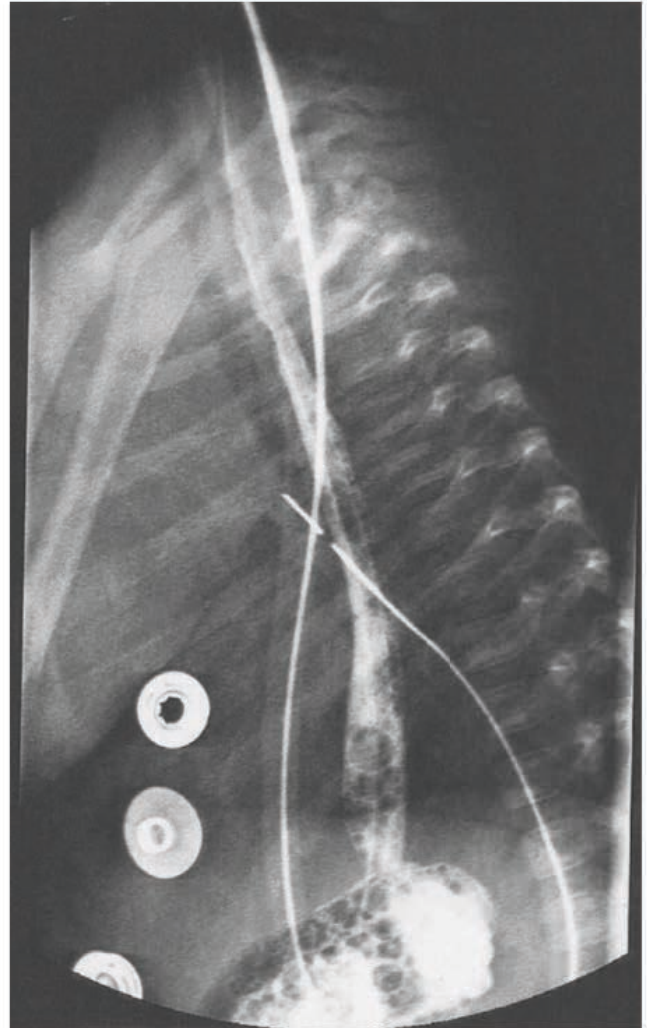


Fig 5. Postoperative barium swallow done on the fifth after the procedure shows no evidence of an anastomotic leak.

REFERENCES

1. Karnak I, Senocak ME, Hiçsönmez A, et al: The diagnosis and treatment of H-type tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 32:1670-1674, 1997
2. Crabbe DCG, Kiely EM, Drake DP, et al: Management of the isolated congenital tracheo-oesophageal fistula. *Eur J Pediatr Surg* 6:67-69, 1995
3. Allal H, Luciani JL, Galifer RB, et al: Operative treatment of an oesophageal atresia by thoracoscopic assistance. Presented at the International Congress of Paediatric Surgery and Paediatric Radiology, Melbourne, Australia, March 26-30, 1995
4. Robert M, Lardy H: Video-assisted repair of esophageal atresia, in Bax NMA, Georgeson KE, Najmaldin AS (eds): *Endoscopic Surgery in Children*. Berlin, Germany, Springer, 1999, pp 130-133
5. Lobe TE, Rothenberg S, Waldschmidt J, et al: Thoracoscopic repair of esophageal atresia in an infant: A surgical first. *Pediatr Endosurg Innov Techn* 3:141-148, 1999
6. Rothenberg S: Thoracoscopic repair of a tracheoesophageal fistula in a newborn infant. *Pediatr Endosurg Innov Techn* 4:289-294, 2000
7. Rothenberg S: Thoracoscopic repair of tracheoesophageal fistula in newborns. *J Pediatr Surg* 37:869-872, 2002
8. Bax KMA, Van der Zee DC: Feasibility of thoracoscopic repair of esophageal atresia with distal fistula. *J Pediatr Surg* 37:192-196, 2002

Commentaires de l'article

La fistule trachéo-œsophagienne en H (FTE) est une communication entre la paroi postérieure de la trachée et la paroi antérieure de l'œsophage avec un trajet oblique en haut et en avant (comme un N). Cette anomalie représente 4 à 5% des anomalies congénitales de l'œsophage. Les symptômes commencent principalement à la naissance, mais le diagnostic peut être difficile et retardé. Les FTE situées au-dessous du bord inférieur de la deuxième vertèbre thoracique représentent 30% des cas et elle doit être abordée par thoracotomie pour section et suture de la fistule et de la trachée. Nous avons rapporté la première cure thoracoscopique d'une fistule trachéo-œsophagienne en H. La thoracoscopie a permis de diminuer la morbidité liée à la thoracotomie, ce qui représente le principal avantage de l'abord thoracoscopique. L'excellente visibilité de toutes les structures anatomiques permet une meilleure précision dans la dissection. Cette visibilité dépend de deux facteurs : d'une part l'insufflation de la cavité pleurale, et d'autre part de la rétraction du poumon. La position du patient est un point clé comme dans toute thoracoscopie et ici il faut mettre l'enfant pratiquement en décubitus ventral. La gravité est utile pour rétracter naturellement les poumons. Les principes de la thoracoscopie ont été identiques chez tous les auteurs, seuls quelques aspects techniques ont été différents (tableau n°2 de l'article). Nous avons utilisé la thoracoscopie pour tous les types d'atrésie de l'œsophage, même en présence d'un defect œsophagien important (long-gap) : la dissection par thoracoscopie est probablement plus facile et meilleure que la technique conventionnelle grâce à la meilleure visualisation et la magnification de l'image comme l'a rapporté Rothenberg (2) ; le site de la fistule est facile à identifier grâce à l'axe perpendiculaire de la vision de l'optique. Dans notre expérience de long gap, on peut faire une dissection étendue de l'œsophage sous thoracoscopie si elle s'avère nécessaire.

Le 2^{ème} article traite de la prise en charge des atrésies de l'oesophage dans leurs formes classiques et en présence d'un long defect ou « long-gap ».

Références

1. Lobe TE, Rothenberg SS, Waldschmidt J, et al. Thoracoscopic repair of esophageal atresia in an infant: a surgical first. *Pediatr Endosurg Innovat Tech* 1999;3;141–148.
2. Rothenbergh SS. Thoracoscopic repair of a tracheo-esophageal fistula in a newborn infant. *Pediatr Endosurg Innovat Tech* 2000;4; 289–294.
3. Bax KM, van der Zee, DC. Feasibility of thoracoscopic repair of esophageal atresia with distal fistula. *J Pediatr Surg* 2002;37;192–196.

Case Report

Benefits of the Thoracoscopic Approach for Short- or Long-Gap Esophageal Atresia

HOSSEIN ALLAL, MD,¹ NICOLAS KALFA, MD,¹ M. LOPEZ, MD,¹ D. FORGUES, MD,¹
 M.P. GUIBAL, MD,¹ O. RAUX, MD,¹ J.C. PICAUD, MD,² and R.B. GALIFER, MD¹

ABSTRACT

Objective: To evaluate the feasibility and results of thoracoscopy in various types of esophageal atresia (EA).

Materials and Methods: From April 2001 to August 2002, 5 patients with EA were treated by thoracoscopy. Their mean gestational age was 38 weeks and mean birth weight was 2700 g. Two patients had short-gap atresia with tracheo-esophageal fistula (type III according to Ladd's classification). Three had long-gap atresia: 2 with low fistula to the carina (type IV) and 1 without fistula (type I). Patients were placed in a prone position with the right side elevated at 80°. Four intrapleural ports were necessary. The fistula when present was dissected and sutured with intrathoracic knots and esophageal anastomosis performed in the same manner.

Results: Positive airway pressure increased in all patients after insufflation but was kept in a safe range to prevent lung injury. An esophageal anastomosis was performed in 3 cases (2 short gaps and 1 long gap). Oral feeding started on day 6, and their mean length of hospital stay was 14 days. For one child with type IV EA, the anastomosis was impossible because of a long gap confirmed by an immediate thoracotomy. The ends were just approximated. A "spontaneous" fistula developed, and normal feeding was possible 2.5 months later. For the child with type I EA, the pouches could be only approximated at 2 months of age. A spontaneous fistula developed with a stenosis. A redo anastomosis by open surgery allowed for normal feeding.

Conclusion: The thoracoscopic repair of an esophageal atresia is a reasonable choice for experienced surgeons treating patients, including those with long gaps.

INTRODUCTION

THE THORACOSCOPIC APPROACH for esophageal atresia (EA) is one of the most recent advances in minimally invasive surgery in the neonate.¹ We describe our experience with a purely thoracoscopic approach in 5 patients with EA, 3 of them with a long gap. We compare this approach with other reports to highlight its technical aspects and its future.

MATERIALS AND METHODS

From April 2001 to August 2002, 5 patients with esophageal atresia were referred to our center and were approached solely thoracoscopically. Prenatal diagnosis was made in 1 case. The mean gestational age was 38 weeks (range, 37–40 weeks) and the mean birth weight was 2400 g (range, 2300–3600 g). Two patients had a short-gap atresia with tracheo-esophageal fistula (type III

Departments of ¹Visceral Pediatric Surgery and ²Neonatal Reanimation, Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital, Montpellier, France.



FIG. 1. Preoperative view of the position of the patient: the right side is elevated at 80°.

according to Ladd); 3 had long-gap atresia with their ends more than 2 vertebrae apart. Two of these patients presented with type IV EA, with a low fistula to the carina; 1 presented without fistula (type I). Except in this last case, in which the patients received a gastrostomy in the neonatal period, the mean delay between delivery and surgical correction of the esophageal malformation was 16 hours (ranging from 6 hours to 24 hours for a child who was not born in our institution). Additional malformations were present in 2 patients: one interventricular communication and one duodenal atresia treated by laparoscopy at the time of the esophageal repair.

Informed consent about the new surgical technique was obtained in all cases.

Anesthesia

Two of the 5 patients were intubated before entering the operating room. Among the other 3, one suffered tracheo-bronchial aspiration of gastric juice during transport, and came to anesthesia with bronchial obstruction and mild hypoxia. All endotracheal intubations were performed in the standard way (no attempt of selective intubation) through the nares. Anesthesia was performed with inhaled and/or intravenous agents, associated with short- or ultra-short-acting intravenous opiates. Two children received a peridural anesthesia or staged intercostal blocks to improve postoperative analgesia. Central venous access was ensured before beginning surgery. All patients except the 2-month-old were admitted to the intensive care unit for postoperative assisted ventilation after surgery.

Surgical technique

The patients were placed in a prone position with the right side elevated at 80° (Fig. 1). The surgeon and the

camera assistant stood on the left side of the patient with the screen at the opposite side. The nurse stood at the foot of the table. Four ports were inserted: the first one of 5 mm diameter was introduced in the fifth intercostal space for the 5 mm 30° camera. The pleural space was insufflated with CO₂ to a pressure of 6 mm Hg at a flow rate of 2–6 L/min. Two other 3 mm ports were placed in the third and sixth intercostal space on the anterior axillary line and were used for 3 mm working instruments. A fourth port was necessary for the lung retractor because gravity and insufflation were not totally sufficient for exposure.

Through a transpleural approach, the azygos vein was transected using monopolar coagulation. Respiratory movements helped in identification of the fistula. After dissection, the fistula was closed with intrathoracic knots using 5/0 vicryl and transected distally. The lower segment of the esophagus was mobilized. The proximal esophageal pouch was then identified with the help of the anesthesiologist placing a nasogastric tube in the lumen. After searching for a proximal fistula, mobilization of the upper pouch was performed paying close attention to the membranous portion of the trachea and by avoiding grasping the esophagus until the anastomosis was possible with moderate tension.

The anastomosis began on the posterior side. A proximal esophagotomy allowed the passage of a 6 Fr nasogastric tube over which the anastomosis was completed. Eight to 10 circumferential interrupted sutures using 5/0 vicryl and including mucosa were necessary. Each suture

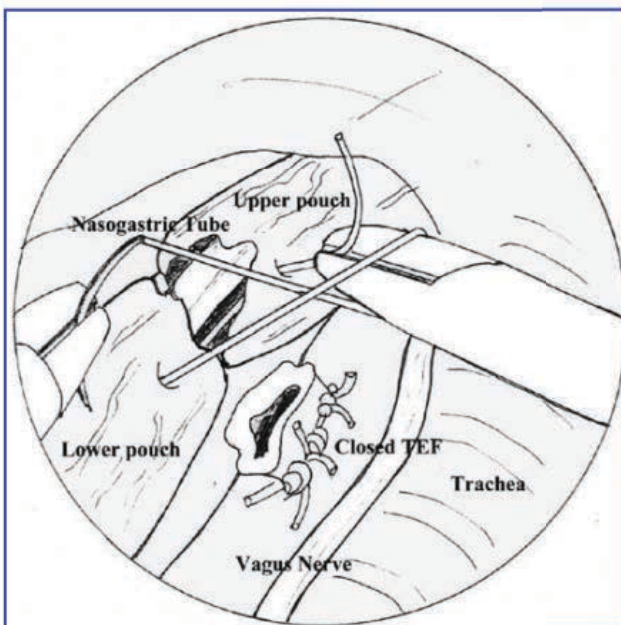


FIG. 2. Intrathoracic knots for the anastomosis of the anterior wall of the esophagus. Eight to 10 circumferential interrupted sutures using 5/0 vicryl and including mucosa were necessary.



FIG. 3. Esophagogram on postoperative day 6: leakage and strictures are screened out before feeding.

was useful to perform the following one by rotating the esophagus (Fig. 2).

The lung was re-expanded and chest drainage was routine. Postoperative images included a chest x-ray in the operative room and an esophagogram on postoperative day 6 to screen for leakages and strictures (Fig. 3).

RESULTS

Anesthesia

Insufflation with CO₂ resulted in ventilatory alterations in all cases. Mild hypoxia occurred in one case, and was more serious in two cases. In these two cases, normoxia was rapidly restored thanks to manual ventilation with 100% oxygen in one case, and there was no further alteration. In the other case with preoperative bronchial as-

piration, manual ventilation and re-expansion of retracted lung were performed several times to correct unacceptable hypoxia, but restoration of normoxia was not possible until ligation of esophago-tracheal fistula was performed. Bronchial aspiration may have played a role in these difficulties through lung injury. Pneumothorax tolerance was judged as poor in this case, but the postoperative outcome was not altered significantly. In the other cases, pneumothorax tolerance was good or acceptable. Positive airway pressure increased in all patients after insufflation, but was kept in a safe range to avoid trauma. This could be improved by increasing mechanical ventilation to avoid hypoxia. Expired CO₂ increased in all patients but one, by up to 13 mm Hg, but this was a non-threatening alteration. No major hemodynamic changes were observed. However, intravenous fluid loading was performed in two patients. This contributed to restoration of normoxia in the more hypoxic patient. Lastly, insufflation with a cold and dry gas may have contributed to hypothermia up to 34.5°C in two patients.

Surgical results

An esophageal anastomosis was performed in 3 cases (two type III and one type IV). Mean operative time was 100 minutes (range, 9–110 min). The mean duration of postoperative artificial ventilation was 4 days (range, 1–6 days) and oral feeding was progressively started on median postoperative day 6 after a satisfactory esophagogram. The average length of hospital stay was 14 days. One child had an associated duodenal atresia which was repaired laparoscopically at the same time. Another patient required a laparoscopic Nissen fundoplication 5 months after the procedure. In this group, the mean follow-up is 13 months (range, 11–15 months).

In the other type IV EA, the fistula was easily closed at initial thoracoscopy but it was impossible to perform the anastomosis. The pouches could only be approximated in spite of an extensive dissection of the pouches under thoracoscopy. The anastomosis was still impossible after a transpleural thoracotomy. At 2.5 months postoperatively, we were lucky to observe a “spontaneous” communication between the two culs-de-sac with complete lumen repermeabilization so that the child could be fed progressively and normally without any dilatation.

TABLE 1. COMPARISON OF STUDIED POPULATIONS IN 3 SERIES

| | Rothenberg ³ | Bax ⁴ | Allal ⁵ |
|--|-------------------------|------------------|--------------------|
| Number of patients | 8 | 8 | 5 |
| Gestational ages (weeks) | 31–40 | Mean 39 | 37–40 (mean 38) |
| Birth weight (kg) | 2.1–3.4 (mean 2.6) | 2.1–3.7 (mean 3) | 2.3–3.6 (mean 2.4) |
| Antenatal diagnosis | 4/8 | | 1/5 |
| Percentage of patients with additional malformations | 50% | 75% | 40% |
| Preoperative respiratory distress requiring intubation | 2/8 | | 0 |

TABLE 2. COMPARISON OF TECHNICAL ASPECTS AND POSTOPERATIVE OUTCOME AFTER THORACOSCOPIC REPAIR OF ESOPHAGEAL ATRESIA

| | <i>Rotherberg</i> ³ | <i>Bax</i> ⁴ | <i>Allan</i> ⁵ | <i>Lobe</i> ¹ |
|--|--|---|--|--|
| Intubation | Standard tracheal intubation Prone, with right side elevated 30° | Standard tracheal intubation Prone 3/4 left position | Standard tracheal intubation Prone, with right side elevated 80° | Right Lung exclusion Prone, with right side elevated 60° |
| Operative position | | | | |
| Type of telescope | 2.7 mm, 30° | 5 mm, 30° | 5 mm, 30° | 2.7 mm, 30° |
| Operative ports | Three (3, 2, 1.5 mm) | Three (6, 3.8, 3.8 mm) | Three (all 3 mm) | Three (5, 3, 3 mm) |
| Insufflation (pressure and flow) | 4 mm Hg; 1 L/min | 5 mm Hg; 0.5 L/min | 6-8 mm Hg; 2-6 L/min | |
| Method of control of the azygos vein | Ligasure | 3.0 vicryl ligature | Monopolar electrocautery | |
| Method of fistula closure | 2 titanium clips | 2.0 vicryl ligature | 5.0 vicryl ligature | Bipolar electrocautery |
| Type of suture for esophageal anastomosis | 4.0 Ethibond; extrathoracic knotted | 5.0 vicryl; intrathoracic knotted | 5.0 vicryl; intrathoracic knotted | 4.0 monofilament absorbable and fibrin glue |
| Chest tube drainage | Yes | No | Yes | Yes |
| Operative length (min) | 55-120 (mean, 95) | 138-250 (mean, 198) | 90-120 (mean, 110) | 180 |
| Postoperative complications | No | No | No | No |

Hospital length of stay was 3 months. The follow-up is 10 months and the functional result is excellent.

The child with type I EA underwent a gastrostomy and continuous suction of the upper pouch. The thoracoscopic repair was delayed 2 months because of a long gap (2 vertebrae). In spite of an extensive mobilization of both ends, the anastomosis could not be performed. We observed a spontaneous fistulization with stenosis at day 15 which required a redo anastomosis by open surgery. Oral feeding was postponed because of a partial leakage and massive gastroesophageal reflux. The child had conventional anti-reflux surgery. A dilatation program with a transient gastrostomy allowed the progressive recovery of total oral feeding.

DISCUSSION

The thoracoscopic repair of esophageal atresia without fistula was first reported in 1999 by Lobe and Rothenberg.¹ A decrease of morbidity due to the routine posterolateral thoracotomy was considered as the main advantage of the thoracoscopic approach.^{2,3} The excellent visibility of the anatomic structures allows a better and more precise dissection, especially in the upper mediastinum. This visibility depends on 2 factors: the insufflation and the lung retraction. The insufflation in the pleural space seems to be well tolerated in neonates. Initially the fear of poor tolerance made us do our first thoracoscopic approach for esophageal atresia in 1994 without gas.⁵ The space was sufficient to perform the dissection of both blind pouches but was too limited for the anastomosis, which required a mini-thoracotomy. Since our first case, we have progressively used more and more insufflation pressure. Rothenberg³ and Bax⁴ use 4 and 5 mm Hg insufflation, respectively. A 6 to 8 mm Hg insufflation was tolerated well after the fistula was closed. Nevertheless, before the closure, ventilatory alterations were observed in all cases. Positive airway pressure is always required with ventilation using 100% oxygen. Thoracic insufflation of a cold and dry gas may have contributed to hypothermia up to 34.5°C in four of our five patients.

The patient's position on the table is the other key point, as in all thoracoscopy. Gravity is useful for natural retraction of the lung. The operative port for the lung retractor could be spared in some cases. A prone position with right side more or less elevated can be considered as suitable and we wonder if ventral decubitus would not be more optimal to reach the posterior mediastinum.

Although the main principles of the procedure are identical for all authors, some technical aspects can differ (Tables 1, 2). We try to perform the thoracoscopy in all types of esophageal atresia. Indeed, in cases of a long gap, thoracoscopic dissection is probably easier and better than conventional dissection thanks to superior visualization.

According to Rothenberg, the optimal site for ligation of the fistula, when present, is easily identified thanks to a perpendicular axis of vision of the thoracoscope.³ In our experience, the thoracotomy did not provide more length of esophageal segments to allow anastomosis in these long gaps. One child with a long gap was successfully treated with thoracoscopy: the association with duodenal atresia may have contributed to the development of the lower pouch, making the anastomosis feasible.

CONCLUSION

This brief series supports thoracoscopic repair of EA as a reasonable choice in the hands of experienced surgeons in the field of neonatal videoscopia. It reduces blood loss and damage to the thoracic wall, and does not present particular difficulty. This route can be considered even when a long gap is discovered at operation. Above all, it offers less dissection for a better visibility, especially for the fistula tract, and thus does not complicate the delayed anastomosis, which can be attempted by the same route. This technique is a potential alternative to the standard thoracotomy, but more experience and evaluation of long term results are required, especially for long gap EA.

REFERENCES

1. Lobe TE, Rothenberg SS, Waldschmidt J, et al. Thoracoscopic repair of esophageal atresia in an infant: a surgical first. *Pediatr Endosurg Innovat Tech* 1999;3:141-148.
2. Rothenbergh SS. Thoracoscopic repair of a tracheoesophageal fistula in a newborn infant. *Pediatr Endosurg Innovat Tech* 2000;4:289-294.
3. Rothenberg SS. Thoracoscopic repair of tracheoesophageal fistula in newborns. *J Pediatr Surg* 2002;37:869-872.
4. Bax KM, van der Zee, DC. Feasibility of thoracoscopic repair of esophageal atresia with distal fistula. *J Pediatr Surg* 2002;37:192-196.
5. Allal H, Luciani JL, Galifer RB, et al. Operative Treatment of an Oesophageal Atresia by Thoracoscopic Assistance. Presented at the International Congress of Paediatric Surgery and Paediatric Radiology. Melbourne, Australia, March 1995.

Address reprint requests to:

H. Allal, MD

*Department of Visceral Pediatric Surgery
Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital
34295 Montpellier Cedex 5
France*

E-mail: h-allal@chu-montpellier.fr

Commentaires de l'article

La cure sous thoracoscopie de l'atrésie de l'œsophage sans fistule a été rapportée en 1999. Celle-ci a permis de diminuer la morbidité liée à la thoracotomie, et a été considéré comme le principal avantage de l'abord thoracoscopique. L'excellente visibilité de toutes les structures anatomiques permet une meilleure précision dans la dissection. Cette visibilité dépend de deux facteurs : d'une part l'insufflation, et d'autre part la rétraction du poumon. L'insufflation dans l'espace pleural est bien tolérée chez le nouveau-né, ainsi que l'espace de travail est suffisant et permet la dissection des culs de sacs supérieurs et inférieurs et son anastomose. Concernant le pneumothorax Rothenberg utilise entre quatre à cinq mm Hg d'insufflation, entre six à huit mm Hg l'insufflation a été bien tolérée après la fermeture de la fistule. Avant la fermeture de la fistule, il y a toujours eu des perturbations ventilatoires dans tous les cas de atrésie sous thoracoscopie. La pression positive pour le pneumothorax est toujours nécessaire quand la ventilation est à 100% d'oxygène. L'insufflation thoracique des gaz froid et sec avait contribué à l'hypothermie au-dessous des 34.5°C chez quatre de nos cinq patients, que nous avons rapporté dans cette série. La position du patient est un point clé comme dans toutes thoracoscopie. La gravité est utile pour rétracter naturellement les poumons. Les principes de la thoracoscopie ont été identiques chez tous les auteurs, seuls quelques aspects techniques ont été différents comme a été comparés dans cet article (tableau n°2). Nous avons utilisé la thoracoscopie dans tous les types d'atrésie de l'œsophage dans les cas de long-gap la dissection par thoracoscopie est probablement plus facile et meilleure que la technique conventionnelle grâce à la meilleure visualisation et magnification comme a été rapportée par Rothenberg, le site optimale pour la ligature de la fistule est facile à identifier grâce à l'axe perpendiculaire de la vision de l'optique. Dans notre expérience de long-gap, la thoracotomie n'a pas permis plus de dissection du

segment de l'œsophage que la thoracoscopie. Un de nos cas avec long-gap a été faite avec succès par thoracoscopie. L'association de l'atrésie duodénale peut contribuer dans le développement de cul de sac inférieur et permet une anastomose plus facile.

Nous avons poursuivi nos travaux sur l'œsophage à Saint-Etienne avec la réalisation de 18 cas de cure thoracoscopique d'atrésie de l'œsophage (AO). Nous sommes même allés à Paris à l'hôpital Necker-Enfants Malades pour opérer une AO de type I où c'était une première, à la demande de Mme le Professeur Sarnacki. Nos résultats étant très encourageants, nous avons essayé d'étendre le traitement vidéo-chirurgical chez les grands prématurés et en 2015 nous avons rapporté notre expérience de la ligature du bas œsophage comme mesure de sauvetage chez des prématurés de moins de 1000g, instables, qui ont bénéficié d'une cure tardive par thoracoscopie avec succès. La morbidité et la mortalité des nourrissons de très faible poids de naissance, à savoir moins de 1000g, avec une atrésie de l'œsophage et fistule trachéo-œsophagienne ont diminué au cours des dernières décennies. La première classification pronostique de l'atrésie de l'œsophage a été proposée par Waterston en 1962 (1), qui a identifié l'importance du poids de naissance, du statut pulmonaire et d'autres anomalies congénitales associées comme des facteurs influençant la survie. Seuls quelques rapports analysent la réparation primaire ou retardée de l'AO/FTE chez des prématurés de moins de 1000g en fonction de l'instabilité clinique grave (2). Cette situation est rare, mais a besoin de plus de données et le partage d'expériences pour la prise en charge de ces bébés. La sélection entre la reconstruction primaire ou par étapes demeure controversée. Des progrès majeurs dans les soins intensifs du nouveau-né, l'anesthésiologie et la chirurgie ont conduit à une augmentation de la survie chez les enfants avec un très faible poids de naissance (TFPN < 1000g). Choudhury a démontré que le faible poids de naissance des nouveau-nés ne

semblait pas affecter leur survie ; cependant l'association à des anomalies cardiaques et chromosomiques augmente la morbi-mortalité péri-opératoire de façon significative (3). Deux stratégies ont été utilisées pour la correction de l'atrésie de l'œsophage avec fistule trachéo-œsophagienne chez des enfants de très faible poids de naissance : la reconstruction en un temps et la reconstruction par étapes. Le traitement classique de l'AO chez des nouveau-nés avec TFPN se faisait en plusieurs temps en commençant par la fermeture de la FTE associée à une gastrostomie. Alexander *et al* ont comparé les deux stratégies chez les enfants prématurés de moins de 2000g et ont montré que la correction en plusieurs temps présentait moins de morbidité (4). Cependant, d'autres ont rapporté que la reconstruction primaire est également possible chez des nouveau-nés de poids inférieur à 2000g (5,6).

Les données pour le traitement des AO chez ces enfants sont peu nombreuses et les cas sont isolés le plus souvent. La plus grande série a été rapportée en 2009, concernant 25 cas et le taux de complication était significativement plus élevé dans la reconstruction primaire (7,8). Dans notre étude, aucun patient ne tolérait le décubitus latéral, rendant impossible la ligature de la fistule par voie thoracique. La déconnection gastrique chez les prématurés de TFPN avec AO a été rapportée comme une pratique de sauvetage par Randolph en 1968 (9). Nous avons donc utilisé la ligature du bas œsophage en décubitus ventral, comme mesure de sauvetage, afin d'éviter les fuites aériennes vers l'estomac et de prévenir le reflux gastro-œsophagien très acide vers le poumon. Pendant l'opération, la surveillance de la perfusion du cerveau et des reins a été possible grâce à l'utilisation du NIRS (Near InfraRed Spectroscopy) permettant d'adapter l'anesthésie et la chirurgie en fonction des résultats observés, évitant ainsi des séquelles cérébrales ou rénales majeures. Ainsi la ligature du bas œsophage permet une alimentation entérale et protège les

poumons. Différentes techniques ont été rapportées pour la ligature du bas œsophage. La fundoplicature de Nissen est l'un d'entre eux et se traduit par la fermeture de la FTE en empêchant à la fois le reflux du contenu gastrique dans les poumons par FTE et les fuites d'air dans l'estomac. Dans les cas 2 et 3, la ligature du bas œsophage a été laissée pendant 30 et 80 jours respectivement. Pour le troisième cas, au cours de la ligature du bas œsophage par laparotomie, le fil a été laissé long d'environ 3cm et a été placé dans le thorax au travers de l'hiatus, ce qui a permis sa section quelques semaines plus tard au cours de la thoracoscopie effectuée lors de l'anastomose de l'œsophage, évitant ainsi une nouvelle laparotomie lors du second temps. Une sténose mineure du segment inférieur de l'œsophage était présente dans le second cas à neuf mois de vie et une seule dilatation pneumatique été nécessaire alors qu'on craignait une sténose beaucoup plus difficile à traiter après 80 jours de ligature. La vascularisation de l'œsophage thoracique et abdominal a été étudiée sur des cadavres et le segment inférieur de l'œsophage est vascularisé par deux artères, gastrique gauche et phrénique inférieure gauche. Ceci pourrait être une théorie pour expliquer que l'œsophage abdominal peut tolérer la ligature sans complications majeures. Comme il a fallu attendre plusieurs semaines avant de traiter l'AO, la ligature du bas œsophage a permis une pression d'air continue dans l'œsophage par la fistule, provoquant la distension du segment œsophagien inférieur et permettant de diminuer l'extension de la dissection ainsi qu'une anastomose avec moins de tension. A la lumière de ce travail, la prise en charge des AO chez des TFPN semble possible de cette manière et permettrait peut-être de sauver plus d'enfants ; en tout cas elle représente certainement une alternative très intéressante.



Operative Techniques

Lower esophageal banding in extremely low birth weight infants with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula is a life saving practice followed by a successful delayed primary thoracoscopy reconstruction

Loren Margain*, Eduardo Perez-Etchepare, François Varlet, Manuel Lopez

Department of Pediatric Surgery, University Hospital of Saint Etienne-France

ARTICLE INFO

Article history:

Received 24 August 2014

Received in revised form 25 September 2014

Accepted 16 October 2014

Available online xxxx

Key words:

Esophageal atresia/tracheoesophageal fistula

Extremely low birth weight infants

Lower esophageal banding

Thoracoscopy

ABSTRACT

In extremely low birth weight (ELBW) infants, i.e. <1000 g, with esophageal atresia (EA) and tracheoesophageal fistula (TEF), surgical treatment is a real challenge. High morbidity is associated with primary repair of EA on these patients. We report our recent experience with three cases of ELBW infants with EA and TEF treated by lower esophageal banding (LEB).

From September 2012 to January 2013, three ELBW infants with EA/TEF were born prematurely with severe respiratory distress. One of them had VACTER association with anorectal malformation (ARM). The gestational age was between 25 and 27 weeks, and the mean birth weight was 690 g (500–790). All were treated by LEB and gastrostomy, followed by delayed primary thoracoscopy reconstruction.

One baby died in the postoperative period because of intraventricular hemorrhage at 7 days after initial surgery. Among the 2 others cases, one of them required ligation without section of the TEF with removal of LEB by thoracoscopy at 30 days old and 1300 g. Delayed primary thoracoscopy reconstruction and section of TEF were performed by thoracoscopy at 70 and 80 days old and 2100 g and 2200 g respectively without early complication. The follow-up was 12 months. One baby presented a stenosis requiring one dilation of lower esophagus with uneventful course.

LEB is a life saving practice in ELBW babies with EA and TEF. The esophagus can tolerate the ligation even with a thread without having a long time major complication. Thoracoscopic reconstruction of the esophagus is possible in these babies.

Published by Elsevier Inc.

The morbidity and mortality of extremely low birth weight (ELBW) infants, i.e. <1000 g, with esophageal atresia (EA) and tracheoesophageal fistula (TEF) decreased over the past decades. The first prognostic classification of EA was proposed by Waterston in 1962, who identified the importance of birth weight, pulmonary status, and other congenital anomalies as factors influencing survival [1].

Only few reports exist analyzing primary or delayed repair of EA/TEF for ELBW infants associated with severe clinical instability. This situation is rare but needs more data and sharing experiences for the management of these babies. The selection between primary reconstruction and staged repair remains controversial.

Recent clinical studies have demonstrated that staged repair of EA/TEF results in a significantly lower rate of complications and overall morbidity than does primary reconstruction [2]. However, primary repair of EA and closure of TEF are technically feasible and offer a good treatment option for ELBW and very LBW infants [3].

In this report, we describe a technique that temporarily occluded the lower esophageal segment in 3 ELBW infants, and allowed stabilization

of the neonate before definitive repair of EA/TEF by delayed thoracoscopic reconstruction.

1. Materials and methods

Between September 2012 and January 2013, 3 ELBW infants, (2 males and 1 female) with EA/TEF were born in our institution. One had prenatal diagnosis and gemellary pregnancy. One of them had VACTER association with anorectal malformation (ARM). The preoperative diagnostic workup included a chest X-ray and echocardiography. Data of patients are presented in Table 1.

All infants presented severe respiratory distress and hemodynamic instability. Before surgery, none of the patients tolerate lateral position.

Lower esophageal banding as a saving practice was done on all patients with a non-absorbable thread by laparotomy at the first two days of life. At the same time, gastrostomy was performed (Fig. 1). No drainage was left.

In the third case, colostomy was done for ARM.

During surgery, a cerebral and splanchnic monitoring was evaluated with the use of near infrared spectroscopy (NIRS).

Postoperatively, all infants were admitted to the neonatal intensive care unit.

* Corresponding author at: Department of Paediatric Surgery, University Hospital of saint Etienne, Saint Etienne-France.

E-mail address: loren.margain@hotmail.fr (L. Margain).

Table 1

Data of patients (EA: esophageal atresia, TEF: tracheoesophageal fistula, ARM: anorectal malformation).

| Patients | sex | Birth weight (g) | Gestational age (weeks) | Diagnosis | Associated Malformations | Time of LEB (days) | Follow-up |
|----------|--------|------------------|-------------------------|------------------|--------------------------|--------------------|------------------|
| 1 | Female | 490 | 25 | EA/TEF Type 3 | | 7 | death |
| 2 | Male | 790 | 26 | EA/TEF Type 3 | | 30 | live stenosis |
| 3 | Male | 800 | 27 | EA/TEF Type 3 | VACTER-ARM | 80 | live |

The first infant died at 7 days post operatively of intraventricular hemorrhage, and the post mortem examination showed the position of the thread (Fig. 2).

In the second case, at 30 days old and 1300 g the esophagus reconstruction was programmed but when the trachea fistula was ligated, the baby was getting hemodynamic instability, which forced to stop the operation. At this time, the lower esophageal band was removed by laparotomy because it was not possible to get it thoracoscopically. At 69 days old, the section of TEF and delayed esophagus anastomosis were performed by thoracoscopy with separated stitches.

In the third infant, during the first surgery, the thread of the lower esophagus band was left into the mediastinum through esophageal hiatus. This trick helped us to find it by thoracoscopy during the delayed reconstruction. At 80 days old and 2200 g, esophageal band was removed and EA/TEF repair was performed thoracoscopically.

2. Results

Thoracoscopic approach was successfully performed in both patients with short gap. No intraoperative complications occurred. NIRS stayed normal and regular all along the surgeries. Mean operative time was 150 min.

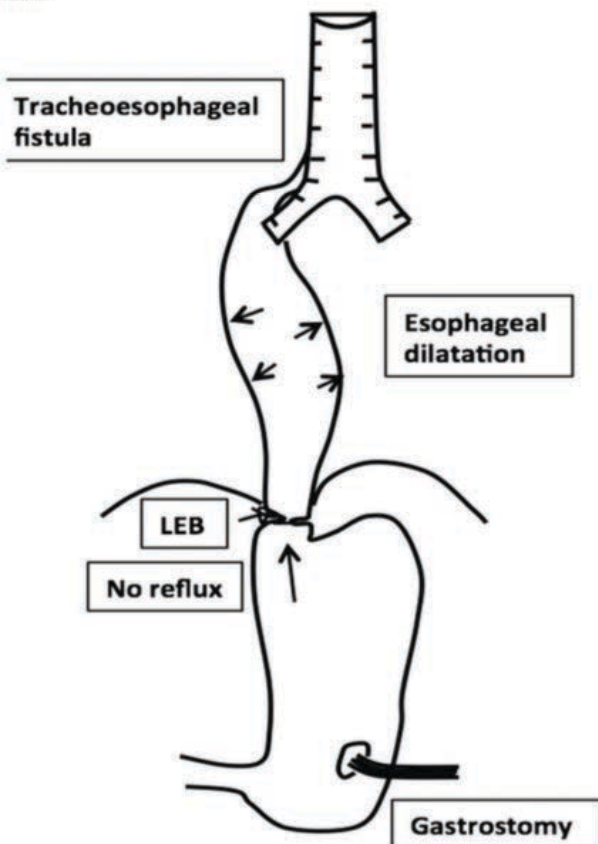


Fig. 1. Lower esophageal banding avoids gastroesophageal reflux and allows lower esophageal dilatation.

Post-operative esophagram showed no leakage and no stenosis of the lower esophageal segment (Fig. 3). The follow-up period was 14 and 15 months.

In case 2, at 9 months old, the esophagram control showed a minor stenosis of the lower esophagus segment, treated just once by balloon dilatation.

In case 3, ARM repair was performed laparoscopically at 150 days old.

3. Discussion

There has been a continuous effort to identify the risk factors influencing the survival of EA patients since the report by Waterston in 1962 [1].

Major advances in anesthesiology, surgery and neonatal intensive care (parenteral nutrition, incubator care, antibiotics, surfactant) have led to an increased survival in very low birth weight (VLBW) babies, i.e. <1500 g [4]. This has been supported by Choudhury et al. [5] who showed that the birth weight of babies do not seem to affect survival. However the association to cardiac and chromosomal anomalies increases significantly perioperative morbi-mortality.

Two strategies have been used for the repair of EA/TEF in these babies: Primary reconstruction and staged repair. Traditional treatment for repair of EA/TEF in ELBW infants has been staged repair including TEF closure combined with a feeding gastrostomy [3]. Alexander et al. [6] compared both strategies in premature infants weighing less than 2000 g with EA/TEF and showed that staged repair incurred a lesser morbidity. However, some authors reported that primary reconstruction is also possible in low birth weight infants weighing less than 2000 g. Only a few cases have been reported in the literature and some of them with favorable results [7,8].



Fig. 2. Posterior view. LEB (arrow) at the post mortem examination, in case 1.

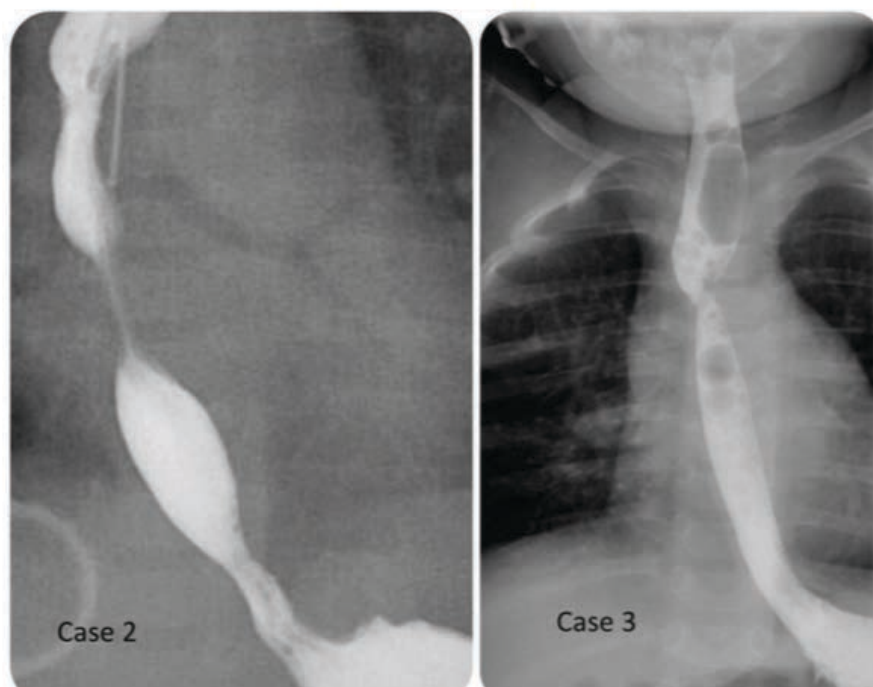


Fig. 3. Esophagram at 5 days after anastomosis.

The data for treatment of ELBW and VLBW infant are poor, and the majority of them are isolated reports. The largest series has been reported in 2009, concerning 25 cases and complication rate was significantly highest in primary reconstruction (Table 2) [2,3,12,14–16].

In our report, at the moment of lateral position, the patients presented desaturation and hypoventilation probably due to compression of ipsilateral lung. Therefore it was impossible to perform the ligation of the fistula by thoracic approach. Banding of lower esophagus segment was done as saving practice by ventral decubitus. During surgery, perioperative monitoring of brain and renal oxygenation was feasible with the use of NIRS (near infrared spectroscopy). This method may guide anesthetic conduction and postoperative care [9].

Gastric division in premature infants or in critically ill infants with EA/TEF was reported as a saving practice by Randolph in 1968 [10].

Banding of lower esophagus segment represents a saving practice in VLBW and ELBW high-risk infants with EA/TEF. This procedure enables enteral feeding and time for growth while protecting the lungs from repetitive aspiration and pneumonia, facilitating subsequent repair [11].

Different approaches have been reported for ligation of the esophagus. Nissen fundoplication is one of them, and results in closure of the TEF by preventing both the reflux of gastric contents into the lungs through the distal TEF, and leakage of air into the stomach [12].

In cases 2 and 3, the lower esophageal band was left 30 and 80 days. In the second case, it was impossible to remove thoracoscopically and then redo laparotomy was done. In the third case, during LEB, the thread was left 3 cm long through hiatus, which allowed the band section thoracoscopically during the delayed esophageal reconstruction.

Minor stenosis of the lower esophageal segment was present in the second case at nine months old, thus requiring balloon dilatation.

Arterial patterns in the thoracic and abdominal esophageal segments were made in cadaver studies and showed that low esophageal segment received blood supplied by two arteries (left gastric and left inferior phrenic arteries) [13]. It might be a theory to explain that the abdominal esophagus can tolerate the ligation without major complications.

Delayed thoracoscopic EA/TEF repair was performed in our 2 surviving cases. During surgery we observed that LEB allowed continuous air

Table 2

Literature data for esophageal atresia surgery in ELBW infants.

| Studies | Year | Primary anastomosis PA (mean weight) | Staged repair SR (mean weight) | Complication rate (Primary/staged reconstruction) | | | |
|----------------------|------|---|---|--|----|----|--------|
| | | | | type | PA | SR | p |
| Todd DW [12] | 1990 | | 1 (700g) | | | 0 | |
| Schaarschmidt K [16] | 1992 | | 1 (445g) delayed at 29 days (535g) | | | 0 | |
| Driver CP [14] | 1997 | 1 (740 g) | | | 0 | | |
| Seitz G [3] | 2006 | 4 (920 g) | | Death | 1 | | |
| | | | | Stenosis | 1 | | |
| | | | | Leakage | 1 | | |
| | | | | 0 | 1 | | |
| Petrosyan M [2] | 2009 | 16 (1400 g) | 9 (1320 g) | Stenosis | 13 | 3 | <0.036 |
| | | | | Leakage | 8 | 0 | <0.034 |
| | | | | pneumonia | 13 | 6 | <0.026 |
| Ito K [15] | 2012 | | 1 (471 g) | Death | | 1 | |

pressure, causing the distension of the lower segment through the TEF, allowing minimal dissection and anastomosis with less tension.

4. Conclusion

LEB is a life saving practice in instable ELBW babies with EA and TEF. The esophagus can tolerate it without having a long time major stricture complication. LEB leads to distension and elongation of lower segment.

Delayed thoracoscopic EA/TEF repair has proven to be an effective and safe technique, as for these babies, and avoid adverse musculoskeletal sequelae following thoracotomy. NIRS evaluation represents a good non-invasive monitor of hemodynamic in neonatal surgery.

References

- [1] Waterston DJ, Carter RE, Aberdeen E. Oesophageal atresia: tracheo-esophageal fistula: a study of survival in 218 infants. *Lancet* 1962;21:819–22.
- [2] Petrosyan M, Estrada J, Hunter C, et al. Esophageal atresia/tracheoesophageal fistula in very low-birth-weight neonates: improved outcomes with staged repair. *J Pediatr Surg* 2009;44:2278–81.
- [3] Seitz G, Warmann SW, Schaefer J, et al. Primary repair of esophageal atresia in extremely low birth weight infants: a single-center experience and review of the literature. *Biol Neonate* 2006;90:247–51.
- [4] Meadow W, Lee G, Lin U. Changes in mortality for extremely low birth weight infants in the 1990s: implications for treatment decisions and resource use. *Pediatrics* 2004;113:1223–9.
- [5] Choudhury SR, Ashcraft KW, Sharp RJ, et al. Survival of patients with esophageal atresia: influence of birth weight, cardiac anomaly, and late respiratory complications. *J Pediatr Surg* 1999;34:70–4.
- [6] Alexander F, Johanningman J, Martin LW. Staged repair improves outcome of high-risk premature infants with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 1993;28:151–4.
- [7] Spitz L, Kiely E, Brereton RJ. Esophageal atresia: five year experience with 148 cases. *J Pediatr Surg* 1987;22:103–8.
- [8] Louhimo I, Lindahl H. Esophageal atresia: primary results of 500 consecutively treated patients. *J Pediatr Surg* 1983;18:217–29.
- [9] Conforti A, Giliberti P, Mondì V, et al. Near infrared spectroscopy: experience on esophageal atresia infants. *J Pediatr Surg* 2014;49:1064–8.
- [10] Randolph JG, Tunnell WP, Lilly JR. Gastric division in the critically ill infant with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *Surgery* 1968;63(3):496–502.
- [11] Todd DW, Shoemaker CT, Agarwal I, et al. Temporary banding of the gastroesophageal junction in a very small neonate with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *Minn Med* 1990;73:30–2.
- [12] Ogita S, Tokiwa K, Takahashi T. Transabdominal closure of tracheoesophageal fistula: a new procedure for the management of poor-risk esophageal atresia with tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 1986;21:812–4.
- [13] Yan Y, Chen C, Chen Y, et al. Arterial patterns in the thoracic and abdominal segments of the esophagus: anatomy and clinical significance. *Surg Radiol Anat* 1998;20:399–402.
- [14] Driver CP, Bruce J. Primary reconstruction of esophageal atresia with distal tracheoesophageal fistula in a 740-g infant. *J Pediatr Surg* 1997;32:1488–9.
- [15] Ito K, Ashizuka S, Kurobe M, et al. Delayed primary reconstruction of esophageal atresia and distal tracheoesophageal fistula in a 471-g infant. *Int J Surg Case Rep* 2013;4:167–9.
- [16] Schaarschmidt K, Willital GH, Jorch G, et al. Delayed primary reconstruction of an esophageal atresia with distal tracheoesophageal fistula in an infant weighing less than 500 g. *J Pediatr Surg* 1992;27:1529–31.

Une deuxième étude, acceptée pour publication en 2015, concerne la reperméabilisation de la fistule trachéo-œsophagienne après cure d'une atrésie de l'œsophage, qui peut se produire entre 5 à 14% des cas (1). Elle peut être corrigée par une deuxième thoracotomie, mais l'intervention est techniquement difficile et présente un risque élevé de complications, avec un risque de récurrence de 10 à 22% (1). Nous en avons traité une sous thoracoscopie avec succès, mais il apparaissait souhaitable de trouver une technique moins invasive si possible et nous nous sommes inspirés d'une technique endoscopique publiée par Sung en 2008 (2). Les techniques endoscopiques ont peu de complications, mais les produits utilisés (collagène, histoacryl*, etc) étaient peu efficaces (3-7). L'utilisation de l'acide trichloroacétique (TCA) semblait donner de meilleurs résultats (2) mais les variantes de la technique, le petit nombre de patients et le suivi à court terme n'emportaient pas la conviction. Après en avoir parlé avec un collègue chilien, le Dr Varela qui possédait une bonne expérience de 9 cas avec succès, nous avons utilisé la chimiocautérisation à l'acide trichloroacétique dilué à 50%.



Chemocauterization with trichloroacetic acid in congenital and recurrent tracheoesophageal fistula: a minimally invasive treatment

Yann Lelonge² · François Varlet¹ · Patricio Varela³ · Francisco Saitúa³ · Laurent Fourcade⁴ · Rocio Gutierrez¹ · Sophie Vermesch¹ · Jean-Michel Prades² · Manuel Lopez¹

Received: 28 February 2015 / Accepted: 16 June 2015
© Springer Science+Business Media New York 2015

Abstract

Objective Recurrent tracheoesophageal fistula (RTEF) is a serious complication after primary repair of esophageal atresia and tracheoesophageal fistula (EA/TEF). Treatment of RTEF involved an open surgery by thoracotomy. Technically it is a challenge with a high morbidity and mortality. Congenital tracheoesophageal fistula (CTEF) traditionally involved an open surgery by thoracotomy or cervicotomy. Many endoscopic techniques have been developed since the past decades: thoracoscopic or bronchoscopic approach for the treatment of RTEF and CTEF; nevertheless, optimal treatment is not still determined because of few numbers of patients, short-term follow-up, and different procedures. We report our experience and evaluated the efficacy in the chemocauterization of CTEF and RTEF, with the use of 50 % trichloroacetic acid (TCA) as a technique minimally invasive.

Materials and methods From 2010 to 2014, fourteen patients with TEF (twelve RTEF and two CTEF) were selected for endoscopic management in two centers. Twelve patients had RTEF after primary repair of EA/TEF by thoracotomy approach, and two patients had CTEF in

the upper pouch, diagnosed after EA/TEF (Type B) long gap, treated by thoracotomy and thoracoscopy, respectively. In all cases the diagnosis was confirmed by esophagram, bronchoscopy, and clinical evaluation. Under general anesthesia, a rigid pediatric bronchoscope with a 0° rod lens telescope and tele-monitoring was used to localize the TEF. Cotton soaked with 50 % TCA was applied on the TEF during 30 s, and the procedure was repeated 3 times. The endoscopic treatment was performed monthly until TEF closure was achieved.

Results RTEF and CTEF were closed in all patients. The mean number of procedure in each patient was 1.8. Closure of TEF was confirmed by esophagram, bronchoscopy, and clinical evaluation. There were a bacterial pneumonia and bronchospasm as postoperative complications. Median follow-up was 41 months (8–72). All of these TEF remain completely obliterated, and all patients are asymptomatic.

Conclusion Endoscopic management of congenital and recurrent TEF with the use of 50 % TCA is as a minimally invasive, effective, simple and safe technique in these patients and avoids the morbidity of open surgery.

Keywords Tracheoesophageal fistula · Congenital esophageal atresia · Chemical cautery · Trichloroacetic acid · Endoscopic surgical procedure

✉ Manuel Lopez
manuel.lopez@chu-st-etienne.fr

¹ Department of Pediatric Surgery and Urology, University Hospital of Saint Etienne, 42055 Saint-Etienne Cedex 2, France

² Department of Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, University Hospital Calvo Mackenna, Santiago, Chile

³ Department of Pediatric Surgery, University Hospital Calvo Mackenna, Santiago, Chile

⁴ Department of Pediatric Surgery and Urology, University Hospital of Limoges, Limoges, France

Esophageal atresia and tracheoesophageal fistula (EA/TEF) is a common malformation, to occur one in 2500–4500 living newborns [1]. Five anatomic variations of EA/TEF exist. The most common presentation is type C of gross classification, associating distal TEF with EA in 86 % of cases [1]. Recurrent tracheoesophageal fistula (RTEF) can occur between 5 and 14 % of cases, after first repair surgery [2]. It can be corrected by a second thoracotomy;

nevertheless, surgical procedure is technically challenging and has a high risk of complications including a 10–22 % incidence of a second RTEF [3, 4].

Isolated congenital tracheoesophageal fistula (CTEF) without EA (H-Type TEF) or type E, and CTEF in the upper pouch, diagnosed after EA/TEF long gap (Type B), represents 4 and 1 %, respectively, of congenital esophageal anomalies. Classical symptoms of RTEF or CTEF include: coughing, especially after drinking, abdominal distention, repeated cyanosis, and respiratory infections. The diagnosis is confirmed by barium swallow esophagram and bronchoscopy [5]. Surgical treatment of EA/TEF traditionally involved an open surgery. In CTEF without atresia, surgical approach depends on level of the fistula [6]. Thorax approach is performed when the TEF is placed under T3 level, and cervicotomy approach when the TEF is placed above T2 level. Since the past decades, advancements in pediatric endoscopic techniques and instrumentation allowed minimally invasive approach as an alternative to open surgery. Thoracoscopy approach is performed for the correction of EA/TEF, RTEF, and CTEF [7, 8]. Bronchoscopic or esophagoscopy approach can be performed in CTEF and RTEF. Endoscopic techniques have very fewer complications. Nevertheless, due to the variation in the technique, the small number of patients, and short-term follow-up, optimal management not has been accepted as the first line of the treatment in these cases. This preliminary study evaluated the effectivity of the chemocauterization and evolution of these patient with the use of trichloroacetic acid (TCA) from congenital and RTEF.

Materials and methods

From 2010 to 2014, a preliminary study was carried out in two institutions of Pediatric Surgery (Saint Etienne, France, and Santiago, Chile) after obtaining IRB approval for all patients. Fourteen pediatric patients were included in this study and were divided in two groups: Group RTEF and CTEF, consisting in twelve and two patients, respectively. The diagnosis of TEF was confirmed by esophagram and bronchoscopy in all cases (Figs. 1, 2). The RTEF group, following primary repair of EA/TEF type C, was performed by thoracotomy for esophageal anastomosis and TEF ligation. All infants in this group experienced respiratory symptoms including coughing and pneumonia. The mean time at the moment of diagnosis was calculated at 19 months post-operatively (1–196 months). In this group, the initial treatments for the first three cases were several balloon dilatation and esophageal stent. For the second case, the treatment was balloon dilatation, and for the third case were lower esophageal banding and gastrostomy by

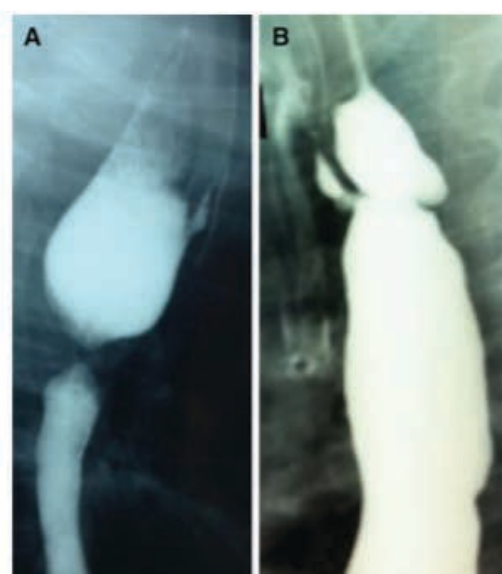


Fig. 1 Esophagram. **A** Congenital TEF. **B** Recurrent TEF



Fig. 2 Bronchoscopic view. RTEF above the carina (observe the blue arrow on the fistula)

mini-laparotomy as saving practice was done. These three patients had persistence of RTEF, and for the others nine patients in this group, no initial treatment was done.

The group CTEF, type B, long gap with TEF in the upper pouch, was treated at first day of life by gastrostomy. In both cases, delayed diagnosis of CTEF was done at 3 and 24 months. At 3 months old in both cases, primary correction by esophageal anastomosis was done by thoracotomy and thoracoscopy, respectively. One of them was asymptomatic. In both cases, the CTEF in the upper pouch was placed at cervical level. Nevertheless, a delayed bronchoscopy management was chosen instead than open surgery by cervicotomy. The mean age at the moment of

endoscopic treatment in the group RTEF was 23.5 months (3–156 months) and in the group CTEF was 48 months (1.5–96 months). All of patients were treated by endoscopy approach using chemocauterization with 50 % trichloroacetic acid (TCA). The endoscopic work was done in collaboration with the otorhinolaryngology department. Data of patients are shown in (Table 1–2).

Surgical approach

The procedure is performed by both the otorhinolaryngologist who exposes the fistula and the pediatric surgeon who performed the chemocauterization of the RTEF or CTEF.

Under general anesthesia, a rigid ventilating bronchoscope 0°–2.7 mm was inserted into the opening of the fistula. After identification of the fistula, the bronchoscope is placed at the posterior wall of the trachea, just at the level of the fistula. This procedure aided the otorhinolaryngologist in securely holding the bronchoscope at the fistula opening during chemocauterization. After stabilization of the bronchoscope, the surgeon applied on the fistula small cotton dry (2 mm of diameter), without TCA solution. It is held with a forceps and a secure stitch through the channel was made (Fig. 3). This trick allowed training and securing the procedure before treatment. When it was done, small cotton is soaked with 50 % TCA solution and applied to the opening of the fistula and brushed for 30 s under direct vision during all procedure. This helps to limit the chemical injury to the fistula opening itself. The procedure will be repeated three times in the same surgical time (Fig. 4). Endoscopic treatment was performed monthly in day surgery, in cases of persistence of the fistula, and until TEF closure was achieved and confirmed by esophagogram and bronchoscopy (Fig. 4).

Results

Endoscopic treatment by chemocauterization with the use of 50 % TCA for CTEF and RTEF was feasible in all cases. TEF closure was achieved in all cases. During procedure, large fistulas were found in RTEF group than CTEF group. The mean number of procedure in each patient was 2 (1–3) in the RTEF group, and 1 in the CTEF group. The mean operative time was 30 min (20–40). None patients needed nasogastric tube in postoperative period. One patient presented bronchospasm in preoperative period without uneventful course. The mean hospital stay was less than 24 h, except in a patient with postoperative pneumonia who needed intravenous antibiotherapy and physiotherapy. For these patients, no feeding regimen in pre- or postoperative period was done. And the feed was done according to the age. The patients were discharged with analgesic and oral corticoids (1 mg/kg/day) systematically during 48 h. The closure of TEF was confirmed by esophagogram, bronchoscopy, clinical evaluation, and disappearance of symptoms such as cough. The mean follow-up was 41 months (8–72). None of them needed a second surgery. All of these TEF remain completely obliterated and the patients are symptomatic free and had no recurrent of TEF.

Discussion

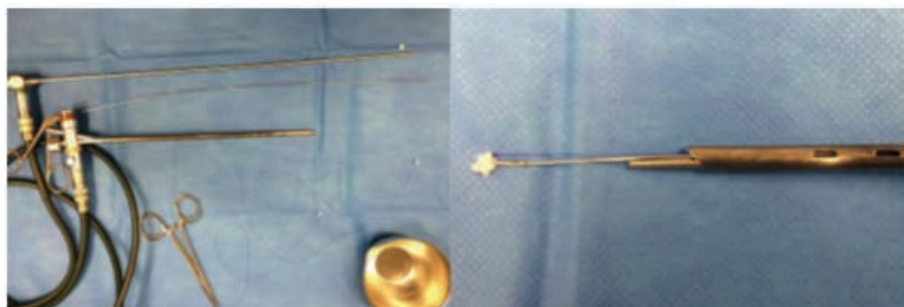
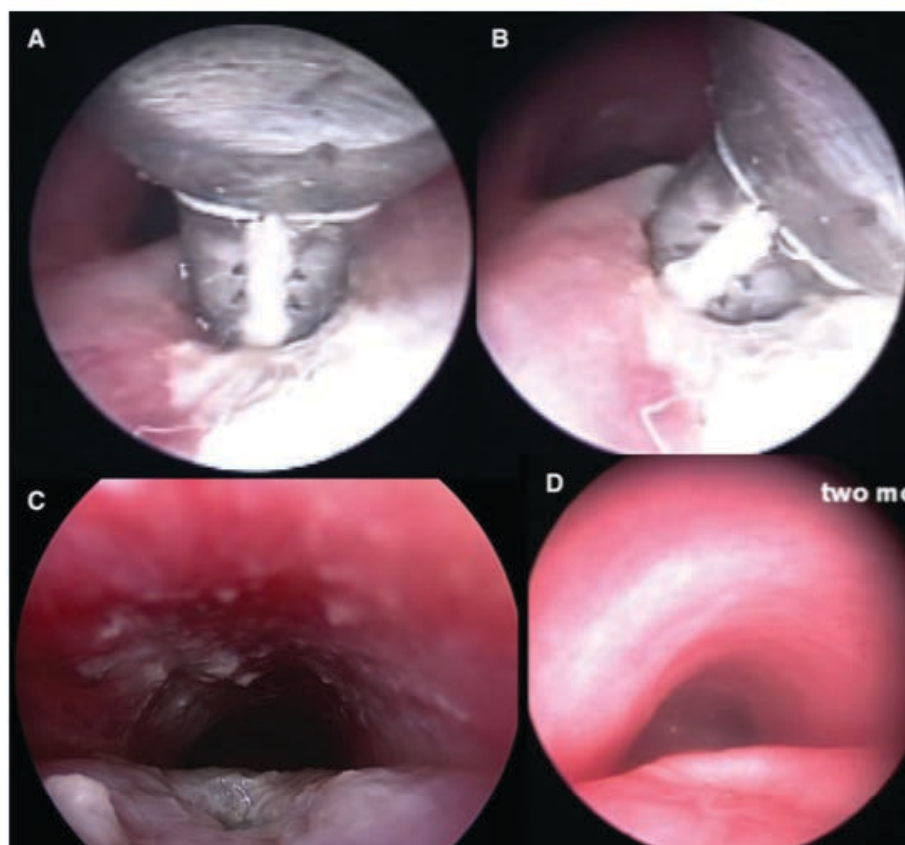
The first reported of successful for the treatment of RTEF by endoscopy approach was described by Gnanietz and Krause in 1975 [9]. Since then, different reports have been described. Nevertheless, to date no procedure has been accepted as first line of the treatment, due to variable outcomes and the small numbers of cases. Several

Table 1 Data of patients of RTEF (recurrent tracheoesophageal fistula)

| Patient | Sex | Age during endoscopic procedure (months) | Surgery approach | Number of procedure | Result | Complications | Follow-up |
|---------|--------|--|------------------|---------------------|--------|---------------|-----------|
| 1 | Female | 23 | Thoracotomy | 3 | Closed | None | 24 |
| 2 | Male | 7 | Thoracotomy | 2 | Closed | None | 30 |
| 3 | Male | 3 | Thoracotomy | 1 | Closed | Bronchospasm | 12 |
| 4 | Male | 156 | Thoracotomy | 3 | Closed | None | 72 |
| 5 | Male | 4 | Thoracotomy | 3 | Closed | None | 68 |
| 6 | Female | 3 | Thoracotomy | 3 | Closed | None | 63 |
| 7 | Female | 8 | Thoracotomy | 2 | Closed | None | 55 |
| 8 | Male | 6 | Thoracotomy | 2 | Closed | Pneumonia | 53 |
| 9 | Female | 12 | Thoracotomy | 2 | Closed | None | 48 |
| 10 | Male | 16 | Thoracotomy | 1 | Closed | None | 45 |
| 11 | Female | 12 | Thoracotomy | 1 | Closed | None | 45 |
| 12 | Male | 4 | Thoracotomy | 1 | Closed | None | 36 |

Table 2 Data of patients of CTEF (congenital tracheoesophageal fistula)

| Patient | Sex | Age during endoscopic procedure (months) | Surgery approach | Number of intervention | Result | Complication | Follow-up |
|---------|--------|--|------------------|------------------------|--------|--------------|-----------|
| 1 | Female | 23 | Thoracoscopy | 1 | Closed | None | 16 |
| 2 | Male | 7 | Thoracotomy | 1 | Closed | None | 8 |

Fig. 3 Instrumentation: rigid bronchoscope Karl–Storz, O² rod lens telescope, forceps, cotton TCA-soaked, stitch**Fig. 4** Trichloroacetic acid application with cotton (A). Note the twist maneuver inside the fistula (B). Tracheal view of the fistula post procedure (C). Two-month follow-up after procedure shows completely closed fistula (D)

techniques have been developed, as using interposing tissue (Histoacryl, Fibrin), de-epithelialization (electrocautery, sclerosant, and laser), or a combination of both [10–14]. Different reports showed that the overall success

by endoscopic treatment of RTEF and CTEF was about 60 % in different reports, with a mean number of procedures by patient of 2.1 [15–17]. In 2008, Sung et al. [18] reported a preliminary study with a novel endoscopic

approach to RTEF in three patients using a 50 % TCA as sclerosant with excellent outcomes. TCA is a strong acid used for chemical skin peels; a small amount of this solution is systemically nontoxic and is neutralized by tracheobronchial secretions and does not risk injury to the distal airway. It causes de-epithelialization, which theoretically creates soft tissue edema and subsequent fibrosis leading to auto-obliteration. Despite the requirement of repeated general anesthesia, this procedure seems to be sure, effective, and reproducible. Nevertheless, this procedure can be combined simultaneously with another method, in order to increase the success of TEF closure.

Although this study has a very small number, it is original because described the largest series reported in the literature treated by endoscopic approach using a 50 % TCA, including patients with congenital TEF. In the RTEF group (twelve), the mean time at the moment of diagnosis was 19 months post-operatively. The initial treatments for the first three cases were several balloon dilatation and esophageal stent. For the second case, the treatment was balloon dilatation, and for the third case were lower esophageal banding and gastrostomy by mini-laparotomy as saving practice with failure and persistence of TEF. The mean number of procedure in this group was two series. In the CTEF group, delayed diagnosis of CTEF was done at 3 and 24 months. The fistula was located in the upper pouch at cervical level. These infants were treated by combined approach: thoracoscopy or thoracotomy for esophageal anastomosis and endoscopic treatment for cauterization of CTEF in the upper pouch needed only one procedure. In all cases, TEF closure was achieved with 100 % of successful rate. Our results confirm the effective reported by Sung in 2008. [18]. Due to chemocauterization with the use of 50 % TCA, the risk of mucosal edema is low, leading no major complications and allowing the procedure in day surgery, in absence of operative complications. In our institution and institutions of Santiago, Chile, minimally invasive treatment with the use of 50 % TCA is the method of choice in cases of RTEF and CTEF. Nevertheless, in CTEF, when the fistula is placed 1 cm below to the vocal cords, endoscopic treatment is not suitable, because of the risk of glottis burn. In our opinion, two-month interval between each session might be more appropriate particularly in cases of RTEF, and only one procedure could be enough.

In conclusion, the chemocauterization of congenital and recurrent TEF with the use of 50 % TCA is a minimally invasive treatment and has proven to be useful, effective, simple, and safe method in infants with RTEF and CTEF, and it avoids the morbidity and adverse musculoskeletal sequelae of an open surgery. However, larger series and prospective studies are need.

Disclosures Yann Lelonge, François Varlet, Patricio Varela, Francisco Saitúa, Laurent Fourcade, Rocío Gutierrez, Sophie Vermesch, Jean-Michel Prades, and Manuel Lopez have no conflicts of interest or financial ties to disclose.

References

- Spitz L (2006) Esophageal atresia. Lessons I have learned in a 40-year experience. *J Pediatr Surg* 41:1635–1640
- Spitz L (2007) Oesophageal atresia. *Orphanet J Rare Dis* 2:24
- Myers NA, Beasley SW, Auld AW (1990) Secondary esophageal surgery following repair of esophageal atresia with distal tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 25:773–777
- Willets IE, Dudley NE, Tam PKH (1998) Endoscopic treatment of recurrent tracheoesophageal fistulae: long-term results. *Pediatr Surg Int* 13:256–258
- Beasley SW, Myers NA (1988) The diagnosis of congenital tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 23:415–417
- Mortell AE, Azizkhan RG (2009) Esophageal atresia repair with thoracotomy: the Cincinnati contemporary experience. *Semin Pediatr Surg* 18:12–19
- Rothenberg S (2013) Thoracoscopic repair of esophageal atresia and tracheoesophageal fistula in neonates, first decade's experience. *Dis Esophagus* 26:359–364
- Allal H, Kalfa N, Lopez M, Forgues D, Guibal MP, Raux O, Picaud JC, Galifer RB (2005) Benefits of the thoracoscopic approach for short- or long-gap esophageal atresia. *J Laparosc Adv Surg Tech A* 15:673–677
- Gdanietz K, Krause I (1975) Plastic adhesives for closing esophotracheal fistulae in children. *Z Kinderchir* 17:137–138
- Wiseman NE (1995) Endoscopic closure of recurrent tracheoesophageal fistula using tisseel. *J Pediatr Surg* 30:1236–1237
- Lopes MF, Pires J, NogueiraBrandão A, Reis A, Morais Leitão L (2003) Endoscopic obliteration of a recurrent tracheoesophageal fistula with enbucilate and polidocanol in a child. *Surg Endosc* 17:657
- Hoelzer DJ, Luft JD (1999) Successful long-term endoscopic closure of a recurrent tracheoesophageal fistula with fibrin glue in a child. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 48:259–263
- Richter GT, Ryckman F, Brown RL, Rutter MJ (2008) Endoscopic management of recurrent tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 43:238–245
- Briganti V, Coletta R, Giannino G, Calisti A (2011) Usefulness of dextranomer/hyaluronic acid copolymer in bronchoscopic treatment of recurrent tracheoesophageal fistula in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 75:1191–1194
- Meier JD, Sulman CG, Almond PS, Holinger LD (2007) Endoscopic management of recurrent congenital tracheoesophageal fistula: a review of techniques and results. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 71:691–697
- Bhatnagar V, Lal R, Srinivas M, Agarwala S, Mitra DK (1999) Endoscopic treatment of tracheoesophageal fistula using electrocautery and the Nd:YAG laser. *J Pediatr Surg* 34:464–467
- Tzifa KT, Maxwell EL, Chait P et al (2006) Endoscopic treatment of congenital H-type and recurrent tracheoesophageal fistula with electrocautery and histoacryl glue. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 70:925–930
- Sung M-W, Chang H, Hah JH, Kim KH (2008) Endoscopic management of recurrent tracheoesophageal fistula with trichloroacetic acid chemocauterization: a preliminary report. *J Pediatr Surg* 43:2124–2127

Commentaires de l'article

Le premier succès du traitement endoscopique des reperméabilisations de fistule trachéo-œsophagienne a été rapporté par Gnanietz et Krause en 1975 (8). Depuis, différents rapports ont été décrits mais à ce jour aucune procédure n'a été acceptée comme première ligne de traitement, en raison de résultats variables et du petit nombre de cas. Plusieurs techniques de désépithélialisation ont été rapportées (électrocoagulation, sclérosant, laser, seuls ou de façon combinée). Finalement le succès global d'un traitement endoscopique de fistule trachéo-œsophagienne congénitale ou reperméabilisée était d'environ 60% dans des différents rapports, avec un nombre moyen de procédures par le patient de 2,1 (3-7). En 2008 Sung *et al* ont rapporté une étude préliminaire de traitement endoscopique par acide trichloroacétique (TCA) chez trois patients avec d'excellents résultats. Il s'agit un acide fort utilisé pour les peelings chimiques de la peau; une petite quantité de cette solution n'est pas toxique par voie systémique et est neutralisée par les sécrétions trachéo-bronchiques, ne provoquant pas de brûlures de la voie respiratoire. Il crée théoriquement un œdème des tissus mous et une fibrose par désépithélialisation de la fistule, menant à l'auto-oblitération. Malgré l'anesthésie générale répétée parfois nécessaire en cas d'échec à la première tentative, cette procédure semble être sûre, efficace et reproductible. Par ailleurs, cette procédure pourrait être combinée simultanément avec un autre procédé, afin d'augmenter le succès de fermeture de la fistule. Malgré le faible nombre de cas, cette étude est originale et rapporte la plus grande série publiée dans la littérature. Dans le groupe des 12 récurrences de FTE, l'âge moyen au moment du diagnostic était de 19 mois après l'intervention. Dans le groupe des FTE congénitales, le diagnostic a été tardif entre 3 et 24 mois et la fistule était située dans le cul-de-sac supérieur au niveau cervical. Le traitement par TCA a permis 100% de guérison. Nos résultats

confirment l'efficacité rapportée par Sung en 2008 (2), et la procédure a pu être réalisée en hôpital de jour. Dans notre institution et celle de Santiago du Chili, le traitement mini-invasif avec l'utilisation de TCA à 50% est devenue la méthode de choix pour ce type de pathologie et, en cas d'échec, deux mois d'intervalle entre chaque tentative semblent appropriés. Néanmoins, en présence d'une FTE congénitale située à 1cm au-dessous des cordes vocales, le traitement endoscopique est contre-indiqué, car le risque de brûlure de la glotte est important. En conclusion, cette étude préliminaire démontre que la chimiocautérisation de la fistule trachéo-œsophagienne à l'aide d'acide trichloracétique à 50% est une méthode simple, peu invasive, efficace et sûre chez les enfants atteints d'une reperméabilisation de FTE ou d'une FTE congénitale. Cette méthode évite la morbidité et les séquelles musculo-squelettiques d'une réintervention notamment par chirurgie ouverte. Cependant, des grandes séries et des études prospectives sont nécessaires.

Références

1. Spitz L (2007) Oesophageal atresia. *Orphanet J Rare Dis* 2:24
2. Sung M-W, Chang H, Hah JH, Kim KH (2008) Endoscopic management of recurrent tracheoesophageal fistula with tri-chloroacetic acid chemocauterization: a preliminary report. *J Pediatr Surg* 43:2124–2127
3. Wiseman NE (1995) Endoscopic closure of recurrent tracheoesophageal fistula using tisseel. *J Pediatr Surg* 30:1236–1237
4. Lopes MF, Pires J, NogueiraBrandão A, Reis A, Morais Leitão L (2003) Endoscopic obliteration of a recurrent tracheoesophageal fistula with enbucrilate and polidocanol in a child. *Surg Endosc* 17:657
5. Hoelzer DJ, Luft JD (1999) Successful long-term endoscopic closure of a recurrent tracheoesophageal fistula with fibrin glue in a child. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 48:259–263
6. Richter GT, Ryckman F, Brown RL, Rutter MJ (2008) Endoscopic management of recurrent tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg* 43:238–245
7. Briganti V, Coletta R, Giannino G, Calisti A (2011) Usefulness of dextranomer/hyaluronic acid copolymer in bronchoscopic treatment of recurrent tracheoesophageal fistula in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 75:1191–1194
8. Gdanietz K, Krause I (1975) Plastic adhesives for closing esophotracheal fistulae in children. *Z Kinderchir* 17:137–138

Atrésie des Voies Biliaires

Avant l'introduction de la porto-entérostomie ou technique de Kasai pour traiter l'atrésie des voies biliaires, le taux de survie était inférieur à 5% à 12 mois de vie. Après la porto-entérostomie, la transplantation hépatique a augmenté le taux de survie de 50% à 90 % (1). Les principaux facteurs déterminants d'un résultat satisfaisant avec une porto-entérostomie sont l'âge du patient (< 2 mois), le flux biliaire postopératoire, la présence de structures canalaire au microscope, le degré de maladie du parenchyme, la qualité de l'anastomose, la diminution de l'ictère et l'amélioration du bilan hépatique. Il s'agit d'un terrain fragile, avec un taux élevé de complications per et post-opératoires, car les enfants avec atrésie des voies biliaires présentent un certain degré de malnutrition et de dysfonction hépatique. Après la première description par Esteves de la technique de Kasai sous cœlioscopie (2), cette approche est de plus en plus utilisée, combinée à une voie ombilicale pour réaliser l'anastomose extracorporelle du pied de l'anse en Y.

Nous nous sommes rapidement intéressés à ce sujet qui a fait l'objet d'une publication et de communications scientifiques internationales avec comité de lecture entant que premier auteur.

J Minim Access Surg. 2007 Apr-Jun; 3(2): 66–69.

doi: [10.4103/0972-9941.33276](https://doi.org/10.4103/0972-9941.33276)

Early laparoscopic Kasai's procedure in a low weight newborn

[M Lopez](#), [N Kalfa](#), [D Forgues](#), [M P Guibal](#), [R B Galifer](#), and [H Allal](#)

Department of Visceral Pediatric Surgery, Lapeyronie Hospital, Montpellier, France

Abstract

The authors present an early laparoscopic treatment in a newborn with biliary atresia. They describe the technical details of the Kasai laparoscopic procedure. A 10-day-old girl, weight 2.4 kg, was admitted with a history of jaundice and fecal acholia since birth, with elevated total bilirubin and abnormal hepatic test. Abdominal ultrasound showed a small gallbladder with hyperechogenicity in porta hepatis and absence of biliary principal duct. Other metabolic and hematological tests were normal. The procedure was performed at 20-day-old by laparoscopy. The cholangiography confirmed the biliary atresia and Kasai's procedure was continued by laparoscopy and transumbilical extracorporeal Roux-Y approach. The duration of the procedure was 220 min, with good tolerance of pneumoperitoneum due to the laparoscopy. Feedings of breast milk began on the third day postoperative, presenting normal colored stools, with normalization of the hepatic test. A 20 months follow-up was without complications.

Keywords: Biliary atresia, Kasai's procedure, laparoscopy, newborn

INTRODUCTION

Before the introduction of the Kasai porto-enterostomy, biliary atresia survival rates were less than 5% at 12 months of age. [1] Survival rates greater than 50% after porto-enterostomy have been reported and with the addition of liver transplantation, survival rates greater than 90% should be now expected. [2]

The major determinant factors of a satisfactory outcome following porto-enterostomy are: the patient's age at operation (under three months), the successful establishment of postoperative bile flow, the presence of microscopically demonstrable ductal structures in the hilum, the degree of parenchyma disease at diagnosis and technical factors of the anastomosis and diminish of jaundice and hepatic blood-test. Standard operation includes large, painful, muscle-cutting laparotomy to accomplish hilar dissection and porto-enterostomy according to Kasai technique or variants.[3] In addition children with biliary atresia are frequently operated upon some degree of malnutrition and hepatic dysfunction and they show a high rate of peroperative complications due to surgical trauma.[4] Laparoscopic instrumentation and new techniques have advanced. After first report by Esteves, the umbilical approach could be used for safe extracorporeal Roux-en-Y enteric anastomosis in babies with laparoscopic assistance. [5] We report that Kasai porto-enterostomy can be performed in a low weight newborn by laparoscopy

without complications. The initial result was encouraging and the patient recovered promptly after this procedure. [6]

CASE REPORT

A 10-day-old girl, weight 2.5 kg, was admitted with a history of jaundice, choluria and fecal acholia since birth. The pregnancy had been uneventful and the mother had addiction to morphine. All serologic studies were normal; she was born by normal delivery at 39 weeks' gestation weighing 2.3 kg. Laboratory data by the age of 12 days showed that total bilirubin (Tbil) was 26.4 mg/dl (normal 0.2-1.0); direct bilirubin (Dbil), 12.5 mg/dl; alanine aminotransferase (ALT) 94 IU/l (normal 5-32); aspartate aminotransferase (AST) 90IU/l (normal 9-32); alkaline phosphatase (AP) 153 IU/l; and gamma-glutamyltransferase (GGT) 180 IU/l (normal 5-35). Other metabolic, hematological and neonatal serologic test results were normal. An ultrasound scan (US) showed a small gallbladder, no intra or extra hepatic bile ducts, with hyperechogenicity at level hepatis portal that suggested the possibility of biliary atresia. At 20 days of age, a laparoscopic exploration was elected.

The procedure was performed with the patient positioned at the foot of the table, the surgeon at the patient's feet; the assistant with the camera at the right, the second assistant and instrument nurse at the left. Anesthesia was performed with inhaled and intravenous agents associated with short acting intravenous opiates and muscle relaxants were administered to facilitate the surgical procedure. The patient was intubated and mechanically ventilated with the inspired oxygen fraction setting at 70%.

A 7 mm incision was made in the upper umbilical ring by open technique for the telescope trocar position. The CO₂ was insufflated to 8 mmHg. Four additional 3.0 mm trocars were placed under direct laparoscopic vision in the left and right upper quadrant, left iliac fossa and epigastric area.

The examination confirmed a liver cirrhotic appearance an extra hepatic bile-duct atresia by cholangiography with a small, fibrotic gallbladder without passage into biliary duct. For liver exposure we used the palpator in epigastric area which rotates upward to expose the porta hepatis (Figure 1). Thereafter, mobilization of the gallbladder following the cystic duct, to the junction with the extra-hepatic duct remnants was performed. The reliquant was divided distally and then dissected toward the hepatic hilum, just to find the division of the portal vein and the hepatic arteries' entry point. This exposition allowed a complete transection of "porta hepatis" just under the liver surface with scissors leaving a surface with ducts draining bile [Figure 1].

With the epigastria trocar the left colon was up forward and the jejunum was secured 20 cm from Treitz ligament and drawn to the umbilical port under direct vision and withdrawn through the umbilicus. The pneumoperitoneum was interrupted to relieve tension on the mesentery as necessary to make extracorporeal transumbilical jejunal Roux-en-Y anastomosis. The jejunum was transected by stapler. Another 40 cm segment beyond the distal was selected for lateral-end anastomosis and was placed back into the abdomen. The correct position of the intestine was checked by laparoscopy.

The tied proximal jejunum was passed through the mesocolon and the lateral-end running suture around the porta hepatis was done using intracorporeal self-block sutures posterior and running suture anteriorly [Figure 2]. The percutaneous liver biopsy by hepafix needle was associated.

The tolerance of pneumoperitoneum was acceptable. The operative time was 220 min. The infant needed no respiratory support postoperatively. Feeding began on the third day,

producing normal colored stools on the same day.

Broad-spectrum antibiotics were continued for only three days postoperative and when oral feedings began, amoxicillin and clavulonic was given orally. The jaundice progressively declined with normalization hepatic function with a follow-up of 20 months.

DISCUSSION

Prolonged neonatal jaundice may be caused by different medical and surgical pathologies. Extra hepatic biliary atresia (EHBA) is one of the causes.[7] Early diagnosis of EHBA in jaundiced infants is mandatory, because the success rate of the operation is inversely proportional to the age of the patient, 80% if the operation is performed when the infant is younger than 60 days, but the success rate decreases 20% if the child is older than three months of age.[8,9] The diagnostic investigations have to be accelerated and the admittance of the patient to the surgical unit must not be delayed. The evaluation of an infant with prolonged jaundice consists of biochemical and serologic tests and abdominal ultrasonography. The positive “triangular cord sign” in the abdominal ultrasonography is highly suggestive of EHBA, [10] hepatobiliary scintigraphy and fine-needle liver biopsy is carried out. [6, 11, 12] Laparoscopic instrumentation and techniques have advanced to the point that laparoscopic, has found a great spectrum of indications in pediatric surgery and now it is used also in biliary atresia cases. [13] Before the introduction of laparoscopy, laparotomy had to be performed on the infants with prolonged jaundice in whom neonatal hepatitis could not be confirmed with the laboratory, radiology and histopathology investigations. Conventional surgical procedures in biliary atresia, used to gain some bile drainage into the intestine in children; have been achieved through large laparotomy in the upper abdomen. One of the largest incisions in pediatric abdominal surgery, with possible complications related to this approach include: pains, breathing limitation leading to pulmonary complications, nerves damage, prolonged ileus, wound dehiscence, large or recurrent incision hernias, rib damage, peritoneal adhesions. Dehiscence and hernias are usually presented in patients with hypoproteinemia, ascitis, which are common features in these patients.[7] When the procedure was started laparoscopically, its utility was limited only to evaluate the liver status: for irregular liver surface and greenish-brown color in patients with EHBA. The presence or absence of the gallbladder, as well as biliary ducts is obviously atretic by cholangiography. Progressive improvements in instrumentation over the last 15 years have led to the development of 3 mm, short laparoscopic instruments designed specifically for use in the pediatric population allowing new techniques and new complex procedures.

The original technique reported by Esteves showed a new approach for Laparoscopic hilar dissection, extracorporeal entero-anastomosis and porto-enterostomy with good results. Today this procedure could decrease these complications with advantages of minimally invasive technique, safe, short-lasting, the intraabdominal viscera are minimally touched, the opening is small,[14–15] showing significantly lower incidences of adhesions.[16] Amplified, well-illuminated visibility of the tiny hilar structures is guaranteed by laparoscopy. We believe that laparoscopic porto-enterostomy and extracorporeal transumbilical jejunal anastomosis is a promising technique that may be performed in a low weight newborn without complications, allowing the patient to recover promptly. The initial results have been encouraging and its real impact will be revealed after additional cases. These procedures should be performed by a surgeon experienced both in biliary surgery and advanced laparoscopic to increase the chances for successful results. [17]

REFERENCES

1. Adelman S. Prognosis of uncorrected biliary atresia: An update. *J Pediatr Surg.* 1978; 13:389–91. [PubMed: 682088]
2. Grosfeld JL, Fitzgerald JF, Predaina R, West KW, Vane DW, Rescorla FJ. The efficacy of hepatoportoenterostomy in the biliary atresia. *Surgery.* 1989;106:692–701. [PubMed: 2799644]
3. Bates MD, Bucuvalas JC, Alonso MH, Ryckman FC. Biliary atresia: Pathogenesis and treatment. *Semin Liver Dis.* 1998;18:281–93. [PubMed: 9773428]
4. Sandler AD, Azarow KS, Superina RA. The impact of a previous Kasai procedure on liver transplantation for biliary atresia. *J Pediatr Surg.* 1997;32:416–9. [PubMed: 9094006]
5. Esteves E, Clemente Neto E, Ottaiano Neto M, Devanir J, Jr, Esteves Pereira R. Laparoscopic Kasai portoenterostomy for biliary atresia. *Pediatr Surg Int.* 2002;18:737–40. [PubMed: 12598978]
6. Ferro M. Laparoscopic Kasai operation. Technical details and preliminary results of a promising technique. *Cir Pediatr.* 2004;17:36–9. [PubMed: 15002724]
7. Grosfeld JL. Biliary tract disorders: Cholestasis in infancy. In: Sabiston DC, Lysterly HK, editors. *Sabiston Textbook of Surgery.* Philadelphia, PA: Saunders; 1997. pp. 1256–9.
8. Hirsig J, Rickham PP. Early differential diagnosis between neonatal hepatitis and biliary atresia. *J Pediatr Surg.* 1980;15:13–5. [PubMed: 6445003]
9. Mieli Vergani G, Howard ER, Portman B, Mowat AP. Late referral for biliary atresia Missed opportunities for effective surgery. *Lancet.* 1989;1:421–3. [PubMed: 2563796]
10. Shah AH, Spiwak W. Neonatal cholestasis: New approaches to diagnostic evaluation and therapy. *Pediatr Clin North Am.* 1994;41:943–66. [PubMed: 7936782]
11. Nakama T, Kitamura T, Matsui A, Makino S, Senyuz OF, Kanazawa K. Ultrasonographic findings and management of intrahepatic biliary tract abnormalities after portoenterostomy. *J Pediatr Surg.* 1991;26:32–6. [PubMed: 2005521]
12. Andres JM. Neonatal hepatobiliary disorders. *Clin Perinatol.* 1996;23:321–52. [PubMed: 8780908]
13. Park WH, Choi SO, Lee HJ. The ultrasonographic ‘triangular cord’ coupled with gallbladder images in the diagnostic prediction of biliary atresia from infantile intrahepatic cholestasis. *J Pediatr Surg.* 1999;34:1706–10. [PubMed: 10591576]
14. Leape LL, Ramenofsky ML. Laparoscopy in infants and children. *J Pediatr Surg.* 1977;12:929–38. [PubMed: 592073]
15. Schier F, Waldschmidt J. Experience with laparoscopy for the evaluation of cholestasis in newborns. *Surg Endosc.* 1990;4:13–4. [PubMed: 2138362]
16. Bozkurt P, Kaya G, Yeker Y, Tunali Y, Altintas F. The cardiorespiratory effects of laparoscopic procedures in infants. *Anesthesia.* 1999;54:831–4.
17. Polymeneas G, Theodosopoulos T, Stamatiadis A, Kourias E. A comparative study of postoperative adhesion formation after laparoscopic vs open cholecystectomy. *Surg Endos.* 2001;15:41–3.

Figures



Porta hepatis dissection



Biliary-digestive anastomosis

Commentaires de l'article

La porto-entérostomie laparoscopique est une technique prometteuse qui peut être effectuée chez un nouveau-né, même de faible poids, sans complications et permettant au patient de récupérer rapidement. Les premiers résultats ne semblaient pas donner autant de succès que la chirurgie ouverte [3,4], et la porto-entérostomie laparoscopique a été abandonnée dans presque tous les centres sur les recommandations de l'IPEG en 2007. La technique a été modifiée par l'équipe de Yamataka, basée sur les principes originaux de Kasai, et les résultats actuellement obtenus sur une série de 36 cas au cours des 4 dernières années sont très encourageants [5]. Cette technique doit être effectuée par un chirurgien expérimenté en chirurgie laparoscopique avancée et en pathologie hépatobiliaire afin d'augmenter les bons résultats.

Références

1. Grosfeld JL, Fitzgerald JF, Predaina R, West KW, Vane DW, Rescorla FJ. The efficacy of hepatoportoenterostomy in the biliary atresia. *Surgery*. 1989;106:692–701.
2. Esteves E, Clemente Neto E, Ottaiano Neto M, Devanir J, Jr, Esteves Pereira R. Laparoscopic Kasai portoenterostomy for biliary atresia. *Pediatr Surg Int*. 2002;18:737–40.
3. Wong KK, Chung PH, Chan KL et al (2008) Should open Kasai portoenterostomy be performed for biliary atresia in the era of laparoscopy? *PediatrSurgInt*24:931–933
4. Ure BM, Kuebler JF, Schukfeh N et al (2011) Survival with the native liver after laparoscopic versus conventional Kasai porto- enterostomy in infants with biliary atresia: a prospective trial. *Ann Surg* 253:826–830
5. Wada M1, Nakamura H, Koga H, Miyano G, Lane GJ, Okazaki T, Urao M, Murakami H, Kasahara M, Sakamoto S, Ishizaki Y, Kawasaki S, Yamataka A. Experience of treating biliary atresia with three types of portoenterostomy at a single institution: extended, modified Kasai. *Pediatr Surg Int* (2014) 30:863–870

Chirurgie Digestive



Reflux Gastro-œsophagien et Fundoplicature sous cœlioscopique

Introduction

Le reflux gastro-œsophagien (RGO) est une pathologie assez fréquente chez les enfants caractérisée par le passage involontaire du contenu gastrique dans l'œsophage inférieur. Le phénomène est considéré comme pathologique quand il provoque des symptômes, notamment des vomissements, une dysphagie ou des troubles respiratoires. Par contre, l'incidence du RGO est plus élevée chez les enfants ayant une déficience neurologique (70%), et ceux-ci représentent 44 à 67% des enfants qui subissent une chirurgie anti-reflux. La fundoplicature est la procédure habituellement proposée après échec du traitement médical (inhibiteurs de la pompe à protons et les stimulants de la motilité). Le premier RGO guéri par laparoscopie chez un adulte a été rapporté en 1991 par Dallemagne *et al* (1). Georgeson et Lobe ont publié leurs premiers résultats chez l'enfant en 1992 (2). En Europe, Schier et Waldschmidt, Montupet et Grousseau publiaient leurs séries en 1994 (3-6).

Nous avons conduit une étude rétrospective monocentrique entre 1993 et 1998 incluant 142 patients présentant un reflux gastro-œsophagien opérés sous cœlioscopie. L'objectif de cette étude était d'analyser les résultats en terme de courbe d'apprentissage et de choix de la technique.

Evaluation of 142 Consecutive Laparoscopic Funduplications in Children: Effects of the Learning Curve and Technical Choice

By Hossein Allal, Guillaume Captier, Manuel Lopez, Dominique Forgues, and René-Benoît Galifer
Montpellier, France

Purpose: This retrospective study describes the 5-year experience of a single surgeon with 142 consecutive laparoscopic funduplications in children and analyzes the results in terms of the surgeon's learning curve and the choice of technique.

Methods: The patients were 44 girls (40%) and 98 boys (60%) with an age range of 3 months to 18 years (mean, 5.35 years). Indications for surgery included medically refractory reflux associated with vomiting, pneumopathy, otorhinolaryngologic pathology, failure to thrive, esophagitis, apnea and bradycardia, or anemia. The laparoscopic surgery used 5 trocars of 5 mm or 3 mm, with a 30° telescope.

Results: Laparoscopic fundoplication was successful in 139 cases. The authors performed 13 Nissen techniques without short gastric vessel division (SGVD), 47 Toupet without SGVD, 9 Toupet with SGVD, and 70 Nissen with SGVD. Mean operating time was 105 minutes (range, 45 to 300). Mean time was 125 minutes for the first 60 cases and 93

minutes for the other 79 cases). Intraoperative and postoperative complication rates were 0.5% and 2%, respectively, and the complications occurred in the first 60 cases. Mean postoperative hospital stay was 3 days (range, 2 to 14).

Conclusions: The rate of complication caused by the laparoscopic procedure was acceptable, and it decreased with the surgeon's experience. Complications and conversions to open technique occurred only in the beginning of the operator's experience. Dysphagia, epigastric pain, gas bloating, and early reflux recurrences were noted among the first 60 cases but seemed to be consecutive to the fact that the gastric vessels were not divided.

J Pediatr Surg 36:921-926. Copyright © 2001 by W.B. Saunders Company.

INDEX WORDS: Gastroesophageal reflux, laparoscopy, fundoplication.

GASTROESOPHAGEAL REFLUX disease is a fairly common pathology in children, with symptoms including vomiting, respiratory disturbances, and otorhinolaryngologic (ORL) pathologies. Fundoplication is the procedure usually proposed after failure or inadequacy of medical treatment (proton pump inhibitors and motility stimulants). The first gastroesophageal reflux cured by laparoscopy in an adult was reported in 1991 by Dallemagne et al.¹ Georgeson² and Lobe et al³ published their first experiences in children in 1992. In Europe, Schier and Waldschmidt,⁴ Montupet,⁵ and Grousseau et al⁶ reported their first cases in 1994. We began our experience with fundoplication in August 1993, first with the complete fundoplication without SGVD, then with the Toupet and Nissen procedures⁷ with SGVD. In this retrospective study, we present one surgeon's experience with 142 consecutive laparoscopic funduplications and analyze the results in terms of the surgeon's learning curve and whether the gastric vessels were divided.

MATERIALS AND METHODS

Between August 1993 and March 1998, 142 consecutive cases of gastroesophageal reflux were operated on using laparoscopic fundoplication in the Department of Visceral Pediatric Surgery of Lapeyronie Hospital, Montpellier, France. The cases included 44 girls (40%) and 98 boys (60%) with an age range of 3 months to 18 years (mean, 5.35 years). Indications for surgery included medically refractory reflux (n = 105) associated with vomiting (n = 78), pneumopathy (n = 94), ORL pathology (n = 33), failure to thrive (n = 13), esophagitis (n =

121), apnea and bradycardia (n = 11), and anemia (n = 2; Table 1). The antecedents showed 49 cases of neurologic impairment (30%), 7 cases of esophageal atresia, 4 of Down's syndrome, 1 of situs inversus, and 1 of Goldhenar syndrome (Table 2). Preoperative evaluation consisted of an upper gastrointestinal contrast series (UGCS) in 103 children (72.5%), fibroscopy in 132 (93%), 24-hour pH-monitoring in 110 (77.5%), manometry in 39 (27.5%), and technetium (Tc) 99m pertechnetate gastric scintiscan in 37 (26%; Tables 3-6).

Peroperatively, we systematically verified the integrity of the esophagus by fibroscopy. One month after surgery, all children were evaluated by clinical examination, and an UGCS was performed to take an image of the distal esophagus, fundoplication, and stomach. This determined any delay in esophageal emptying, the site of the fundoplication (abdominal or thoracic), the presence or absence of any paraesophageal herniation, and any abnormal distortion of gastric anatomy. The UGCS was possible in 90 of the patients without neurologic impairment. Two others were not monitored because they refused the barium. Forty-six of the neurologically impaired patients were evaluated with an UGCS (13 by the gastrostomy). In the 3 other cases, the medical records did not document UGCS examinations but without clear explanation for this. In 6 cases this examination was impossible to interpret. The long-term follow-up was a clinical evaluation at 4 months (98%), 10 months (72%), 2 years (51%), and 5 years

From the Department of Visceral Pediatric Surgery, Lapeyronie Hospital, Montpellier, France.

Address reprint requests to Dr Hossein Allal, Service de Chirurgie Viscérale Pédiatrique, Hôpital Lapeyronie, 371 Avenue du Doyen Gaston Giraud, 34295 Montpellier cedex 5, France.

Copyright © 2001 by W.B. Saunders Company

0022-3468/01/3606-0022\$35.00/0

doi:10.1053/jpsu.2001.23975

Table 1. Preoperative Symptoms of Children Suffering From Gastroesophageal Reflux (n = 142)

| | |
|--|----------|
| Recurrent vomiting | 78 (54%) |
| Retrosternal epigastric pain | 65 (45%) |
| Recurrent bronchitis, asthma | 94 (66%) |
| ORL symptoms | 33 (23%) |
| Other (anemia, n = 2; episodes of apnea, n = 11) | 13 (9%) |

postoperatively (22%). Fibroscopy, pH-monitoring, and manometry were performed only in cases of functional complications (recurrent reflux, dysphagia). The medical records of all patients itemized the operative time, the clinical efficacy of the surgery, any complications, and the quality of diet. Information was gathered either in consultation or by telephone.

Indications for the Specific Technique of Fundoplication

Classically, there are more dysphagias with the complete fundoplication (Nissen) than with partial fundoplication (Toupet), but its efficacy is greater. Thus, for fundoplications performed by laparotomy in our department, the Nissen fundoplication was reserved for neurologically impaired patients, and the Toupet was used for normal patients. Both procedures were performed with SGVD.

When we began to perform laparoscopic fundoplication, these indications were modified to allow the surgeon to concentrate on learning the new technique. In the first 13 cases, we performed only complete fundoplications without SGVD. The anterior wall of the gastric fundus was pulled behind the esophagus for construction of the fundoplication. The first 47 partial fundoplications (Toupet) also were performed without SGVD. These were partial fundoplications of 180° using the anterior wall of the stomach sutured onto the lateral face of the esophagus by 4 or 5 interrupted knots.

After a learning curve of 60 cases, the stomach was mobilized systematically which had been our usual procedure for laparotomy. In fact, from this point on, we increased our indications for complete fundoplication to include all patients because it appeared to be as well tolerated as the partial procedure and more effective over the long term.

Surgical Technique

The operations were performed by the same surgeon and according to a set procedure. A video monitor was positioned on the left side of the patient's head, and the surgeon seated between the child's legs, with the assistants on the right and left side. A 7-mm 30° scope was introduced by an open procedure through a 7-mm umbilical port. CO₂ was insufflated at a pressure of 5 to 9 mm Hg, depending on the size and age of the patient. Four operative 5-mm ports were introduced, as seen in Fig 1: 1 in the epigastric area, 2 in the right and left subcostal areas, and 1 in the left iliac area. A palpator was introduced under the xyphoid trocar to elevate the liver and expose the hiatal area. We began by dissecting the esophagus. The stomach was retracted downward by an atraumatic grasper introduced through the iliac trocar handled by the second assistant. The first assistant handled the camera and the palpator. When dividing the gastrohepatic ligament, care was taken to avoid injuring the accessory left hepatic artery. The esophageal peritoneum

Table 2. Antecedents (n = 59)

| | |
|-------------------------|----------|
| Neurologically impaired | 46 (32%) |
| Esophageal atresia | 7 (5%) |
| Down's syndrome | 4 (3%) |
| Goldhenar syndrome | 1 (0.7%) |
| Complete situs inversus | 1 (0.7%) |

Table 3. Preoperative Investigations: Upper Gastrointestinal Series With Reflux Testing (n = 103)

| | |
|--|------------|
| Normal | 13 (12.6%) |
| Gastroesophageal reflux | 84 (81.5%) |
| Hiatal hernia | 5 (4.8%) |
| Esophageal stenosis after esophageal atresia | 2 (2%) |

was divided carefully to avoid injuring the esophagus and the vagus nerve. When the cruras were identified, a loop was passed through a window created behind the esogastric junction. We then used the stomach grasper to catch the loop and pull the esophagus downward to facilitate dissection to a sufficient length of 3 or 4 cm. After placement of an appropriate second gastric tube to calibrate the esophagus, the cruras were approximated with intracorporeal interrupted nonabsorbable sutures.

After dividing the short vessels using a 5-mm clip or monopolar coagulation, the valve was placed behind the esophagus, which allowed for tension-free alignment of the wrap around the esophagus, and was then sutured by separate nonabsorbable intracorporeal knots as in the Toupet or Nissen procedure. After removal of the 2 gastric tubes, a preoperative fibroscopic examination was performed to control for any iatrogenic complication.

A small-sized nasogastric tube then was placed, and this was removed the next morning in the first 60 cases. Since these first 60 cases, no nasogastric tubes have been left in. All patients were given fluid food on the first postoperative day.

When percutaneous endoscopic gastrostomy (PEG) was indicated, it was performed after removal of the trocars with Gaudrer's technique using an endoscopic approach.

RESULTS

Of the 142 fundoplications, 139 were performed successfully with laparoscopy, although one patient died on day 4. The laparoscopic fundoplication procedures were as follows: 13 Nissens without SGVD, 47 Toupets without SGVD, 9 Toupets with SGVD, and 70 Nissens with SGVD. Percutaneous endoscopic gastrostomies were associated in 16 of these cases (13 in neurologically impaired children with failure to thrive and 3 in cases of pulmonary compromise).

Three patients (2%) underwent conversion to open surgery, in 1 case because of inadequate visualization of esogastric anatomy in a 7-month-old boy and in the 2 other cases because of problems of hemostasis in a diaphragmatic vessel and a spleen vessel. The conversions occurred during the second, tenth, and fifteenth cases. There were no cases of esogastric perforation, splenic injury or significant blood loss requiring transfusion.

Mean operating time was 105 minutes, and the time ranged from 45 minutes to 4 hours (mean time was 125

Table 4. Preoperative Investigations: Endoscopy With Histologic Investigation of Esophageal Mucosal Biopsy (n = 132)

| | |
|------------------------|------------|
| No esophagitis | 11 (7.7%) |
| Low-grade esophagitis | 38 (26.7%) |
| Moderate esophagitis | 52 (36.6%) |
| High-grade esophagitis | 31 (21.8%) |

Table 5. Preoperative Investigations: Esophageal Manometric Findings (n = 39)

| | |
|-------------------------------------|------------|
| Normal | 10 (25.6%) |
| Lower esophageal pressure < 5 mm Hg | 21 (53.8%) |
| Impaired esophageal peristalsis | 8 (20.5%) |

minutes for the first 60 cases and 93 minutes for the other 79).

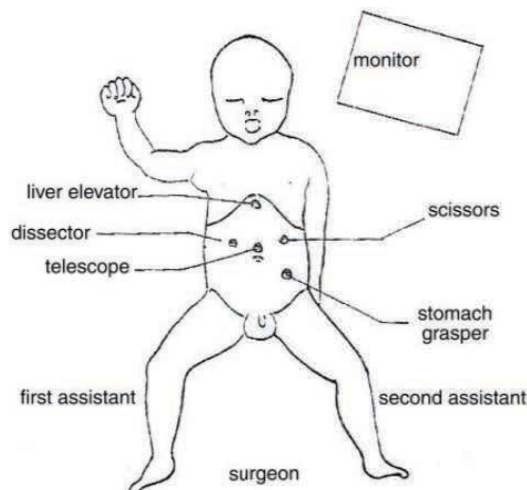
There was one intraoperative complication (0.5%): a left pleural perforation during the hiatal dissection in a neurologically impaired child. The pneumothorax was treated by needle aspiration during the intraoperative period without sequelae. There were 3 postoperative complications (2%): an epiploic evisceration, a hemoperitoneum, and an intestinal hemorrhage. The umbilical epiploic evisceration occurred in a neurologically impaired 11-year-old girl at day 2, and it required surgical reduction by the umbilicus. The hemoperitoneum was diagnosed at day 1 in a 9-year-old girl and required blood transfusion, laparoscopic exploration, abdominal washing, and coagulation of an epiploic vessel. The child left the hospital on day 5. The intestinal hemorrhage revealed a Mallory-Weiss syndrome in a neurologically impaired boy and was diagnosed by fibroscopy at day 3. The child needed transfusion and medical treatment (PPI). There was one postoperative death secondary to accidental obstruction of a tracheotomy at day 4 in a child with Down's syndrome. Mean hospitalization was 3 days (range, 2 to 14 days).

One month postoperatively, all 138 patients were seen systematically for clinical evaluation and a UGCS: 125 (91%) were without reflux symptoms, 8 reported partial improvement in pulmonary symptoms, and 5 reported no improvement in pulmonary symptoms. In these cases, 24-hour pH monitoring and fibroscopy showed only 1 recurrence of reflux, with no reflux in the 12 other cases. Fluid oral feeding was totally asymptomatic in 99 cases (71.7%).

At the time of the UGCS, the funduplications were effective and without complication in 121 cases (88%). There were 3 partial but asymptomatic mediastinal migrations of the wrap, and 1 case of persistent reflux. In the asymptomatic cases, no specific treatment and no further investigation was proposed. In one case, a symptomatic esophageal stricture at the surgical site was investigated 2 months postoperatively by UGCS and showed an increase in esophageal dilatation and migration of the mediastinal valve.

Table 6. Preoperative Investigations: Esophageal Isotopic Study (n = 37)

| | |
|-------------------------|-----------|
| Normal | 9 (24.3%) |
| Gastroesophageal reflux | 6 (16.2%) |
| Pulmonary contamination | 23 (62%) |

**Fig 1. Position of the operators, monitor, and trocars for laparoscopic fundoplication.**

There were 10 cases of moderate dysphagia and 1 severe case in a neurologically impaired child with a migration of the wrap through the hiatus. This child underwent reoperation by laparoscopy at 4 months postoperatively to release the cruras. Postoperative epigastric pain (Table 7) was reported by parents in 25 cases without real dysphagia and without esophageal dilatation at UGCS. This pain was noted principally at mealtimes, and in 12 cases the child needed to lie down. In all cases, the pain disappeared within 10 months.

We unfortunately had 3 severe cases of gas bloating in neurologically impaired patients (Table 8). They required hospitalization and temporary placement of a gastric tube. In one case, a PEG was performed but without pyloroplasty. Gas bloating totally disappeared within 10

Table 7. Results According to Operative Technique

| Results | Nissen Without SGVD (n = 13) | Toupet Without SGVD (n = 47) | Toupet With SGVD (n = 9) | Nissen With SGVD (n = 70) |
|-----------------------------|------------------------------|------------------------------|--------------------------|---------------------------|
| Epigastric pain | | | | |
| 1 mo | 6 | 16 | 1 | 2 |
| 4 mo | 2 | 8 | 0 | 0 |
| 10 mo | 0 | 0 | 0 | 0 |
| Dysphagia | | | | |
| 1 mo | 6 | 4 | 0 | 1 |
| 4 mo | 4 | 3 | 0 | 1 |
| 10 mo | 0 | 0 | 0 | 0 |
| Bloating | | | | |
| 1 mo | 3 | 0 | 0 | 0 |
| 4 mo | 2 | 0 | 0 | 0 |
| 10 mo | 0 | 0 | 0 | 0 |
| Recurrence of reflux | | | | |
| 1 mo | 0 | 1 | 0 | 0 |
| 4 mo | 0 | 2 | 0 | 0 |
| 10 mo | 0 | 6 | 0 | 0 |

months. No pyloroplasty was performed, because there was no delayed gastric emptying in the UGCS study.

Long-term follow-up showed 6 recurrent cases of reflux (Table 7), which were noted at 4 months ($n = 2$) and 10 months ($n = 4$) of the postoperative period. Clinical recurrent reflux was detected by UGCS and 24-hour pH monitoring. Five underwent reoperation laparoscopically but 2 underwent conversion to open technique because of the difficulty of dissection. One recurrent reflux detected endoscopically with intact fundoplication required only medical treatment with prokinetic agents. Epigastric pain, gas bloating, and dysphagia disappeared within 10 months in all cases (Table 7).

DISCUSSION

This study shows that laparoscopic fundoplication can be performed safely in children, with early follow-up results that are comparable with those with the open procedure.^{8,9} A study of 61 adults by Champault et al¹⁰ compared fundoplication by laparotomy or laparoscopy and showed the advantages of the latter in terms of abdominal wall morbidity, length of hospital stay, and the degree of patient satisfaction. Peters et al⁹ reported follow-up data with laparoscopic fundoplication and showed a failure rate of 2%. Our positive results (95.8%) are in accordance with those of other authors.^{11,12} Rothenberg¹³ reported 3.2% of reflux recurrence in his analysis of 220 cases in children. The rate of conversion to open fundoplication was 7.5% for Meehan and Georgeson¹⁴ because of equipment problems and dense adhesions, and 0.9% for Rothenberg¹³ because of inadequate visualization of esophagogastric anatomy. All conversions occurred early in their series and reflected the learning curve of the procedure.

Rothenberg¹³ published a large series of fundoplications in infants and reported 120 cases with patients under 10 kg. About 50% of these patients were small infants and neonates. Because of the low morbidity of this procedure and how well the infants tolerated it, he reported becoming more aggressive about treating patients who clearly had reflux, apnea, and bradycardia resistant to medical therapy. In our series, the smallest infant was about 4 weeks old and weighed 3 kg; 38 infants were under 2 years. The technical restrictions on laparoscopic fundoplication in children today are exceptional, and when conversion is necessary, it usually is because of a left liver lobe that is too big or dilatation of the colon. The efficacy of the complete fundoplication was immediate and total in our cases.

In the neurologically impaired children, the laparoscopic approach decreased morbidity in comparison with laparotomy. Gastrostomy was not systematically associated but was indicated in patients with failure to thrive.

As reported by Heloury et al¹⁵ and Rothenberg¹² we reserved the gastrostomy tube for patients who showed failure to thrive; this included 34% of the neurologic cases. Technically, percutaneous endoscopic gastrostomy was possible in all cases at the time of operation, at the end of the fundoplication.¹⁵

Operating time decreases significantly with the learning curve, as reported in most publications.^{12,16} Champault et al¹⁰ studied the effect of the learning curve on the outcome of laparoscopic treatment for gastroesophageal reflux in adults by comparing 3 successive groups. The results showed that their learning curve reached a plateau after the first 50 patients. Paluzzi,¹⁷ in a series of 103 fundoplications, reported a significant decrease in the mean duration of operating time: 202 minutes for the first 50 cases and 164 minutes for the last 49.

In our series, operating time also decreased with experience and currently does not exceed 90 minutes, even if the fundus is mobilized. We changed our standard procedures for laparotomy when we began to perform laparoscopic fundoplications. The complete Nissen procedure without SGVD has been considered by many investigators to be easy enough to be accomplished by laparoscopy.^{1,11,18} It does not need long esophageal dissection or fundus liberation. The wrap is small and sutured under tension with only 2 or 3 knots. For these reasons, we used this procedure for our first cases. By 60 cases, however, the surgeon felt he had sufficient mastery of the laparoscopic technique and at this point began to perform SGVDs. The SGVs were divided systematically only from the end of 1996 onward and thus concerned only the last 79 fundoplications.

Dysphagia generally is a transient problem thought to be related to postoperative edema. Originally, the purpose of the preoperative fibroscopy was to ensure that no esophageal injury had occurred during dissection. We found, however, that it also was a good method to control for esophageal stricture. In one case, we had to release the crura approximation to prevent postoperative dysphagia. No reports of routine perioperative fibroscopy of the laparoscopic fundoplication have been published, and a randomized study would be necessary to validate this procedure.

Many investigators^{4,19} report that significant early dysphagia may be more common in patients who have undergone laparoscopy. They suggest that the esophagus may be systematically evaluated by manometry before surgery and that a hemifundoplication be performed when motility is deficient. In our series, manometry was performed only when the upper gastrointestinal series showed pathology (esophageal dysmotility or dilatation), but this did not influence our technical choice. Cadière²⁰ reported that crural suturing may lead to complications

such as severe dysphagia when the wrap migrates into the chest. In our opinion, the crura should be approximated in normal children (ie, those without neurologic impairment) without hiatal hernia. In cases of hiatal hernia, the sac should be resected and the cruras sutured tightly; this should be completed by the fixation of the wrap on the right crura and diaphragm. In our series, the wrap slipped into the chest early in 1 case even with well-approximated crura, causing stricture of the esophagus. This complication was reported by Cadière²⁰ in adults and by other investigators in neurologically impaired children in open procedures.^{8,21} Gastrostomy, as either an anterior fundopexy or gastropexy, appears to be a solution in neurologically impaired children to avoid wrap migration.²²

Persistent gas bloating with inability to vomit usually is consecutive to complete fundoplication, and some investigators propose a complementary pyloroplasty.¹³ In our series, this occurred only in the neurologic cases, and when Nissens were performed without SGVD. Watson et al¹⁶ reported a higher incidence of epigastric bloating 3 months after surgery in the division group. Wu et al²³ reported 26 cases of gas bloating of 103 patients (9 of 32 Nissens without SGVD and 17 of 57 with SGVD). Rothenberg,¹³ in his experience of 218 successful laparoscopic funduplications, reported 7 pyloroplasties for delayed gastric emptying.

In Nissen's original procedure, the short gastric vessels were not divided.²² This principle has been followed by several surgeons performing laparoscopic Nissen fundoplication.^{5,10,11,17} For Fontaumard et al,²⁴ the postoperative dysphagia rate was 9.4% and for Bittner et al²⁵ it

was 24%. When short gastric vessels routinely were divided, postoperative dysphagia was 6% for Weerts et al²⁶ and 1% for Hinder et al.²¹ Watson et al¹⁶ recently published a prospective, double-blind, randomized trial of laparoscopic Nissen fundoplication with and without SGVD: the operating time increased by 40 minutes per vessel division. Perioperative outcomes and complications, postoperative dysphagia, relief of heartburn, and overall satisfaction were not improved by dividing the short gastric vessels. Lower esophageal sphincter pressure, acid exposure, and esophageal emptying times were similar for the 2 groups. The Watson randomized study concluded that there was no significant difference regarding the incidence of severe dysphagia with or without SGVD: division of the SGV during the laparoscopic Nissen fundoplication is indicated only when a loose wrap of the fundus cannot be constructed.

Laparoscopic fundoplication in children shows good results, low morbidity, cosmetic advantage, and postoperative comfort. Division of the short gastric vessels can be done laparoscopically without difficulty by an experienced operator; the primary advantage is a tension-free valve. Our evaluation in 142 children showed differences in functional results according to the technique used, which changed as the surgeon gained experience. Postoperative pain, dysphagia, gas bloating, and recurrence reflux seemed to be consecutive to fundoplication without SGVD, but it was hard to draw firm conclusions. Analysis of our results was complicated by the wide range in ages, symptoms, and antecedents. A prospective and randomized study would be helpful in determining more precisely the advantages of SGVD.

REFERENCES

1. Dallemagne B, Weerts JM, Jehaes C, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication. Preliminary report. *Surg Laparosc Endosc* 1:138-143, 1991
2. Georgeson KE: Laparoscopic gastrostomy and fundoplication. *Pediatr Ann* 92:675-677, 1993
3. Lobe TE, Schropp KP, Lunsford K: Laparoscopic Nissen fundoplication in childhood. *J Pediatr Surg* 28:358-361, 1993
4. Schier F, Waldschmidt J: Laparoscopic fundoplication in a child. *Eur J Pediatr Surg* 4:338-340, 1993
5. Montupet Ph: Laparoscopic treatment of gastroesophageal reflux disease. Presented at the International Symposium of Laparoscopic Procedures in Children: Sense and Nonsense. Utrecht, April 7, 8, 1995
6. Grousseau D, Terrier G, Alain JL: Traitement chirurgical du reflux gastro-oesophagien par voie laparoscopique chez l'enfant. *Presse Médicale* 1083:21-23, 1992
7. Allal H, Polliotto S, Luciani JLL, et al: Gastroesophageal reflux in children cured by laparoscopic surgery: Report of 20 cases. Presented at the 52nd Congress of the French Society of Pediatric Surgery, Paris, September 6, 7, 8, 1995
8. Bettex M, Kuffer F: Long-term results of fundoplication in hiatus hernia and cardioesophageal achalasia in infants and children. Report of 112 consecutive cases. *J Pediatr Surg* 4:526-530, 1969
9. Peters JH, Halmburger J, Werner KH, et al: Clinical and physiologic comparison of laparoscopic and open Nissen fundoplication. *J Am Coll Surg* 181:220-224, 1995
10. Champault GG, Barrat C, RC Rozon, et al: The effect of the learning curve on the outcome of laparoscopic treatment for gastroesophageal reflux. *Surg Laparosc Endosc* 9:375-381
11. Cuschieri A, Hunter J, Wolfe B, et al: Multicentric prospective evaluation of laparoscopic anti-reflux surgery. *Surg Endosc* 7:505-510, 1993
12. Rothenberg S: Laparoscopic anti-reflux procedures and gastrostomy tubes in infants and children. *Int Surg* 79:328-331, 1994
13. Rothenberg S: Experience with 220 consecutive laparoscopic Nissen funduplications in infants and children. *J Pediatr Surg* 33:274-278, 1998
14. Meehan JJ, Georgeson KE: Laparoscopic fundoplication in infants and children. *Surg Endosc* 10:1154-1157, 1996
15. Heloury Y, Platner V, Miraillié E, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication with simultaneous percutaneous endoscopic gastrostomy in children. *Surg Endosc* 10:837-841, 1996
16. Watson DI, Pike GK, Balgrie RJ, et al: Prospective double-blind randomized trial of laparoscopic Nissen fundoplication with division and without division of short gastric vessels. *Ann Surg* 5:642-652, 1997
17. Paluzzi M: Laparoscopic Nissen fundoplication at a teaching

center: Prospective analysis of 103 consecutive patients. *Surg Laparosc Endosc* 7:363-368, 1997

18. Bell RCW, Hanna P, Power B, et al: Clinical and manometric results of laparoscopic partial (Toupet) and complete (Rossetti) fundoplication. *Surg Endosc* 10:724-728, 1996

19. Dallemagne B, Weets JM, Jehaes C, et al: Causes of failures of laparoscopic antireflux operations. *Surg Endosc* 10:305-310, 1996

20. Cadière GB, Houben JJ, Bruyns J, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication: Technique and preliminary results. *Br Surg* 81:400-403, 1993

21. Hinder RA, Filipi CJ, Wetscher G, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication is an effective treatment for gastroesophageal reflux disease. *Am Surg* 220:472-483, 1994

22. Nissen R: Gastropexy and fundoplication in surgical treatment of hiatus hernia. *Am J Dig Dis* 6:954-961, 1961

23. Wu JS, Dunnegan DL, Luttmann DR, et al: The influence of surgical technique on clinical outcome of laparoscopic Nissen fundoplication. *Surg Endosc* 10:1164-1170, 1996

24. Fontaumard E, Espalieu P, Boulez J: Laparoscopic Nissen-Rossetti fundoplication. *Surg Endosc* 9:869-873, 1995

25. Bittner HB, Meyers WC, Brazer SR: Laparoscopic Nissen fundoplication: Operative results and short-term follow-up. *Am J Surg* 167:193-200, 1994

26. Weerts JM, Dallemagne B, Hamoir E, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication: Detailed analysis of 132 patients. *Surg Laparosc Endosc* 1:138-143, 1993

Notre évaluation de 142 enfants a montré des différences dans les résultats fonctionnels selon la technique utilisée. La douleur post-opératoire, la dysphagie et la récurrence du reflux semblaient être consécutives à une fundoplicature sans section des vaisseaux courts, mais il était difficile de tirer des conclusions définitives. La division des vaisseaux courts peut être faite sous coelioscopie sans difficulté par un opérateur expérimenté; le principal avantage est une valve sans tension. L'analyse des résultats s'est avérée difficile en raison des différences d'âge des enfants, des symptômes et des antécédents. Une étude prospective randomisée était nécessaire afin de déterminer plus précisément les avantages.

Ce travail a fait l'objet de la publication et des communications scientifiques internationales suivantes avec comité de lecture étant que premier auteur ainsi que le mémoire de thèse.

1. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 266 cases Congress of Argentinean Pediatric Surgery, Buenos Aires, Argentina, 2000.
2. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 300 cases. Colombian Congress of Pediatric Surgery, Pereira, Colombia, 2001.
3. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 300 cases Congress of Spanish Pediatric Surgery, Seville, and Spain 2001.
4. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 300 cases European Congress of Pediatric Surgery and 60th Meeting of French Society of Pediatric Surgery. Tours, France. Mai, 2003.
5. Laparoscopic Nissen in Children: 14th Annual Congress of Endosurgery in Children IPEG, Venice, Italy, 1-4 June 2005.

6. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 267 cases. Thèses, Pediatric Surgery University College, Paris, France, 2000.
7. Results of paediatric laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux” – AFSA, Thesis, Marseille, France, 2000.
8. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 300 cases 58th French Congress of Pediatric Surgery, Paris, September, 2001.

Commentaires de l'article

En conclusion, cette étude démontre que la fundoplicature laparoscopique peut être réalisée en toute sécurité chez les enfants avec des résultats comparables à ceux de la chirurgie ouverte. Une étude de 61 adultes par Champault *et al* a comparé la fundoplicature par laparotomie et par laparoscopie, et a démontré les avantages de la vidéo-chirurgie en termes de morbidité, de durée de séjour, et de degré de satisfaction des patients (7). Rothenberg a rapporté 3,2% de récurrence du reflux dans son analyse de 220 cas chez les enfants (8). Le taux de conversion était de 7,5% pour Meehan et Georgeson en raison de problèmes techniques et d'adhérences (9), et de 0,9% pour Rothenberg. Toutes les conversions ont eu lieu au début de leur série et reflétaient la courbe d'apprentissage de la procédure. Rothenberg a publié une grande série de fundoplicatures chez les nourrissons et a rapporté 120 cas avec des patients de moins de 10 kg (environ 50% de ces patients étaient des petits nourrissons et des nouveau-nés). En raison de la faible morbidité de cette procédure il a signalé être de plus en plus agressif sur le traitement des patients qui avaient un reflux associé à une apnée ou une bradycardie, et résistant au traitement médical (10). Dans notre série, le plus petit bébé était âgé d'environ quatre semaines et pesait 3 kg; 38 nourrissons avaient de moins de 2 ans. Une conversion fut parfois nécessaire généralement en raison d'un lobe hépatique gauche trop volumineux ou d'une dilatation du côlon. Chez

les enfants ayant une déficience neurologique, l'approche laparoscopique a diminué la morbidité de manière significative. La gastrostomie n'a pas été associée systématiquement, mais était indiquée chez les patients présentant un retard de croissance comme l'ont préconisé Rothenberg et Hérouy (8,11) ; ainsi nous avons mis en place une gastrostomie chez 34% des enfants neurologiques. Champault *et al* ont étudié l'effet de la courbe d'apprentissage sur les résultats du traitement laparoscopique chez l'adulte en comparant trois groupes différents. Les résultats ont montré que leur courbe d'apprentissage a atteint un plateau après les 50 premiers patients (7). Paluzzi, dans une série de 103 fundoplicatures, a signalé une diminution significative de la durée moyenne du temps d'intervention: 202 minutes pour les 50 premiers cas puis 164 minutes pour les suivants et même 49 pour la dernière (12). Dans notre série, le temps opératoire a également diminué avec l'expérience. La procédure complète selon Nissen, sans section de vaisseaux courts, a été considérée par de nombreux chirurgiens comme étant assez facile sous cœlioscopie notamment car il n'est pas nécessaire de faire une longue dissection de l'œsophage.

La dysphagie post-opératoire est généralement un problème transitoire liée à l'œdème. Dans un cas, nous avons dû réopérer l'enfant pour sectionner un fil de rapprochement des piliers diaphragmatiques, responsable de la dysphagie. Aucun rapport de fibroscopie peropératoire de routine n'a été publié pour éviter ce genre de complication, et une étude randomisée serait nécessaire pour valider cette procédure.

La fundoplicature sous cœlioscopie chez l'enfant montre de bons résultats, une faible morbidité, des avantages esthétiques et un confort post-opératoire certains.

Références

1. Dallemagne B, Weets JM, Jehaes C, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication. Preliminary report. *Surg Laparosc Endosc* 1:138-143, 1991
2. Georgeson KE: Laparoscopic gastrostomy and fundoplication. *Pediatr Ann* 92:675-677, 1993
3. Lobe TE, Schropp KP, Lunsford K: Laparoscopic Nissen fundoplication in childhood. *J Pediatr Surg* 28:358-361, 1993
4. Schier F, Waldschmidt J: Laparoscopic fundoplication in a child. *Eur J Pediatr Surg* 4:338-340, 1993
5. Montupet Ph: Laparoscopic treatment of gastroesophageal reflux disease. Presented at the International Symposium of Laparoscopic Procedures in Children: Sense and Nonsense. Utrecht, April 7, 8, 1995
6. Grousseau D, Terrier G, Alain JL: Traitement chirurgical du reflux gastro-oesophagien par voie laparoscopique chez l'enfant. *Presse Médicale* 1083:21-23, 1992
7. Champault GG, Barrat C, RC Rozon, et al: The effect of the learning curve on the outcome of laparoscopic treatment for gastro- esophageal reflux. *Surg Laparosc Endosc* 9:375-381
8. Rothenberg S: Laparoscopic anti-reflux procedures and gastrostomy tubes in infants and children. *Int Surg* 79:328-331, 1994
9. Meehan JJ, Georgeson KE: Laparoscopic fundoplication in infants and children. *Surg Endosc* 10:1154-1157, 1996
10. Rothenberg S: Experience with 220 consecutive laparoscopic Nissen funduplications in infants and children. *J Pediatr Surg* 33:274- 278, 1998
11. Heloury Y, Platner V, Miraille E, et al: Laparoscopic Nissen fundoplication with simultaneous percutaneous endoscopic gastro- tomy in children. *Surg Endosc* 10:837-841, 1996
12. Paluzzi M: Laparoscopic Nissen fundoplication at a teaching center: Prospective analysis of 103 consecutive patients. *Surg Laparosc Endosc* 7:363-368, 1997

Re-interventions de la chirurgie antireflux par Coelioscopie. Echec et faisabilité

La chirurgie anti-reflux sous cœlioscopie est devenue une procédure courante pour le traitement du reflux gastro-œsophagien (RGO). Un certain nombre d'études ont démontré qu'elle peut être faite en toute sécurité avec d'excellents résultats (1). Cependant, la chirurgie anti-reflux peut échouer parfois et une reprise peut être nécessaire. Par conséquent, l'évaluation des taux d'échec des différentes techniques opératoires présente un grand intérêt dans la population chirurgicale. Dans la littérature adulte, le taux d'échec après la chirurgie anti-reflux sous cœlioscopie a été rapporté entre 2 à 17%, en fonction de la durée du suivi, et il est donc légèrement meilleur que la chirurgie ouverte (2). Néanmoins, ces études n'ont pas inclus de façon systématique une pHmétrie postopératoire pour tous les patients, et la supériorité de l'opération anti-reflux laparoscopique reste à prouver. Certaines études ont rapporté des contrôles de pHmétrie postopératoire systématique avec un taux d'échec de 30% chez des enfants neurologiques (3). De même plusieurs études ont été publiées concernant les complications de la fundoplicature en chirurgie ouverte, rapportant un taux d'échec allant de 2% à 24% (4-8). Des études récentes ont rapporté la faisabilité de la réintervention laparoscopique avec un taux d'échec estimé de 4 à 10%. Le but de notre étude rétrospective était d'évaluer les résultats et les circonstances d'échec de la procédure initiale, et d'analyser les indications de reprise des fundoplicatures laparoscopiques. Nous avons évalué les facteurs de risque ainsi que les mécanismes pathologiques à l'origine de l'échec et nous rapportons notre expérience dans la réintervention sous cœlioscopie avec l'importance sur les

points clés et les difficultés rencontrées.

Ce travail a fait l'objet de la publication et des communications scientifiques internationales suivantes avec comité de lecture en tant que premier auteur et de mémoire de thèse.

1. Results of the refundoplication laparoscopy after Nissen fundoplication in 21 cases. Colombian Congress of Pediatric Surgery, Pereira, Colombia, 2001.
2. Results of the refundoplication laparoscopy after Nissen fundoplication in 21 cases 58th French Congress of Pediatric Surgery, Lapeyronie Hospital, Montpellier, France, September, 2001.
3. Redo by laparoscopic after failure of anti-reflux surgery in children's: about 21 cases 58th Meeting of French Society of Pediatric Surgery, Paris, France, 2001.
4. Results of laparoscopy for the treatment of gastro-esophageal reflux in 300 cases Congress of Spanish Pediatric Surgery, Seville, Spain 2001.
5. Laparoscopic Redo-Fundoplication after Failure of Anti-reflux Surgery in Children 5th European Congress of Pediatric Surgery and 60th Meeting of French Society of Pediatric Surgery, Tours, France, May, 2003.
6. Laparoscopic Redo-Nissen in Children: experience of Montpellier 14th Annual Congress of Endosurgery in Children, Venice, Italy, 1-4 June 2005.



Reviews

Laparoscopic redo fundoplication in children Failure causes and feasibility

Manuel Lopez*, Nicolas Kalfa, Dominique Forgues, Marie P. Guibal,
Rene B. Galifer, Hossein Allal

Department of Pediatric Surgery, University Lapeyronie Hospital, Montpellier 34275, France

Received 27 October 2007; revised 16 May 2008; accepted 18 May 2008

Key words:

Laparoscopy;
Redo fundoplication;
Children

Abstract

Purpose: This retrospective study reports our experience in laparoscopic approach after failure of antireflux surgery. It evaluates the results and circumstances of failure of the initial procedure to understand indications of refundoplication.

Methods: Four hundred seventeen patients were operated on for a gastroesophageal reflux disease (GERD) by laparoscopy in our unit from August 1993 to February 2005. Thirty redo procedures (7.19%) were performed. The indications were 24 (80%) recurrent reflux resistant to the medical treatment and 6 (20%) severe dysphagia resistant to iterative dilatations. The average age was 57.6 months. Nineteen patients (63%) were males and 11 patients (37%) were females. The time between the first and the redo procedure was an average of 16 months. Ten (33%) of them were neurologically impaired (NI); in 7 patients, a percutaneous gastrostomy was also associated. The techniques previously used were 13 Nissen, 7 Nissen-Rossetti, and 10 Toupet.

Results: The redo procedure was performed by laparoscopy in 27 cases. A conversion was necessary in 3 children because of a difficult dissection. In the 24 cases of recurrent reflux, we realized a valve disassembly, reconstruction of hiatus and Nissen refundoplication. In 3 cases of dysphagia, the release of the hiatus needed a complete valve redo. The mean operative time was 140 minutes (110 to 240 minutes). The sole complication was a pleural perforation. All patients were fed on the first day. The mean duration of hospitalization was 3.1 days. The follow-up was from 48 months to 12 years. A new recurrent reflux occurred in 6 patients; 5 of them were NI.

Conclusion: The failure rate of the antireflux laparoscopic surgery is similar to the conventional surgery. The redo procedure is possible by laparoscopic with a success rate similar to the open redo surgery. The rate and morbidity of complications are acceptable and decrease with experienced surgeons. The indications of redo procedures should be similar to conventional surgery.

© 2008 Elsevier Inc. All rights reserved.

Laparoscopic antireflux surgery has become a current procedure for the treatment of severe gastroesophageal reflux

disease (GERD) [1]. A number of reports in the adult and pediatric surgical literature have shown that laparoscopic funduplications can be performed safely with excellent results [2]. However, antireflux surgery sometimes fails and redo fundoplication may be required. Therefore, the

* Corresponding author.

E-mail address: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr (M. Lopez).

evaluation of failure rates of different operative techniques has gained great attention.

In the adult literature, the failure rate after laparoscopic antireflux surgery has been reported to range from 2% to 17%, depending on the length of follow-up and is therefore slightly better than the open failure rate [3]. Nevertheless, these studies did not include a systematic 24-hour esophageal pH monitoring postoperatively for all patients, and the superiority of laparoscopic antireflux operation remains to be proven. Indeed, studies using a systematic 24-hour esophageal pH monitoring report a failure rate up to 30% in neurologically impaired (NI) children [4].

Several studies have been published concerning complications of the open fundoplication and reported failure rates ranging from 2% to 24% [5-9].

Recently published studies dealing with the laparoscopic failure rate in children reported the feasibility of redo laparoscopic procedure with a failure rate of 4%, 7%, and 10%, respectively [10-12].

The aim of this retrospective study is to evaluate the results and circumstances of failure of the initial procedure to understand indications of refundoplication. We evaluated risk factors as well as pathologic mechanisms causing failure and report our experience in managing failed antireflux surgery using the laparoscopic approach with emphasize on the technical key points and difficulties encountered.

1. Patients and methods

From August 1993 to February 2005, 417 children were operated on for GER in our unit using the laparoscopic approach. There were 152 girls and 265 boys with a mean age of 57 months (from 1 month to 17 years). One hundred forty-nine (36%) of them were NI; 88 (21%) of them presented a significant malnutrition and an indication to place a feeding gastrostomy within the antireflux intervention.

Surgical indication was a GERD either with a resistance to medical treatment or with a life-threatening complication.

Our previous series of laparoscopic technique fundoplication included Nissen procedures in 278 cases (66.6%), Toupet procedure in 71 cases (17.1%), and Nissen-Rossetti procedure in 68 (16.3%) [13].

Preoperatively, we systematically verified the integrity of the esophagus by fibroscopy. One month after surgery, all children were evaluated by clinical examination, and a control swallow was also systematically performed to take image of the distal esophagus, fundoplication, and stomach. This determined any delay in esophageal emptying, the site of the fundoplication, the presence or absence of any paraesophageal herniation, and any abnormal distortion of gastric anatomy. A 24-hour esophageal pH monitoring was not performed if the barium swallow was normal and if there were no clinical signs of GERD or partial improvement symptoms as detected.

The long-term follow-up was a clinical evaluation at 6 months, 1 year, and every year during a postoperative meeting.

The present study includes all children requiring redo fundoplication between August 1993 and February 2005 after failed laparoscopic antireflux surgery. All reviewed patients were available for follow-up; patients who cannot be reached were excluded from the study (8/425).

We reviewed the hospital records of the 417 patients to collect the following information: sex, age, previous technique of the initial procedure, recurrence symptoms indicating necessarily of a reintervention, coexisting diagnoses, neurologic status, diagnostic methods (barium swallow, 24-hour pH monitoring, endoscopy, manometry), technique of the redo procedure, and follow-up (Table 1). The comorbidity in previous series and redo series is showed in Table 2.

Thirty (7.19%) of the patients underwent redo laparoscopic procedure; the indications were divided into the following 2 categories:

- 1- Recurrent symptoms [24]. Failures to respond to maximum medical therapy were observed in addition to symptoms by upper gastrointestinal contrast study and 24-hour pH monitoring. This recurrent reflux was associated in 10 cases with migration of the wrap.
- 2- Severe dysphagia [6]. These were initially treated by balloon dilatation and were repeated 3 times, assessed by endoscopy. When not successful and if severe dysphagia persisted, the redo procedure was undertaken.

1.1. Operative technique

The patients were positioned in a lithotomy position with the surgeon between the legs of the patient (French position). A thin nasogastric tube was routinely placed in the stomach after induction of the anesthesia. Surgery was performed through 5 trocars. A 5 or 7-mm 30° scope and 4 trocars of 3 or 5-mm ports were used Fig. 1.

All redo procedure starts with an extended adhesiolysis between the lateral segment of the left hepatic lobe and the

Table 1 Preoperative symptoms of children having GER

| Previous series (n = 417) | | Redo (n = 30) |
|---|-----|---------------|
| Recurrent vomiting | 254 | 16 |
| Retrosternal epigastric pain | 115 | 14 |
| Recurrent bronchitis, asthma, and pneumonia | 240 | 14 |
| Ear and throat infection | 131 | - |
| Malnutrition | 88 | 7 |
| Others (anemia, episodes of apnea, hematemesis) | 32 | 3 |
| Dysphagia | - | 6 |

Table 2 Comorbidity in previous series and redo series

| Previous procedure (n = 189) | | Redo (n = 14) |
|------------------------------|-----------|---------------|
| Neurologically impaired | 149 (36%) | 10 (33%) |
| Esophageal atresia | 18 | |
| Down's syndrome | 8 | 1 |
| Goldenhar syndrome | 1 | |
| Complete situs inversus | 1 | |
| West syndrome | 1 | |
| Turner syndrome | 2 | |
| Neurofibromatosis | 2 | |
| Laparoschisis | 2 | |
| Pierre-Robin syndrome | 2 | |
| Hirschsprung's disease | 1 | |
| Cardiopathia | | |
| Fragile X syndrome | 1 | 1 |
| Chromosome deletions | 1 | 1 |

stomach and are divided sharply with hook cautery or with Ultracision. The old fundoplication wrap is identified and disassembled, the esophagus is cleared anteriorly, and the vagus are identified and protected. Dissection behind the esophagus is done to free the wrap as completely as possible posterior and from the left crus attachment. A window is created behind esophagus; a lace is applied around the esophagus for retraction. This also ensures sufficient mobilization of the esophagus and prevents postoperative slips or wrap disruptions. Dissection was done deep into the mediastinum. We perform a careful and extensive dissection well above the diaphragm. After placement of a second gastric tube to calibrate the esophagus, the cruras are approximated with intracorporeal interrupted nonabsorbable sutures. The short gastric vessels are ligated when these have not been removed in the previous fundoplication. The fundus is freed of all posterior and lateral attachments. The valve is placed behind the esophagus, so the wrap around it should be tension free and spontaneously stable. It is then sutured by separated nonabsorbable intracorporeal knots that are used to fashion a Nissen fundoplication. A preoperative fibroscopic examination is performed to control for any iatrogenic complication.

2. Results

2.1. Failure rate

Four hundred seventeen children underwent laparoscopic surgery for GERD. Thirty of them had to be reoperated on for recurrence symptoms; the global rate of failure was 7.19%.

The previous procedures used in these patients were 13 (4.7%) Nissen, 10 Toupet (14%), and 7 (10.3%) Nissen-Rossetti. The mean age of patients at the time of redo surgery was 57.6 months old (48-204 months). There was a predominance of boys—19 patients (63%)—and 11 girls (31%).

The mean delay between the initial procedures to redo fundoplication was 16 months; in 6 children (20%), a feeding gastrostomy had been placed in the initial intervention. For various reasons, 33% [10] of them were NI; in 13% of cases, the patients presented chromosome anomalies. In 7 patients, a percutaneous gastrostomy endoscopy was associated at the same time of redo procedure.

The feasibility was more than 90%; the redo procedures were completed laparoscopically in 27 cases. Conversion to laparotomy was required in only 3 cases (10%). The first 2 conversions to open procedures were required at the beginning of the surgeons' learning curve because of dense adhesions between the stomach, liver, and others surrounding structures. The other conversion was undertaken because of herniation of the colon into the chest that could not be managed laparoscopically.

2.2. Risk factors

Concerning age and sex, there was no significant difference between the reintervention groups compared to the original study cohort.

The antireflux surgery failure in neurologic impairment was presented in 10 children (33%); this percentage of NI children was not significant in the redo procedure group (33% vs 36% in the original study cohort).

Different techniques were used as first approach, but most of the patients received a Nissen technique at initial procedure. On the contrary, for the Toupet procedure, the rate of reinterventions exceeds 10% and has to be compared with less than 5% for Nissen procedures.

In our series, history of congenital esophageal atresia was not a risk factor for recurrent gastroesophageal reflux disease; of the 18 cases of esophageal atresia, none was reoperated on.

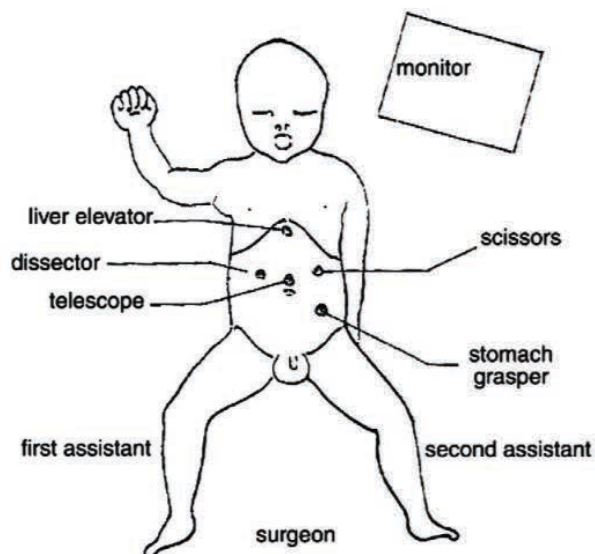


Fig. 1 Position of the operators, monitor, and trocars for laparoscopic fundoplication.

2.3. Clinical signs and pathologic failure mechanism

Most children presented more than one symptom susceptible of a relapse of gastroesophageal reflux.

The main symptoms were recurrent vomiting in 16 children (53.3%) and chest pain in 14 children (46.6%). Eight children presented a combination of these 2 symptoms. Hematemesis was observed in 3 children. Pulmonary symptoms including recurrent pneumonias were observed in 14 children. Six patients presented severe dysphagia, and the manometry was normal. A barium swallow confirmed the indication of a redo intervention in all 30 children, and it was always correlated with subsequent preoperative findings.

Indications of a reintervention were a sphincter mechanism failure in 24 cases, of which 10 were associated with an intrathoracic migration of the wrap, and an important esophageal stenosis in 6 children.

2.3.1. Recurrence of GERD (14)

A recurrence of GERD because of a sphincter mechanism failure was the most frequent indication of reintervention in our series and was presented in 14 children with mean age of 53.4 months.

The most frequent clinical symptoms associated to a recurrence of GERD were recurrent vomiting in 10, chest pain in 7 cases, and pulmonary symptoms in 6 cases. Of the 14 children, 2 were NI. A 24-hour pH monitoring and upper gastrointestinal series confirmed the diagnosis in these children. The initial intervention was undertaken using the technique of Nissen in 2, Nissen-Rossetti in 5, and Toupet in 7 cases.

In the redo procedure, the surgical attitude was different in each situation. In cases of Toupet procedure, the valve was still in place in 5 cases; in the other 2 cases, the valve presented a breakdown, so a Nissen refundoplication was performed.

In Nissen-Rossetti procedure, the valve was spontaneously broken down in all 5 cases; a fundoplication was done with section of short gastric vessels.

In Nissen procedures in 2 cases, the valve was still in place and preserved and was only tightened to get enough antireflux devices with fibroscopic control.

2.3.2. Migration of the wrap (10)

Barium swallows demonstrated ascension of the wrap in 10 children (mean age, 82 months). Recurrent vomiting ($n = 5$), chest pain ($n = 5$), and pulmonary symptoms ($n = 4$) were typical symptoms. Four children presented an important malnutrition. All children except 2 were NI. Nissen fundoplication was initially performed in 8 cases and Toupet procedure in 2 cases.

All 10 patients had hiatus hernias that were repaired at their initial intervention, and all patients had at least 2 cm of intraabdominal esophagus.

In cases of Nissen procedure [8], all patients were NI, and a Nissen refundoplication was redone in all patients. The use of a patch was not necessary to close the crura.

In Toupet procedures [2], the laparoscopy showed valve migration with partial breakdown of fundoplication in one case but was still intact in the second case. In both cases, the hiatus were repaired in initial procedure. A Nissen refundoplication was redone in both patients with section of short gastric vessels.

2.3.3. Esophageal stenosis (6)

Six children (mean age, 48 months) presented an esophageal stenosis causing a severe dysphagia in all cases.

Balloon dilatation was undertaken 3 times without success in all cases.

Five children presenting this complication had been initially operated on adopting the antireflux technique of Nissen, and a Toupet procedure was done in 1 case.

In 3 cases, the release of the hiatus needed a complete valve redo (floppy Nissen); 3 cases were treated by section of tightened knots between crus of diaphragm by preoperative control esophagoscopy and calibration of transhiatal esophagus.

The mean operation time of the reintervention was 140 minutes, ranging from 110 to 240 minutes vs 65 minutes in the first intervention.

There was no mortality in our series of reintervention. In one case, the operation was complicated by a pleural perforation, and the pneumothorax was treated by needle aspiration during the intraoperative period.

Feeding was restarted on the first postoperative day; children with a gastrostomy started on the second postoperative day and received complete alimentation after a mean delay of 3 days. The length of hospital stay was 3 days (1-8 days), and the follow-up was 36 months to 12 years.

All the cases were seen and reevaluated with clinical examination, and a control swallow was also systematically performed at first month postoperative to take image of the distal esophagus, fundoplication, and stomach. This determined any delay in esophageal emptying, the site of the fundoplication, the presence or absence of any paraesophageal herniation, and any abnormal distortion of gastric anatomy. A 24-hour esophageal pH and fibroscopy were not performed if the barium swallow was normal and if no clinical signs of GERD or partial improvement symptoms as detected.

The long-term follow-up was a clinical evaluation 3 months, 6 months, 1 year, and after that once a year postoperative. Six patients had recurrent reflux symptoms without improvement with medical treatment and demanded a second redo laparoscopic procedure, 5 of whom presented severe neurologic impairment.

The second reintervention was successfully performed, using the laparoscopic approach. In all 6 children, there was no intraoperative or postoperative complications (6/30 [20%]). The failure rate in a redo procedure is almost 3 times higher than for the initial laparoscopic fundoplication (30/417 [7.19%]).

All 30 children finally achieved symptomatic relief. None of the children required a third reinterventions.

3. Discussion

Laparoscopic fundoplication is successful in preventing reflux in more than 95% of patients. However, over time, there appears to be failure of the fundoplication, which is unlikely that medical management will be successful in controlling the reflux symptoms after either wrap breakdown and/or transmigration. Thus, operative repair for control of recurrent symptoms is required in most cases [14].

Large series of laparoscopic antireflux procedures have included some patients with adverse outcome requiring redo procedure. The failure rate in adult's antireflux surgery has been well documented both for open initial surgery and for initial surgery using the laparoscopic approach. Open failure rate is reported to range from 9% to 30% [15], whereas failure rate after laparoscopic fundoplication is reported to be even slightly better with 2% to 17% [16]. In pediatric surgery, attention has been directed to evaluate the failure rate after open fundoplication, but little emphasis has been placed on the evaluation of the failure rate after laparoscopic initial intervention. The reported failure rate after open Nissen fundoplication in children ranges from 2% to 24% and seems to be comparable to adult's surgery. A number of centers have reported on the feasibility of reoperative laparoscopic antireflux surgery in children [7,12,14,17-19].

In our series, the follow-up did not include a systematic esophageal pH monitoring unless clinical signs of GERD were present, or barium swallow was abnormal. It is thus a possibility that some low-grade GERD was underdiagnosed, but their clinical significance remains negligible.

A study dealing with failure of laparoscopic antireflux surgery included 179 patients of whom 15 required reoperation; thus, a failure rate of 8.7% [11]. The same research group has previously reported an open fundoplication failure rate of 12% [11]. In our study, we analyzed a total of 417 patients, with 30 children requiring reoperation; thus, the failure rate was 7.19%. We therefore support the hypothesis that reintervention can also be successfully and safely managed using the laparoscopic approach without increasing morbidity. This recommendation assumes of course the surgeons' knowledge and skills of laparoscopic surgery.

Historically, Nissen fundoplication has been well accepted as a surgical procedure that successfully corrects GERD including redo procedures. Long-term success rates of approximately 90% have been reported, and operative mortality is very low [20].

In our series, in previous laparoscopic fundoplication, different techniques were performed; concerning the rate of redo procedures, the Toupet procedure exceeds 10% and has to be compared with less to 5% for Nissen procedures. In all cases, the technique used for redo procedure in our series was Nissen technique.

The reason for the failure of an initial antireflux procedure has been well documented [21]. In our series, the sphincter mechanism failure was the most common reason of failure

and was because of the valve disruption or loosening of the fundoplication.

The impact of neurologic impairment remains really interesting concerning failure rate and failure mechanism. This series concurs with Dedinsky [9], Pearl [22], and Kimber [23] in recognizing that complications after fundoplication are more likely to develop in NI children, with an important risk factor for antireflux surgery failure. Interestingly, the reason for antireflux surgery failure in NI children is a migration of the wrap in most cases. Neurologic impairment seems not to affect failure because of esophageal clearance failure or sphincter mechanism failure.

A NI child is a strong risk factor for migration of the valve, and this condition is the main indication of redo in this population. In our series of redo procedures, 10 patients (33%) were NI, and the mechanism failures were wrap migration in 8 cases and relapse wrap in 2 cases. In these hypertonic patients, crural disruption leading to recurrent hiatal hernia is precipitated by spasticity, epilepsy, and chronic lung. It is probable that an excessive wide hiatus may benefit from insertion of a Gore-Tex (W.L. Gore and Associates, Flagstaff, Ariz) patch report in other series, but this was not used in our series. Six patients (20%) had recurrent reflux symptoms without improvement with medical treatment and was required a second redo laparoscopic procedure. Only one of them was neurologically normal and 5 (84%) of them presented severe neurologic impairment. This series of re-redo procedures was similar to Kimber [23] and Spitz [18] series by open surgery. We can conclude that results of antireflux surgery remain far from optimal in NI children, but more studies are required to improve the outcome of surgical gastroesophageal treatment in NI group.

History of congenital esophageal atresia was not a risk factor for recurrent GERD; in our initial study, of the 18 cases of esophageal atresia, none was required second reintervention. These same findings were reported by Ngermcham [24] in 2007. We therefore cannot support the hypothesis that these children are at an especially increased risk for failure of antireflux surgery [7,15].

Patients with severe dysphagia can improve with conservative treatment such as endoscopic dilatation and time. Although early reoperation can deal with this problem quickly, it should be considered seriously for these patients who do not tolerate an adequate intake of liquids and soft food within the first week of surgery. This level of dysphagia should be distinguished from the more severe dysphagia seen in this small subgroup. In our series, severe dysphagia was due a snare of antireflux surgery when tightening of hiatus was excessive and was corrected laparoscopically.

When compared to open surgery, the laparoscopy is not exposed to an increase risk of failure. This point is critical to support mini invasive surgery for antireflux laparoscopy and is a valuable choice for initial and redo procedures. This surgery is feasible and provides good results for children. The good postoperative issues with easy pain

control, early feeding, and short hospitalization justifies the use of this technique.

In conclusion, the failure rate of the antireflux laparoscopic surgery is similar to the conventional surgery. The redo procedure is possible by laparoscopy with a success rate similar to the classic surgery [25]. The rate and morbidity of complications are acceptable and decrease with experienced surgeons. The indications of redo procedures should be similar to the classic surgery.

References

- [1] Esposito C, Becmeur F, Centoze A, et al. Laparoscopic reoperation following unsuccessful antireflux surgery in childhood. *Semin Laparosc Surg* 2002;3:177-9.
- [2] Tan S, Wulkan ML. Minimally invasive surgical techniques in reoperative surgery for gastroesophageal reflux disease in infants and children. *Am Surg* 2002;68:989-92.
- [3] Dallemagne B, Weerts JM, Jehaes C, et al. Causes of failure of laparoscopic antireflux operations. *Surg Endosc* 1996;10:305-10.
- [4] Cheung KM, Tse HW, Tse PH, et al. Nissen fundoplication and gastrostomy in severely neurologically impaired children with gastroesophageal reflux. *Hong Kong Med J* 2006;12(4):282-8.
- [5] Stein H, Feussner H, Siewert J. Antireflux surgery: a current comparison of open and laparoscopic approaches. *Hepato-Gastroenterol* 1998;45:1328-37.
- [6] Cadière GB, Houden JJ, Bruyns J, et al. Laparoscopic Nissen fundoplication: technique and preliminary results. *Br Surg* 1994;81:400-3.
- [7] Caniano DA, Ginn-Pease ME, King DR. The failed antireflux procedure: analysis of risk factors and morbidity. *J Pediatr Surg* 1990;25:1022-5.
- [8] Cuschieri A, Hunter J, Wolfle B, et al. Multicenter evaluation of laparoscopic antireflux surgery: preliminary report. *Surg Endosc* 1993;7:505-10.
- [9] Dedinsky GK, Vane DW, Black CT, et al. Complications and reoperation after Nissen fundoplications in childhood. *Am J Surg* 1987;153:177-83.
- [10] Granderath FA, Kamolz T, Schweiger UM, et al. Is laparoscopic refundoplication feasible in patients with failed primary open antireflux surgery? *Surg Endosc* 2002;16:381-5.
- [11] Graziano K, Teitelbaum DH, McLean K, et al. Recurrence after laparoscopic and open Nissen fundoplication: a comparison of the mechanism of failure. *Surg Endosc* 2003;17:704-7.
- [12] Rothenberg SS. Laparoscopic redo Nissen fundoplication in infant and children. *Surg Endosc* 2006;20(10):1518-20.
- [13] Allal H, Captier G, Lopez M, et al. Evaluation of 142 consecutive laparoscopic fundoplications in children: effects of the learning curve and technical choice. *J Pediatr Surg* 2001;6:921-6.
- [14] Ostlie DJ, Holcomb GW. Reiterative laparoscopic surgery for recurrent gastroesophageal reflux. *Semin Pediatr Surg* 2007;4(16):252-8.
- [15] Hunter JG, Smith CD, Branum GD, et al. Laparoscopic fundoplication failures: pattern of failures and response to fundoplication revision. *Am Surg* 1999;230:585-604.
- [16] O'Reilly MJ, Mullins S, Reddick EJ. Laparoscopic management of failed antireflux surgery. *Surg Laparosc Endosc* 1997;7:90-3.
- [17] Randolph J. Experience with Nissen fundoplication for correction of gastroesophageal reflux in infants. *Ann Surg* 1983;198:579-84.
- [18] Spitz L, Kirtane J. Results and complications of surgery for gastroesophageal reflux. *Arch Dis Child* 1985;60:743-7.
- [19] Tuggle DW, Tunell WP, Hoelzer DJ, et al. The efficacy of Thal fundoplication in the treatment of gastroesophageal reflux: the influence of central nervous system impairment. *J Pediatr Surg* 1988;23:638-40.
- [20] Van der Zee DC, Bax NM, Ure BM. Laparoscopic refundoplication in children. *Surg Endosc* 2000;14:1103-4.
- [21] Tunell WP, Smith EI, Carson JA. Gastroesophageal reflux in childhood: the dilemma of surgical success. *Ann Surg* 1997;560-5.
- [22] Pearl R, Robie S, Ein S, et al. Complications of gastroesophageal antireflux surgery in neurologically impaired versus neurologically normal children. *J Pediatr Surg* 1990;25:1169-73.
- [23] Kimber C, Kiely EM, Spitz L. The failure rate of surgery for gastroesophageal reflux. *J Pediatr Surg* 1998;33:64-6.
- [24] Ngermcham M, Barnhart D, Ramanath N, et al. Risk factors for recurrent gastroesophageal reflux disease after fundoplication in pediatric patients: a case control study. *J Pediatr Surg* 2007;42:1478-85.
- [25] Dutta S, Bamehriz F, Boghossian T, et al. Outcome of laparoscopic redo fundoplication. *Surg Endosc* 2004;18:440-3.

Commentaires de l'article

Dans notre série, le suivi ne comprenait pas de surveillance systématique de la pHmétrie sauf s'il y avait des signes cliniques de récurrences du RGO, ou en cas de TOGD anormal. Il est donc possible que certains RGO de bas grade aient été sous-diagnostiqués, mais leur signification clinique reste négligeable. Une étude portait sur l'échec de la chirurgie laparoscopique anti-reflux incluant 179 patients, dont 15 réinterventions nécessaires et le taux d'échec était de 8,7% (9). Le même groupe avait déjà signalé un taux d'échec de la fundoplicature par voie ouverte de 12%. Dans notre étude, nous avons analysé un total de 417 patients, avec 30 enfants nécessitant une réintervention, soit 7,19%. Une ré-intervention a été réalisée par laparoscopie chez 27 enfants. Une conversion a été nécessaire dans 3 cas à cause d'une dissection difficile. Dans les 24 cas traités sous coelioscopie, nous avons réalisé un démontage de la valve et une fundoplicature selon Nissen. Pour les 3 cas de dysphagie isolée, une libération de l'hiatus et une fundoplicature de Nissen furent effectuées. La durée opératoire moyenne était de 140 minutes et la seule complication a été une perforation de la plèvre. La durée moyenne d'hospitalisation était de 3,1 jours et le suivi de 48 mois à 12 ans. Une nouvelle récurrence de reflux survenue chez 6 patients : 5 d'entre eux étaient neurologiques. Nous soutenons donc l'hypothèse que la réintervention peut aussi être faite avec succès sous coelioscopie, sans augmenter la morbidité.

Historiquement, la technique de Nissen a été bien acceptée comme une technique de choix avec un taux de réussite à long terme d'environ 90%. La cause d'échec d'une procédure anti-reflux initiale a été bien documentée et l'incompétence du mécanisme sphinctérien était la raison la plus fréquente. Dans notre série des récurrences, 10 patients étaient neurologiques (33%) et le mécanisme était la migration de la valve dans 8 cas et un démontage du Nissen dans 2 cas. Ceci est en accord avec Dedinsky, Pearl et Kimber (10) et la cause d'échec de la

chirurgie anti-reflux chez les enfants neurologiques était également la migration intrathoracique de la valve dans la plupart des cas. Chez ces patients hypertoniques, l'orifice hiatal large conduit à une récurrence, et est précipité par la spasticité. Il est possible qu'un hiatus assez large puisse bénéficier d'une reconstruction avec un patch de Goretex* dans cette situation, mais cela n'a pas été utilisé dans notre série. Six de nos patients (20%) ont récidivé des symptômes de RGO après la reprise, sans amélioration par un traitement médical, et une deuxième reprise a été nécessaire, faisable également sous coelioscopie. Un seul parmi eux était neurologiquement normal, et 5 d'entre eux avaient une atteinte neurologique sévère. Cette série de reprises était similaire à celle de Kimberland et Spitz par chirurgie ouverte (11,12). Nos résultats de la chirurgie anti-reflux sont loin d'être parfaits chez les enfants neurologiques, et il nous faut encore progresser. Dans notre étude, les enfants traités d'une atrésie de l'œsophage n'ont pas représenté un facteur de risque pour la récurrence de RGO. En effet pour les 18 cas d'atrésie de l'œsophage de notre série, aucune reprise n'a été nécessaire. Ces mêmes résultats ont été rapportés par Ngercham en 2007 (13).

En conclusion, la coelioscopie dans la reprise du reflux gastro-œsophagien chez l'enfant n'augmente pas le risque de complication. Ce point est essentiel pour soutenir la chirurgie mini-invasive dans la chirurgie anti-reflux, tant pour les procédures initiales que pour les réinterventions, avec de bons résultats comparables à ceux de la chirurgie ouverte, mais avec tous les bénéfices de la coelioscopie. Le taux de complications et la morbidité sont acceptables et diminuent avec l'expérience des chirurgiens en coelioscopie.

Références

1. Tan S, Wulkan ML. Minimally invasive surgical techniques in reoperative surgery for gastroesophageal reflux disease in infants and children. *Am Surg* 2002;68:989-92.
2. Dallemagne B, Weerts JM, Jehaes C, et al. Causes of failure of laparoscopic antireflux operations. *Surg Endosc* 1996;10:305-10.
3. Cheung KM, Tse HW, Tse PH, et al. Nissen fundoplication and gastrostomy in severely neurologically impaired children with gastroesophageal reflux. *Hong Kong Med J* 2006;12(4):282-8.
4. Stein H, Feussner H, Siewert J. Antireflux surgery: a current comparison of open and laparoscopic approaches. *Hepato-Gastroenterol* 1998;45:1328-37.
5. [6] Cadière GB, Houden JJ, Bruyns J, et al. Laparoscopic Nissen fundoplication: technique and preliminary results. *Br Surg* 1994;81:400-3.
6. [7] Caniano DA, Ginn-Pease ME, King DR. The failed antireflux procedure: analysis of risk factors and morbidity. *J Pediatr Surg* 1990;25:1022-5.
7. [8] Cuschieri A, Hunter J, Wolfle B, et al. Multicenter evaluation of laparoscopic antireflux surgery: preliminary report. *Surg Endosc* 1993;7:505-10.
8. [9] Dedinsky GK, Vane DW, Black CT, et al. Complications and reoperation after Nissen fundoplications in childhood. *Am J Surg* 1987;153:177-83.
9. Graziano K, Teitelbaum DH, McLean K, et al. Recurrence after laparoscopic and open Nissen fundoplication: a comparison of the mechanism of failure. *Surg Endosc* 2003;17:704-7.
10. Dedinsky GK, Vane DW, Black CT, et al. Complications and reoperation after Nissen fundoplications in childhood. *Am J Surg* 1987;153:177-83.
11. Spitz L, Kirtane J. Results and complications of surgery for gastroesophageal reflux. *Arch Dis Child* 1985;60:743-7.

12. Kimber C, Kiely EM, Spitz L. The failure rate of surgery for gastro-oesophageal reflux. *J Pediatr Surg* 1998;33:64-6.
13. Ngercham M, Barnhart D, Ramanath N, et al. Risk factors for recurrent gastroesophageal reflux disease after fundoplication in pediatric patients: a case control study. *J Pediatr Surg* 2007;42: 1478-85.

Malformation Ano-Rectale. Traitement Coelioscopique.

Pendant de nombreuses décennies, un enfant né avec une malformation ano-rectale (MAR) haute représentait un challenge pour les chirurgiens pédiatres.

La technique de reconstruction demande une bonne compréhension de la pathologie ainsi que des chirurgiens expérimentés. Malgré tout, les résultats fonctionnels sont loin d'être parfaits. Au début des années 1990, une technique mini-invasive pour la correction de la malformation ano-rectale a été décrite par Keith Georgeson : "the laparoscopically assisted anorectoplasty" (LAARP). Son expérience chirurgicale très précoce avec la LAARP a d'abord été présentée à la réunion de la section chirurgicale de l'American Academia of Pediatrics en octobre 1998 (Georgeson et al. 2000). Depuis, de nombreux autres centres ont acquis une expérience avec cette technique mini-invasive et ont confirmé l'efficacité de l'approche coelioscopique pour cette malformation complexe et difficile. Au fil des ans, nous avons appris que les muscles profonds du plancher pelvien sont essentiels à la continence grâce à leurs fonctions sensitive et motrice, même si cela avait déjà été fortement évoqué par Douglas Stephens dès 1953, reconnaissant l'importance de préserver l'intégrité de la musculature pelvienne : le muscle pubo-rectal en particulier et le sphincter anal externe. Ses principes avaient permis de réduire le traumatisme chirurgical. Plus précisément, l'objectif de Stephens était d'améliorer les résultats chirurgicaux en améliorant la qualité de la dissection chirurgicale pelvienne lors de l'abaissement rectal. De ces principes est née dans les années 1980 la technique d'anorectoplastie sagittale postérieure décrite par Peña et De Vries (1). Cette technique a permis de placer avec précision le rectum au sein du complexe musculaire et elle a rapidement

supplante d'autres opérations contemporaines, en grande partie en raison de sa simplicité et de son élégance. Peña et d'autres ont noté une amélioration de la continence après l'anorectoplastie sagittale postérieure fonctionnelle grâce à la préservation des muscles de la continence lors de la procédure. Ainsi, cette opération est devenue le « gold standard » depuis les années 1980. Peña a apporté une contribution fondamentale à la compréhension des MAR en montrant que la dissection à travers le complexe du sphincter anal externe et la division chirurgicale complète des muscles releveurs sur la ligne médiane peuvent être effectuées sans blesser ces structures importantes. En effet, si l'opération est bien exécutée, 30-50% des patients atteints d'une MAR peuvent être complètement continent, et la plupart des autres peuvent avoir une vie « socialement continent ». Cependant, bien que l'anorectoplastie sagittale postérieure représente une amélioration par rapport aux opérations antérieures, il persiste une certaine incertitude quant à la contribution exacte de la fonction de l'intestin et du sphincter intrinsèquement anormal sur le taux élevé d'incontinence séquellaire. Cette question importante nous oblige à considérer la possibilité d'accomplir une correction de MAR sans division sagittale médiane d'aucun des muscles de la continence (Georgeson et al. 2000). Si l'un des progrès les plus importants inhérents à l'anorectoplastie sagittale postérieure était la visualisation des structures pelviennes de la continence, la procédure mini-invasive de Georgeson pour la reconstruction des MAR fournit un avantage encore plus grand de la visualisation de l'anatomie intra-pelvienne. La cœlioscopie permet au chirurgien de magnifier la musculature pelvienne avec une visualisation interne plutôt qu'externe. La cœlioscopie permet au chirurgien de bien voir dans la profondeur du petit bassin et derrière le col de la vessie chez le nouveau-né. L'inspection du plancher pelvien et la visualisation individuelle des muscles constituant le releveur est possible. Ce point de vue permet une orientation précise de la

dissection dans périnée, et évite tout écart par rapport à la trajectoire souhaitée de la dissection.

Après la description de la technique coelioscopique pour traiter les MAR, nous avons commencé très rapidement notre expérience, avec une première étude publiée sur les formes hautes avec fistule recto-vésicale. Ce rapport souligne l'intérêt de la laparoscopie dans ce type de MAR qui offre une bonne visualisation du petit bassin et de sa profondeur avec une technique de reconstruction qui minimise les traumatismes des structures environnantes et du périnée.

Cette travail a été publié dans l'European Journal of Pediatric Surgery en 2009, et a fait l'objet de communications scientifiques internationales et nationales suivantes avec comité de lecture en tant que premier auteur.

- 1) Anorectal Malformation (ARM) with bladder fistula: Interest of laparoscopic approach Meeting of French Society in Pediatric surgery, Lyon, France, 14-17 June 2006.
- 2) Anorectal Malformation (ARM) with bladder fistula: Interest of laparoscopic approach Meeting of colorectal club, Dublin, Ireland Oct 2007.
- 3) Anorectal Malformation (ARM) with bladder fistula: Interest of laparoscopic approach. 17ème réunion du Groupe d'Etude de Coeliochirurgie Infantile, (GECI), Nice, France, 12 June 2008.

Anorectal Malformation (ARM) with bladder fistula: Interest of laparoscopic approach

Manuel LOPEZ, Nicolas KALFA, Hossein ALLAL

Publié: European Journal of Pediatric Surgery. 2009; 10:96-7

Abstract

Objective:

Almost all types of anorectal malformation (ARM) can be cured through a sagittal anorectoplasty according to Pena. Only forms with a high fistula to the bladder require a double perineal and abdominal surgical approach. This case report highlights the interest of laparoscopy in this type of ARM.

Methods:

We report the case of a boy with a high ARM without antenatal diagnosis. Birth weight was 2860g. No perineal fistula was present. An abdomen X-ray at 12 hours of life revealed a pneumobladder rising suspicion of a rectovesical fistula. There were no associated malformations. After a neonatal left colostomy, a distal colic opacification confirmed this diagnosis.

The laparoscopically assisted anorectal pull-through was performed at 4 months of age. An initial cystoscopy identified a large fistula above the bladder neck, and let a catheterization to decompress the bladder. The insufflation pressure was 8 mmHg (telescope 5mm 30°, 2 operative trocars 3 and 5 mm). The fistula was first individualized, sutured and divided. A transcutaneous electrostimulation allowed defining accurately the levator and the ideal placement of the rectum under the laparoscopic view. The anorectal pull-through with a minimal perineal dissection was guided by the internal laparoscopic light.

Result:

The laparoscopic dissection and mobilization of rectal cul-de-sac was possible without peroperative complication. The operative time was 180 min. The pneumoperitoneum was well tolerated. A transient postoperative neurogenic bladder occurred during 4 weeks.

Conclusion:

The advantages of the laparoscopic approach in this type of ARM may be: a mini-invasive abdominal surgery, a reduced perineal dissection, the quality of exposition during the fistula closure, the accuracy of the rectum placement through the center of the muscular structures by a double external and internal control. But the potential benefit of this technique on the fecal continence remains unknown and its evaluation will require more cases and a longer follow-up.

Introduction

The recto-bladder-neck fistula in male patients is the only real supralelevator muscle malformation and fortunately occurs in only about 10% of cases. (1-2-3) and 90% of them are frequently associated to urologic abnormalities (4).

It is the only defect in male patients that requires a laparotomy in addition to the lower approach for repair usually performed according to the Pena's sagittoplasty (2).

Numerous laparoscopic operations have now replaced the traditional open procedure, allowing access to abdominal cavity without significantly traumatizing intervening tissue.

In 2000 Georgeson reported its own technique for repair of high imperforate anus using laparoscopy (5). The laparoscopically assisted anorectal pull-through (LAARP) uses fundamental concepts learned from decades of high ARM repair and incorporates modern technologic advancements in surgical instrumentation and techniques (6).

This case report highlights the interest of laparoscopy in this type of ARM, which offers good visualization of deep pelvis with a reconstruction technique that minimizes trauma to important surrounding structures and perineal wounds.

Case report

A male baby, born at 39 week's and weighting 2860g, was referred in our surgical department for an imperforate anus. No antenatal diagnosis was made. No perineal fistula was seen at inspection and urinalysis show "flat Bottom" meconium in urine (Fig.1). At 12 hours of life a plain abdomen X-ray revealed a pneumobladder rising suspicion of a rectovesical fistula (fig2), and a left diverting colostomy was then performed. Soon after a distal colostogram confirmed the neck-bladder fistula and its association with a bilateral vesicoureteral reflux leading to prophylactic antibiotherapy. There were no other associated malformations, and the sacral ration was 0.73 mm in anterior-posterior view. The laparoscopic assisted anorectal pull-through (LAARP) was performed at 3 months of age, on a baby weighting 5.1kg.

Fig.1The périnéal inspection



Fig. 2. An abdomen X-ray at 12 hours of life revealed a Pneumobladder rising suspicion of a rectovesical fistula.



Surgical Technique

In this very high malformations, we used a total body preparation was used, washing and prepping the entire body of the child, all the way from the middle portion of the chest down to and including both feet that were covered with jerseys, so that we have access both to the abdomen and perineum.

The operation was preceded by a Cystoscopy which identified a large fistula above the bladder neck, and let a catheterization into the bladder (Fig. 3).

In the same time, the anal area with maximal contraction was identified using transcutaneous electrostimulation (Pena Muscle Stimulator) at a current intensity of 60 milliamps and was marked with skin sutures.

The laparoscopy was performed, using the open technique with a pneumoperitoneum to a pressure of 8 mmHg. A telescope 5mm 30° was introduced through the umbilical orifice, and 2 operative trocars 3 and 5 mm were placed one in the right upper quadrant below the colostomy site and other in the left lower quadrant, the pneumoperitoneum was created to a pressure of 8 mmHg (Fig 4).

Conventional technique as described by Georgeson was used. Laparoscopic rectal dissections using Ligasure or hook cautery was begun at the peritoneal reflection and keeps dissecting as close as possible to the muscular layer of the bowel taking great care to avoid injury to urogenital structures. Its narrowing indicated the proximity of the fistula site and the vasa deferentia were identified and are very close to the rectum, the fistula was clearly individualized; the distal bladder neck fistula was sutured and divided, the rectum is separated from the urinary tract (Fig 5).

The midline was identified and a transcutaneous electrostimulation allowed defining accurately the levator and the ideal placement of the rectum under the laparoscopic view. The rectum was passed in front of the levator, immediately behind the urethra, and then a 10mm vertical midline incision was performed in the perineum at the place where we previously identified the center of maximal contraction.

The anorectal pull-through with minimal perineal dissection was guided by the internal laparoscopic light, and after the anoplasty was completed. The rectal position was controlled by laparoscopy for the last time.

Fig. 3 The Cystoscopy identified a large fistula bladder neck.



Results

Fig. 4 Patient and trocars Position

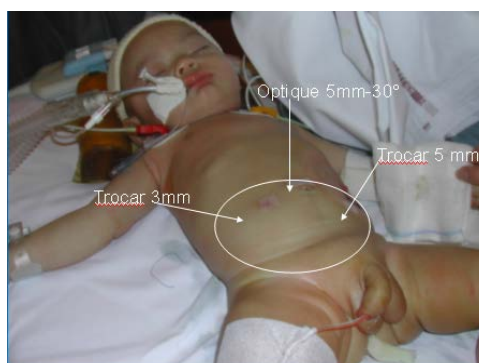


Fig.5 The fistula was sutured and divided



This patient was treated initially with divided colostomy in the newborn period, followed three months later with LAARP. The operative time was 180 min. The pneumoperitoneum was well tolerated;

The laparoscopic dissection and mobilization of rectal cul-de-sac was possible without peroperative complication, and there was no problem in acquiring enough length of distal rectum for pull-through in LAARP. At 5th postoperative days the bladder catheter was removed and the patient presented a transient postoperative neurogenic bladder occurred during 8 weeks. The colostomy was closed one month later. The boy is yet young to be evaluated for fecal continence but he has symmetric anal contraction and not rectal prolapsus or anal stricture was observed after one year follow-up.

Discussion

During the last decade the general tendency in pediatric surgery, has been toward minimally type invasive of procedures and the ARM are not an exception. Georgeson (5) was the first in 2000 to report on laparoscopic assisted anorectal pull through (LAARP) for the treatments of male patients of high ARM. Many pediatric surgeons using it instead of posterior sagittal anorectoplasty (PSARP), which had become the standard surgical management over the past 2 decades.

Laparoscopic assisted colon pull through is an excellent procedure which offers many advantages including: good and easy visualization of the recto-urinary fistula, quality of exposition during the fistula closure, the accuracy of the rectum placement through the center of the muscular complex, thank to a double external and internal control, and a reduced perineal dissection. In that particular form of ARM with a very high recto-bladder fistula, advantages of such a route are more obvious because abdominal and perineal phases can be done in the same time without changing patient's position. This technique allows the surgeon to treat technically a high lesion like low lesions.

Concerning to transient postoperative neurogenic bladder that we observed in our case with normal sacrum, the iatrogenic nerve damage can be probably explained by peripheral denervation of the bladder nerve plexus following LAARP after bladder manipulations, however minor sacral defects are often difficult to detect early in life. These minor defects may involve abnormalities of the distal nerve roots and a deficient amount of motor neurons in the sacral spinal cord segments.

Although the case is limited and the follow-up is short to make definitive conclusions, we believe this technique provides a unique and excellent opportunity to show and safety close the fistula with the urinary tract, and to locate exactly the center of the pubo coccygeal sling through which the rectal cul-de-sac should be passed. The accuracy of the pull-through and the absence of extensive perineal dissection are the theoretical conditions for an ideal result on sphincter function. But the potential benefit of this technique on the fecal continence remains unknown and its evaluation will require a longer follow-up.

Commentaires de l'article

L'abaissement rectal par laparoscopie est une excellente procédure qui offre de nombreux avantages, notamment la bonne visualisation de la fistule recto-urinaire, la qualité de l'exposition lors de la fermeture de la fistule, la précision du placement du rectum au travers du complexe musculaire, grâce à un double contrôle externe et interne, et une dissection du périnée réduite. Dans cette forme particulière de MAR avec fistule recto-vésicale, les avantages sont plus évidents. La précision de l'abaissement ainsi que l'absence d'une dissection étendue sont les conditions théoriques idéales pour un bon résultat de la fonction sphinctérienne.

Références

1. Pena A. Posterior sagittal anorectoplasty: Results in the management of 322 cases of anorectal malformations. *Pediatric Surgery International* 3: 94-104, 1988
2. Pena A. Anorectal malformations. *Semin Pediatric Surgery* 4:35-47, 1995
3. Pena A. Advances in anorectal malformations. *Semin Pediatric Surgery* 6:165-169, 1997
4. Rich MA, Brock WA, Pena A Spectrum of genitourinary malformations in patients with imperforate anus. *Pediatric Surgery International* 3: 110- 113, 1998
5. Georgeson K, Inge T, Albanese TC: Laparoscopically assisted Anorectal Pull-Through for High Imperforate Anus-A new technique *Journal of Pediatric Surgery* Vol 35. N° 6 (June), 2000:pp 927-931.
6. Sydorak RM, Albanese CT: Laparoscopic repair of high imperforate anus. *Semin Pediatric Surg.* 2002 Nov; 11 (4): 217-22

Traitement laparoscopique de l'appendicite aiguë chez l'enfant

L'appendicectomie est l'intervention digestive la plus fréquente chez l'enfant, et la morbidité de cette affection est loin d'être négligeable. La cœlioscopie a toute sa place en pédiatrie et il a été prouvé qu'après une appendicectomie cœlioscopique pour appendicite compliquée, les suites étaient moins douloureuses, avec une durée d'hospitalisation moins longue et que la reprise d'activité était plus rapide. Les complications post-opératoires telles que l'abcès de paroi, l'abcès profond et l'occlusion du grêle sont moins fréquentes après cœlioscopie qu'après chirurgie ouverte. Mais en cas d'appendicite aiguë simple, il semble que les différences soient peu significatives entre la voie ouverte et la cœlioscopie, excepté pour la durée d'hospitalisation. Par ailleurs, la technique elle-même connaît des variantes: appendicectomie "in", ou technique "out", avec pour certains un seul trocart ombilical permettant d'extraire l'appendice par l'ombilic et de réaliser l'appendicectomie à l'extérieur de la cavité abdominale. Ce travail a fait l'objet de la publication et de la communication scientifique suivante avec comité de lecture.

- Académie Nationale de Chirurgie, Paris France. 2012

Traitement laparoscopique de l'appendicite aiguë chez l'enfant

Laparoscopic treatment of acute appendicitis in children

F Varlet, M Lopez, F Lardellier-Reynaud

Service de Chirurgie Pédiatrique, CHU Saint-Etienne, France

Mots clés

- ◆ Appendicite
- ◆ Laparoscopie
- ◆ Abscès
- ◆ Occlusion sur bride
- ◆ Enfant

Résumé

Le traitement de l'appendicite aiguë reste discuté et non consensuel, malgré l'apparition de la laparoscopie en 1989 et la présentation de grandes séries pédiatriques, notamment par JS Valla en 1993 devant l'Académie.

Depuis 1990, près de 2 000 appendicectomies ont été pratiquées sous laparoscopie au CHU de Saint Etienne, technique devenue systématique dès 2001 quel que soit le chirurgien ou la forme d'appendicite aiguë.

Des trois techniques dites in, mixte et out, les deux premières ont notre préférence, car formant mieux les internes à la gestuelle laparoscopique chez l'enfant. L'antibiothérapie péri-opératoire est la règle, élargie et prolongée de 8 à 10 j en cas de perforation appendiculaire. Rarement en cas d'abcès, on réalise la séquence drainage-antibiothérapie prolongée-appendicectomie différée. Le taux de conversion est devenu très faible, inférieur à 2 %, de même que celui des complications peropératoires. Seules des péritonites généralisées avec adhérences très inflammatoires imposent une laparotomie, toujours après évaluation sous laparoscopie. La durée de séjour est de 1 à 3 jours.

Les abcès profonds postopératoires ne sont pas plus fréquents qu'après laparotomie ; abcès de paroi et occlusions sur bride ont quasiment disparu.

Pour nous, en 2012, il n'y a plus de place pour le « Mac Burney » qui a rendu d'immenses services pendant un siècle. La supériorité laparoscopique est de mieux voir, mieux explorer, mieux traiter un appendice ectopique, faire un lavage complet si nécessaire et éviter, dans un très grand nombre de cas, les complications pariétales et les occlusions sur bride.

Keywords

- ◆ Appendicitis
- ◆ Laparoscopy
- ◆ Abscess
- ◆ Postoperative bowel obstruction
- ◆ Child

Abstract

The treatment of acute appendicitis remains discussed although the first laparoscopic appendectomy was performed almost 30-years ago and great series was presented at the National Academy of Surgery in 1993 by JS Valla.

Since 1990, we performed about 2000 laparoscopic appendectomies in our department of pediatric surgery, technique become systematic since 2001 for all surgeons and all types of appendicitis.

We used three techniques for appendectomy - in, mixed and out - and we preferred the two first for residents learning. The antibiotics were given during the procedure and prolonged during 10 days in case of perforated appendicitis with three antibiotics. The sequence laparoscopic drainage - antibiotics - interval appendectomy was rarely used, as the nonoperative management of intra-abdominal abscess. The rate of conversion in laparotomy was about 2%, only for a few intra-abdominal abscess or old generalized peritonitis.

For perforated appendicitis, we compared the postoperative complications after laparotomy (91 cases) and laparoscopy (173 cases) between 1995 and 2007 with the same antibiotics: the rate of wound abscess was respectively 7.7% vs. 1.2% ($p < 0.01$) and the rate of intra-abdominal abscess was 5.5% vs. 2.9% (NS). The rate of postoperative bowel obstruction was 9.9% vs. 0.6% ($p < 0.001$). In the literature, the results are the same for wound abscess and postoperative bowel obstruction, and these laparoscopic advantages are now well recognized. For the postoperative intra-abdominal abscesses, this is more discussed and the rate of this complication is very different according to the series. But it is difficult to conclude because the exact treatment is not always known.

For us, the 'McBurney' approach has to be left now, even if this procedure was very useful during one century. The laparoscopic approach is better: the appendix is well seen, the abdominal cavity can be explored and washed entirely, the treatment of an ectopic appendix or peritonitis is easy, without wound enlargement, and wound abscess and postoperative bowel obstruction are significantly diminished.

Si l'appendicectomie reste le traitement de choix de l'appendicite aiguë chez l'enfant, son mode de réalisation est encore discuté, malgré l'apparition de la laparoscopie depuis bientôt 30 ans. En effet les premières appendicectomies sous laparos-

copie datent du début des années 1980 par des gynécologues allemands (1), mais c'est surtout à la fin des années 1980, sous l'impulsion de Philippe Mouret que la chirurgie laparoscopique s'est développée de façon spectaculaire (2), mon-

Correspondance :

Professeur François Varlet, service de chirurgie pédiatrique
Hôpital Nord - CHU, 42055 Saint-Etienne Cedex2
Université Jean Monnet - Saint-Etienne

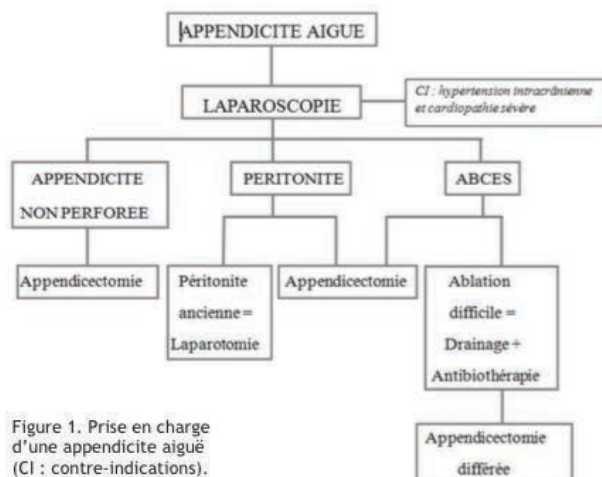


Figure 1. Prise en charge d'une appendicite aiguë (CI : contre-indications).

trant très rapidement les multiples avantages qu'elle procure. La diminution du taux d'occlusions sur bride après laparoscopie fut rapidement mise en avant et a toujours représenté une motivation très importante pour les chirurgiens utilisant cette voie d'abord (3, 4). Au CHU de Saint-Etienne, les premières appendicectomies sous laparoscopie chez l'enfant datent de 1989, et cette voie d'abord nous apparaît très satisfaisante quelle que soit le type d'appendicite aiguë (5-7). Le but de ce travail était de rapporter le mode de prise en charge des appendicites aiguës dans le service de chirurgie pédiatrique du CHU de Saint-Etienne et d'apprécier plus particulièrement les taux de complications après appendicectomie sous laparoscopie chez l'enfant.

Matériel et méthodes

À partir de 1989, l'appendicectomie sous laparoscopie s'est développée progressivement dans le service et, pendant plus de 10 ans, les enfants étaient opérés, selon les opérateurs, soit de façon classique par une incision « de type McBurney » ou par laparotomie médiane, soit sous laparoscopie. Les indications étaient les mêmes, et seule la voie d'abord différait à cette période ; le traitement antibiotique était identique pour tous les enfants, avec une injection intraveineuse peropératoire d'amoxicilline - acide clavulanique (50 mg/kg) ou une triple antibiothérapie intraveineuse associant une céphalosporine de troisième génération, un aminoside et du métronidazole en cas de péritonite ou d'abcès appendiculaire. Dès le début, la laparoscopie fut utilisée à n'importe quelle heure du jour ou de la nuit. Seules une hypertension intracrânienne ou une cardiopathie sévère représentaient une contre-indication à la laparoscopie.

La prise en charge des appendicites aiguës chez l'enfant est résumée dans la figure 1. En présence d'une péritonite aiguë traitée sous laparoscopie, une conversion en laparotomie était possible s'il s'agissait d'une péritonite ancienne très inflammatoire, trop difficile à traiter sous laparoscopie, ce qui était rare. En présence d'un abcès appendiculaire ou d'un plastron, l'exploration sous laparoscopie était systématique également et le traitement complet était effectué par cette voie d'abord le plus souvent ; parfois, si la dissection s'avérait difficile, un simple drainage de l'abcès était effectué et une triple antibiothérapie intraveineuse était prescrite pour 5 jours avec un relais per os 5 jours supplémentaires. L'appendicectomie était effectuée 2 à 3 mois plus tard.

Après réalisation d'une « laparoscopie ouverte » par voie ombilicale (ou *open-calioscopie*), trois techniques d'appendicectomie ont été utilisées :

- la technique « in » avec coagulation du méso-appendice et ligature de la base appendiculaire sous laparoscopie ;

Tableau I. Complications postopératoires après traitement des péritonites et abcès appendiculaires.

| Péritonites et abcès appendiculaires | Laparotomie 91 cas | Laparoscopie 173 cas | x ² |
|--------------------------------------|-----------------------|-------------------------|----------------|
| Abcès de paroi | 7 (7,7 %) | 2 (1,2 %) | p < 0,01 |
| Abcès intrapéritonéaux | 5 (5,5 %) | 5 (2,9 %) | NS |
| Hématome profond | 2 | 0 | NS |
| Occlusion sur bride | 9 (9,9 %) | 1 (0,6 %) | p < 0,001 |
| Epiplocèle | 0 | 1 | NS |
| Eventration | 1 | 0 | NS |

NS : non significatif

- la technique « mixte » avec coagulation du méso sous laparoscopie et ligature de la base appendiculaire en dehors de la cavité abdominale, après extériorisation de l'appendice par l'orifice de trocart iliaque droit ;
- et la technique « out », à l'aide d'une optique décalée avec canal opératoire permettant d'extérioriser l'appendice à l'ombilic pour faire l'appendicectomie en totalité à l'extérieur de la cavité péritonéale.

Compte-tenu de la grande souplesse de la paroi abdominale chez l'enfant, l'introduction des trocarts opératoires était toujours contrôlée soit en pinçant la paroi avec l'autre main pour faire contre-pression, soit en faisant d'emblée, avec une lame de bistouri pointue, un orifice suffisamment large permettant d'introduire le trocart sans forcer. En dehors de la technique « out », la cavité péritonéale était explorée en totalité, en traumatisant au minimum les viscères à mobiliser. Une situation sous-séreuse de l'appendice était facilement repérée et libérée, de même qu'une situation anormale de celui-ci, rétrocaecale, sous-hépatique (vidéo 1), pelvienne (vidéo 2) ou mésocœliaque. Un prélèvement bactériologique était effectué dès que possible. En présence d'un abcès ou d'une péritonite, un lavage de la cavité péritonéale était réalisé avant toute appendicectomie (vidéo 3). Quel que soit le type d'appendicite, le méso-appendice était coagulé à la pince bipolaire pour éviter toute brûlure accidentelle, de l'iléon notamment. L'appendice était extériorisé le plus souvent au travers du trocart iliaque droit ou dans un sac (doigt de gant) ou parfois directement par l'orifice de trocart. Tout coproliithe dans la cavité péritonéale était retiré. Si l'appendice était sain, une autre cause était recherchée : diverticule de Meckel et pathologie gynécologique notamment, mais aussi n'importe quelle autre pathologie visible sous laparoscopie (foie et voies biliaires, adénopathies, grand épiploon, rate, estomac, etc.). Si une autre cause était mise en évidence, l'appendice était laissé en place ; en l'absence de diagnostic précis, certains opérateurs faisaient une appendicectomie systématique alors que d'autres le respectaient devant l'aspect manifestement sain de celui-ci.

Résultats

À ce jour, le nombre d'appendicectomies sous laparoscopie est proche de 2 000. Les enfants étaient âgés de 4 mois à 17 ans, et l'intervention a été effectuée soit par un senior soit par un junior aidé d'un senior.

Depuis la première appendicectomie sous laparoscopie, deux incidents en cours d'intervention sont à déplorer, liés à l'introduction de l'aiguille de Veress en début de procédure, avec une perforation du grêle et un passage trans-mésocolique. Ces deux incidents nous ont amenés à utiliser systématiquement la laparoscopie ouverte depuis 1993, et aucun autre accident n'est survenu jusqu'à maintenant. Nous n'avons jamais eu de plaie vasculaire ni de plaie viscérale liées à l'introduction des trocarts ; nous n'avons aucun décès à déplorer. Alors que nous avons eu une brûlure minime due à l'utilisation du crochet monopolaire en début d'expérience,

Tableau II. Complications infectieuses et littérature.

| Type | Nombre | | Abscès de paroi | | Abscès intrapéritonéaux | |
|-----------------------|--------|--------|-----------------|----------------------|-------------------------|-------|
| | LT | Lscp | LT | Lscp | LT | Lscp |
| Jen 2010 enfants | 63 621 | 32 185 | 7,8 % | 6,6 % $p < 0,02$ | 4,1 % $p < 0,001$ | 5,5 % |
| Ingraham 2010 adultes | 7 714 | 24 969 | 4,9 % | 1,5 % $p < 0,001$ | 4,8 % $p < 0,01$ | 6,3 % |
| Nataraja 2012 enfants | 714 | 491 | | | 3,9 % NS | 3,9 % |

LT : laparotomie ; Lscp : laparoscopie ; NS : non significatif

aucune brûlure des organes de voisinage n'a eu lieu grâce à l'utilisation de la pince bipolaire.

La conversion en laparotomie est inférieure à 2 %.

Le nombre d'abcès de paroi et d'occlusions sur bride a très nettement diminué comme l'illustre la série rétrospective comparative des appendicites compliquées d'abcès ou de péritonite traitées entre 1995 et 2007 (tableau I) : sur 264 enfants, 91 avaient eu une laparotomie et 173 une laparoscopie ; en dehors de la voie d'abord, le traitement chirurgical et l'antibiothérapie étaient les mêmes. Les résultats ont montré une diminution significative du nombre d'abcès de paroi (7,7 % vs. 1,2 %) et des occlusions sur bride (9,9 % vs. 0,6 %) quand l'enfant était traité sous laparoscopie. Le nombre d'abcès profonds intrapéritonéaux a été le même quelle que soit la voie d'abord. Le nombre total de complications postopératoires était également significativement plus élevée par laparotomie.

Discussion

Le traitement chirurgical de l'appendicite aiguë reste toujours de rigueur, et l'heure du traitement médical n'a pas encore sonné chez l'enfant, alors que chez l'adulte certains proposent de traiter l'appendicite aiguë par une antibiothérapie seule dans certaines conditions (8, 9). Il est possible qu'à l'avenir un certain nombre d'appendicites non compliquées pourra être pris en charge médicalement, mais l'imagerie doit encore progresser, car nous avons besoin d'un diagnostic précis et certain avant d'envisager une antibiothérapie comme seul traitement. En effet, les diagnostics différentiels sont très nombreux chez l'enfant, et bon nombre de pathologies médicales ou chirurgicales peuvent simuler une appendicite aiguë. Par ailleurs, les appendicites par obstruction sont très fréquentes chez l'enfant, liées le plus souvent à un coprolithe dans la lumière appendiculaire, calcifié ou non ; parfois il s'agit d'un corps étranger. Dans ces situations, la paroi appendiculaire est rapidement érodée et une perforation se produit, aboutissant à une péritonite aiguë ou à un abcès alors que la symptomatologie n'évoluait que depuis très peu de temps, souvent moins de 24 heures. De même, bon nombre d'appendices sont en situation anormale chez l'enfant avec un aspect de plicature, notamment au niveau de la base, pouvant gêner le drainage correct de la lumière appendiculaire vers le caecum, par exemple en cas d'appendice rétrocaecal ou sous-hépatique. Ces différentes anomalies justifient la réalisation d'une appendicectomie sous peine de voir apparaître des complications. Tant que l'échographie et la tomodensitométrie ne seront pas capables d'évaluer ces différents paramètres, le traitement chirurgical restera indiqué chez l'enfant quelle que soit l'appendicite aiguë. D'autre part, s'il est maintenant établi que l'antibiothérapie peut être une étape de transition avant la chirurgie, personne n'a démontré qu'elle pouvait représenter un traitement définitif de l'appendicite aiguë (10).

La laparoscopie nous paraît être la voie d'abord optimale pour réaliser une appendicectomie, même s'il n'existe toujours pas de consensus (11-14). Elle permet de bien voir les lésions dans

Tableau III. Occlusions sur bride et littérature chez l'enfant.

| Type | Nombre | | Occlusions sur bride | | | |
|--------------|----------|--------|----------------------|----------|-----------------------|----------|
| | LT | Lscp | LT | | Lscp | |
| Appendicite | | | Non perforée | Perforée | Non perforée | Perforée |
| | Jen 2010 | 63 621 | 32 185 | 0,4 % | 2,6 % | 0,5 % |
| Becmeur 2009 | 509 | 1 175 | 3,35 % | 9,78 % | 1,04 % | 1,8 % |
| | | | | 4,51 % | 1,19 % $p < 0,001$ | |

(LT : laparotomie ; Lscp : laparoscopie)

tous les cas, et les viscères avoisinants ne sont pas traumatisés par les instruments de laparoscopie, contrairement à l'extériorisation du caecum et de l'iléon avec une compresse. Quand l'appendice est sous-séreux, il est facile de le mettre en évidence et de le libérer. Quand il est ectopique, on le découvre aisément dans la plupart des cas, sans tirer de manière excessive sur le carrefour iléo-caecal, et il n'est plus nécessaire d'agrandir la voie d'abord pour aller chercher un appendice sous-hépatique, par exemple. Le traitement peut s'effectuer tranquillement, et un quatrième trocart est mis en place pour bien exposer la gouttière pariéto-colique droite si besoin ; il ne faut pas s'en priver, car il donne un confort opératoire évident au prix d'une petite cicatrice de 3 ou 5 mm. En présence d'une péritonite aiguë, la laparoscopie est aussi une excellente voie d'abord et permet d'éviter une laparotomie médiane ou transversale dans la grande majorité des cas. Le bilan des lésions est précis, la cavité péritonéale est lavée de façon complète et sous contrôle de la vue avant d'effectuer l'appendicectomie ; le lavage est renouvelé en fin d'intervention.

La laparoscopie est plus discutée si l'enfant présente un abcès appendiculaire (14-19). Pour notre part, nous débutons toujours l'intervention par la laparoscopie, et si la libération des différents viscères agglutinés peut s'effectuer dans de bonnes conditions, nous faisons comme d'autres l'appendicectomie dans le même temps (15). Certains préfèrent débiter le traitement par une triple antibiothérapie pour diminuer la morbidité liée à la chirurgie et ne réserver l'intervention qu'en cas d'échec du traitement médical (16-19). L'appendicectomie est faite quelques mois plus tard, souvent dans de bonnes conditions, mais certains discutent aujourd'hui son utilité ; compte-tenu des fréquentes anomalies anatomiques chez l'enfant, celle-ci nous semble pourtant indiquée, comme d'autres (16, 17).

Abscès de paroi, abcès intrapéritonéaux et occlusions sur bride sont les complications postopératoires habituelles de ce type de chirurgie, et de nombreux auteurs ont comparé leur risque de survenue selon la voie d'abord. Concernant les complications infectieuses, nous nous sommes intéressés essentiellement à trois séries, deux chez l'enfant et une chez l'adulte (tableau II). La série de Jen correspond à une série rétrospective du traitement de l'appendicite aiguë chez l'enfant en Californie entre 1999 et 2006 (20) : 63 621 enfants ont eu une appendicectomie par laparotomie et 32 185 par laparoscopie ; le nombre d'abcès de paroi est significativement moindre par laparoscopie ($p < 0,02$) alors que le nombre d'abcès intrapéritonéaux est significativement moindre par laparotomie ($p < 0,001$). Chez l'adulte, Ingraham rapporte 7 714 appendicectomies par laparotomie pour 24 969 par laparoscopie avec des résultats identiques (21) : diminution des abcès de paroi par laparoscopie ($p < 0,001$) et augmentation des abcès intrapéritonéaux par laparoscopie ($p < 0,01$). Ceci tend à confirmer les données rapportées par Podevin chez l'enfant (22). À l'inverse, nous rapportons ici des résultats différents pour le risque d'abcès intrapéritonéaux puisque notre taux est plutôt inférieur après laparoscopie, alors que nous avons le même traitement antibiotique dans les deux groupes ; mais notre série n'est pas très importante. Nataraja rapporte un taux

identique d'abcès intrapéritonéaux dans les deux groupes sur une série de 1 205 enfants avec 3,9 % d'abcès par laparotomie ou par laparoscopie (23). Il reste difficile de comparer l'ensemble des données, le traitement chirurgical et médical exact n'étant pas toujours connu dans les articles (protocole opératoire, type et durée de l'antibiothérapie notamment). Concernant le risque d'occlusion sur bride (tableau III), il est significativement moindre dans la série de Jen après appendicectomie sous laparoscopie quand l'appendice était perforé ($p < 0,02$) alors qu'il n'était pas différent quand l'appendice n'était pas perforé (20). À partir d'une série de 1 684 enfants, Becmeur rapporte un taux d'occlusion sur bride significativement moindre après appendicectomie sous laparoscopie ($p < 0,001$), que ce soit pour appendicite aiguë simple ou pour appendicite aiguë perforée (24). Ceci confirme les résultats que nous rapportons ici et bat en brèche les partisans de la laparoscopie uniquement en cas d'appendicite aiguë chez la fille, pour explorer les organes génitaux internes ; rien ne justifie cette attitude, et surtout pas celle de ne pas vouloir diminuer le risque d'occlusion sur bride également chez le garçon.

Conclusion

Si l'appendicectomie chez l'enfant reste impérative en 2012, sa voie d'abord par « McBurney » n'a plus sa place à notre avis, même si elle a rendu d'immenses services depuis plus de un siècle. En effet, la laparoscopie permet de mieux voir ce que l'on fait, d'explorer toute la cavité abdominale et de traiter un appendice ectopique et une péritonite aiguë dans d'excellentes conditions. C'est une voie d'abord sûre et reproductible qui permet également de diminuer significativement le risque d'abcès de paroi et d'occlusion sur bride. Quant au taux d'abcès profonds postopératoires, il semblerait qu'il soit plus important après laparoscopie ; des études randomisées sur de plus grands nombres restent nécessaires pour conclure. Toujours est-il que la plupart de ces abcès sont accessibles à une simple antibiothérapie intraveineuse avec une faible morbidité.

Discussion en séance

Commentaire de F Dubois

Historique : première appendicectomie laparoscopique par K Semm en 1981.

En France : Ph Mouret en 1983.

Commentaire d'Y Laburthe-Tolra

Durant cette séance fondamentale sur l'appendicite, je crois que deux mots n'ont pas été prononcés :

- les douleurs appendiculaires, dont il faudrait souligner l'importance médicale ou chirurgicale ;
- on n'a pas évoqué, ici, le problème du diverticule de Meckel, sa recherche et la thérapeutique en cas de présence.

Références

1. Semm K. Endoscopic appendectomy. *Endoscopy* 1983 ; 15 : 59-64.
2. Mouret P. La chirurgie coelioscopique : évolution ou révolution ? *Chirurgie* 1990 ; 116 : 829-32.
3. Mouret P. De la pérityphlite à l'appendicectomie coelioscopique. Confrontation de réflexions personnelles à l'histoire de l'appendicite. *J Coelio-chir* 1995 ; n° 15 : 4-10.
4. De Wilde RL. Goodbye to late bowel obstruction after appendicectomy. *Lancet* 1991 ; 338 : 1012.
5. Valla JS, Limonne B, Valla V, Montupet P, Daoud N, et al. Laparoscopic appendectomy in children: report of 465 cases. *Surg Laparosc Endosc* 1991 ; 1 : 166-72.
6. Montupet P, Alain JL, Chavrier Y, Limonne B, Valla JS, Varlet F. Appendicites aiguës et péritonites appendiculaires. Traitement coelioscopique. *Chirurgie* 1993 ; 119 : 433-5.
7. Varlet F, Tardieu D, Limonne B, Metafiot H, Chavrier Y. Laparoscopic versus open appendectomy in children: comparative study of 403 cases. *Eur J Pediatr Surg* 1994 ; 4 : 333-7.
8. Vons C. Can acute appendicitis be treated by antibiotics and in what conditions? *J Chir (Paris)* 2009 ; 146 : 17-21.
9. Vons C, Barry C, Maitre S, Pautrat K, Leconte M, et al. Amoxicillin plus clavulanic acid versus appendicectomy for treatment of acute uncomplicated appendicitis: an open-label, non-inferiority, randomized controlled trial. *Lancet* 2011 ; 377 : 1573-9.
10. Fitzmaurice GJ, McWilliams B, Hurreiz H, Epanomeritakis E. Antibiotics versus appendectomy in the management of acute appendicitis: a review of the current evidence. *Can J Surg* 2011 ; 54 : 307-14.
11. Canty TG, Collins D, Losasso B, Lynch F, Brown C. Laparoscopic appendectomy for simple and perforated appendicitis in children: the procedure of choice? *J Pediatr Surg* 2000 ; 35 : 1582-5.
12. Merguerditchian AN, Prasil P, Cloutier R, Leclerc S, Péloquin J, Roy G. Laparoscopic appendectomy in children: a favorable alternative in simple and complicated appendicitis. *J Pediatr Surg* 2002 ; 37 : 695-8.
13. Ikeda H, Ishimaru Y, Takayasu H, Okamura K, Kisaki Y, Fujino J. Laparoscopic versus open appendectomy in children with uncomplicated and complicated appendicitis. *J Pediatr Surg* 2004 ; 39 : 1680-5.
14. Partrick DA. Prospective evaluation of primary laparoscopic approach for children presenting with simple or complicated appendicitis. *Am J Surg* 2006 ; 192 : 750-5.
15. Goh BK, Chui CH, Yap TL, Low Y, Lama TK, et al. Is early laparoscopic appendectomy feasible in children with acute appendicitis presenting with an appendiceal mass? A prospective study. *J Pediatr Surg* 2005 ; 40 : 1134-7.
16. Owen A, Moore O, Marven S, Roberts J. Interval laparoscopic appendectomy in children. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2006 ; 16 : 308-11.
17. St Peter SD, Aguayo P, Fraser JD, Keckler SJ, Sharp SW, et al. Initial laparoscopic appendectomy versus initial nonoperative management and interval appendectomy for perforated appendicitis with abscess: a prospective, randomized trial. *J Pediatr Surg* 2010 ; 45 : 236-40.
18. Clark JJ, Johnson SM. Laparoscopic drainage of intraabdominal abscess after appendectomy: an alternative to laparotomy in cases not amenable to percutaneous drainage. *J Pediatr Surg* 2011 ; 46 : 1385-9.
19. Bonnard A, Grapin-Dagorno C. Traitement médical du plastron et de l'abcès appendiculaire chez l'enfant : une avancée thérapeutique. Présentation orale à l'Académie Nationale de Chirurgie - session du 30 mai 2012. *E-Mem Acad Natl Chir* sous presse.
20. Jen HC, Shew SB. Laparoscopic versus open appendectomy in children: outcomes comparison based on a statewide analysis. *J Surg Research* 2010 ; 161 : 13-17.
21. Ingraham AM, Cohen ME, Bilimoria KY, Pritts TA, Ko CY, Esposito TJ. Comparison of outcomes after laparoscopic versus open appendectomy for acute appendicitis at 222 ACS NSQIP hospitals. *Surg* 2010 ; 148 : 625-37.
22. Podevin G, Barussaud ML, Leclair MD, Heloury Y. Appendicite aiguë compliquée chez l'enfant : laparotomie versus laparoscopie. *Arch Pediatr* 2008 ; 15 : 559-61.
23. Nataraja RM, Teague WJ, Galea J et al. Comparison of intraabdominal abscess formation after laparoscopic and open appendicectomies in children. *J Pediatr Surg* 2012 ; 47 : 317-21.
24. Kaselas C, Molinaro F, Lacreuse I, Becmeur F. Postoperative bowel obstruction after laparoscopic and open appendectomy in children: a 15-year experience. *J Pediatr Surg* 2009 ; 44 : 1581-5.

Commentaires de l'article

Le traitement chirurgical de l'appendicite aiguë reste toujours de rigueur, et l'heure du traitement médical n'a pas encore sonné chez l'enfant, alors que chez l'adulte certains proposent de traiter l'appendicite aiguë par une antibiothérapie seule dans certaines conditions. Il est possible qu'à l'avenir un certain nombre d'appendicites non compliquées pourra être pris en charge médicalement, mais l'imagerie doit encore progresser, car nous avons besoin d'un diagnostic précis et certain avant d'envisager une antibiothérapie comme seul traitement. En effet, les diagnostics différentiels sont très nombreux chez l'enfant, et bon nombre de pathologies médicales ou chirurgicales peuvent simuler une appendicite aiguë. Par ailleurs, les appendicites par obstruction sont très fréquentes chez l'enfant, liées le plus souvent à un coprolithe dans la lumière appendiculaire, calcifié ou non; parfois il s'agit d'un corps étranger. Dans ces situations, la paroi appendiculaire est rapidement érodée et une perforation se produit, aboutissant à une péritonite aiguë ou à un abcès alors que la symptomatologie n'évoluait que depuis très peu de temps, souvent moins de 24 heures. De même, bon nombre d'appendices sont en situation anormale chez l'enfant avec un aspect de plicature, notamment au niveau de la base, pouvant gêner le drainage correct de la lumière appendiculaire vers le caecum, par exemple en cas d'appendice rétrocaecal ou sous-hépatique. Ces différentes anomalies justifient la réalisation d'une appendicectomie sous peine de voir apparaître des complications. Tant que l'échographie et la tomographie ne seront pas capables d'évaluer ces différents paramètres, le traitement chirurgical restera indiqué chez l'enfant quelle que soit l'appendicite aiguë. D'autre part, s'il est maintenant établi que l'antibiothérapie peut être une étape de transition avant la chirurgie, personne n'a démontré qu'elle pouvait représenter un traitement définitif de l'appendicite aiguë.

La laparoscopie nous paraît être la voie d'abord optimale pour réaliser une appendicectomie, même s'il n'existe toujours pas de consensus. Elle permet de bien voir les lésions dans tous les cas, et les viscères avoisinants ne sont pas traumatisés par les instruments de laparoscopie, contrairement à l'extériorisation du caecum et de l'iléon avec une compresse. Quand l'appendice est sous-séreux, il est facile de le mettre en évidence et de le libérer. Quand il est ectopique, on le découvre aisément dans la plupart des cas, sans tirer de manière excessive sur le carrefour iléo-caecal, et il n'est plus nécessaire d'agrandir la voie d'abord pour aller chercher un appendice sous-hépatique, par exemple. Le traitement peut s'effectuer tranquillement, et un quatrième trocart est mis en place pour bien exposer la gouttière pariéto-colique droite si besoin; il ne faut pas s'en priver, car il donne un confort opératoire évident au prix d'une petite cicatrice de 3 ou 5 mm. En présence d'une péritonite aiguë, la laparoscopie est aussi une excellente voie d'abord et permet d'éviter une laparotomie médiane ou transversale dans la grande majorité des cas. Le bilan des lésions est précis, la cavité péritonéale est lavée de façon complète et sous contrôle de la vue avant d'effectuer l'appendicectomie; le lavage est renouvelée en fin d'intervention.

La laparoscopie est plus discutée si l'enfant présente un abcès appendiculaire. Pour notre part, nous débutons toujours l'intervention par la laparoscopie, et si la libération des différents viscères agglutinés peut s'effectuer dans de bonnes conditions, nous faisons comme d'autres l'appendicectomie dans le même temps. Certains préfèrent débiter le traitement par une triple antibiothérapie pour diminuer la morbidité liée à la chirurgie et ne réserver l'intervention qu'en cas d'échec du traitement médical. L'appendicectomie est faite quelques mois plus tard, souvent dans de bonnes conditions, mais certains discutent aujourd'hui son utilité; compte-tenu des fréquentes anomalies anatomiques chez l'enfant, celle-ci nous semble pourtant indiquée, comme d'autres. L'abcès de paroi, abcès

intrapéritonéaux et occlusions sur bride sont les complications postopératoires habituelles de ce type de chirurgie, et de nombreux auteurs ont comparé leur risque de survenue selon la voie d'abord. Concernant les complications infectieuses, nous nous sommes intéressés essentiellement à trois séries, deux chez l'enfant et une chez l'adulte. La série de Jen correspond à une série rétrospective du traitement de l'appendicite aiguë chez l'enfant en Californie entre 1999 et 2006: 63 de 621 enfants ont eu une appendicectomie par laparotomie et 32 185 par laparoscopie; le nombre d'abcès de paroi est significativement moindre par laparoscopie ($p < 0,02$) alors que le nombre d'abcès intrapéritonéaux est significativement moindre par laparotomie ($p < 0,001$). Chez l'adulte, Ingraham rapporte 7 sur 714 appendicectomies par laparotomie pour 24 sur 969 par laparoscopie avec des résultats identiques: diminution des abcès de paroi par laparoscopie ($p < 0,001$) et augmentation des abcès intra- péritonéaux par laparoscopie ($p < 0,01$). Ceci tend à confirmer les données rapportées par Podevin chez l'enfant. À l'inverse, nous rapportons ici des résultats différents pour le risque d'abcès intrapéritonéaux puisque notre taux est plutôt inférieur après laparoscopie, alors que nous avons le même traitement antibiotique dans les deux groupes; mais notre série n'est pas très importante. Nataraja rapporte un taux identique d'abcès intrapéritonéaux dans les deux groupes sur une série de 1 205 enfants avec 3,9 % d'abcès par laparotomie ou par laparoscopie. Il reste difficile de comparer l'ensemble des données, le traitement chirurgical et médical exact n'étant pas toujours connu dans les articles (protocole opératoire, type et durée de l'antibiothérapie notamment). Concernant le risque d'occlusion sur bride (tableau III), il est significativement moindre dans la série de Jen après appendicectomie sous laparoscopie quand l'appendice était perforé ($p < 0,02$) alors qu'il n'était pas différent quand l'appendice n'était pas perforé. À partir d'une série de 1 684 enfants, Becmeur

rapporte un taux d'occlusion sur bride significativement moindre après appendicectomie sous laparoscopie ($p < 0,001$), que ce soit pour appendicite aiguë simple ou pour appendicite aiguë perforée. Ceci confirme les résultats que nous rapportons ici et bat en brèche les partisans de la laparoscopie uniquement en cas d'appendicite aiguë chez la fille, pour explorer les organes génitaux internes; rien ne justifie cette attitude, et surtout pas celle de ne pas vouloir diminuer le risque d'occlusion sur bride également chez le garçon.

Duplications digestives et Coelioscopie

Les duplications du tube digestif, sont des lésions congénitales rares qui peuvent se produire de la bouche à l'anus, avec une incidence estimée de 1/4500. Certaines duplications digestives peuvent être totalement asymptomatiques et leur découverte est fortuite. Cependant, plus des trois quarts deviennent symptomatiques dans les 2 premières années de vie. Le diagnostic anténatal peut conduire à un diagnostic de duplication intestinale chez le nouveau-né. L'indication chirurgicale au début de la période néonatale est préconisée afin d'éviter le risque de morbidité et de mortalité.

Les progrès de la laparoscopie et de la thoracoscopie chez les nourrissons et les nouveau-nés avaient conduit à des publications de courtes séries ou à des « case reports ». Cependant, de grandes séries sont nécessaires afin d'évaluer les résultats de la coelioscopie et le taux de conversion, en particulier chez les nouveau-nés. Notre hypothèse est que le diagnostic prénatal peut influencer le résultat des patients opérés par coelioscopie. Le but de cette étude était d'évaluer le taux de morbidité des patients opérés par thoracoscopie ou laparoscopie et les facteurs qui induisent conversion ou complications, et de comparer les résultats.

Cette étude multicentrique a été faite en collaboration avec le groupe d'étude en Coeliochirurgie Infantile (GECI) et publiée dans « Surgical Endoscopy » en 2012 ; elle a également fait l'objet de communications scientifiques internationales et nationales avec comité de lecture en tant que co-auteur.



Outcome of alimentary tract duplications operated on by minimally invasive surgery: a retrospective multicenter study by the GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile)

Florent Guérin · Guillaume Podevin · Thierry Petit · Manuel Lopez · Pascal de Lagausie · Hubert Lardy · Arnaud Bonnard · François Becmeur · Paul Philippe · Michèle Larroquet · Emmanuel Sapin · Jean Yves Kurzenne · Aurélie le Mandat · Caroline Francois-Fiquet · Jean Gaudin · Ioannis Valioulis · Gérard Morisson-Lacombe · Philippe Montupet · Martine Demarche

Received: 31 January 2011 / Accepted: 19 March 2012 / Published online: 27 April 2012
 © Springer Science+Business Media, LLC 2012

Abstract

Background Alimentary tract duplications (ATD) are a rare cause of intestinal obstruction in childhood. There are many case reports but few series about laparoscopy or thoracoscopy for ATD. The aim of our study was to report the outcome of minimally invasive surgery (MIS) for ATD.

Methods This was a retrospective multicenter study from the GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile). We reviewed the charts of 114 patients operated on by MIS for ATD from 1994 to 2009.

Results Sixty-two patients (54 %) had a prenatal diagnosis. Forty-nine patients (43 %) were symptomatic before surgery: 33 of those patients (63 %) with postnatal diagnosis compared to 16 (25 %) with prenatal diagnosis ($P < 0.01$). In this last group, the median age at onset of symptoms was 16 days (range = 0–972). One hundred and two patients had laparoscopy (esophageal to rectal

This study was conducted on behalf of the GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile). The members of this study group are listed in the appendix.

F. Guérin (✉) · P. Montupet
 Department of Pediatric Surgery, Hôpitaux universitaires Paris-Sud, Bicêtre Hospital, Université Paris XI, 78 avenue du Général Leclerc, 94275 Le Kremlin-Bicêtre Cedex, France
 e-mail: florent.guerin-chir@bct.aphp.fr

A. Bonnard
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital Robert Debré, Université Paris Diderot (Paris VII), 48, boulevard Sérurier, 75935 Paris Cedex 19, France

G. Podevin
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital Mère et Enfant, CHU Nantes, 7, Quai Moncoussu, 44093 Nantes Cedex 1, France

F. Becmeur
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital Hautepierre, 67098 Strasbourg Cedex, France

T. Petit
 Department of Pediatric Surgery, CHU Côte de Nacre, 14033 Caen Cedex, France

P. Philippe
 Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier de Luxembourg, 4, rue Barblé, 1210 Grand Duche de Luxembourg, Luxembourg

M. Lopez
 Department of Pediatric Surgery, CHU Hôpital Nord, 42055 Saint-Etienne Cedex 2, France

M. Larroquet
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital Armand Trousseau, Université Paris VI, 26 avenue du Dr Arnold Netter, 75571 Paris Cedex 12, France

P. de Lagausie
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital La Timone Enfants, 264, rue Saint Pierre, 13385 Marseille Cedex 5, France

E. Sapin
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital d'Enfants, CHU de Dijon, 10 bd Maréchal de Lattre de Tassigny, 21034 Dijon Cedex, France

H. Lardy
 Department of Pediatric Surgery, Hôpital Pédiatrique Gatién de Clocheville, CHRU de Tours, 49, Boulevard Béranger, 37044 Tours Cedex 1, France

duplications) and 12 patients had thoracoscopy for esophageal duplications. The mean operative time was 90 min (range = 82–98). There were 32 (28 %) resection anastomoses, 55 (48 %) enucleations, and 27 (24 %) unroofings. The conversion rate was 32 %, and in a multivariate analysis, it was significantly higher, up to 41 % for patients weighing <10 kg ($P < 0.01$). Ten patients (8 %) had unintentional perioperative opening of the digestive tract during the dissection. Eight patients had nine postoperative complications, including six small bowel obstructions. The median length of hospital stay was 4 days (range = 1–21) without conversion and 6 days (range = 1–27) with conversion ($P = 0.01$). The median follow-up was 3 months (range = 1–120). Eighteen of the 27 patients who underwent partial surgery had an ultrasound examination during follow-up. Five (18 %) of them had macroscopic residue.

Conclusion This study showed that MIS for ATD is feasible with a low rate of complications. Patients with prenatal diagnosis should have prompt surgery to prevent symptoms, despite a high rate of conversion in small infants.

Keywords Gastrointestinal tract · Duplication · Laparoscopy · Thoracoscopy · Prenatal diagnosis

Alimentary tract duplications (ATD) are uncommon congenital lesions that can occur anywhere from the mouth to

J. Y. Kurzenne

Department of Pediatric Surgery, Hôpital Archet 2, CHU de Nice, 151 Route de Ginestière, 06202 Nice Cedex 3, France

A. le Mandat

Department of Pediatric Surgery, Hôpital des Enfants, CHU Purpan, 330 avenue de Grande Bretagne, TSA 70034, 31026 Toulouse Cedex 3, France

C. Francois-Fiquet

Department of Pediatric Surgery, American Memorial Hospital, 47, Rue Cognac Jay, 51092 Reims Cedex, France

J. Gaudin

Department of Pediatric Surgery, CHU de Poitiers Jean Bernard, 2, Rue de la Millitrie, 86021 Poitiers Cedex, France

I. Valioulis

Department of Pediatric Surgery, Hôpital Aghios Loukas, Panorama, Thessalonique, Greece

G. Morisson-Lacombe

Department of Pediatric Surgery, Hôpital Saint Joseph de Marseille, 26, Boulevard de Louvain, 13285 Marseille Cedex 8, France

M. Demarche

Department of Pediatric Surgery, CHR Citadelle, 1, Boulevard XII^e de ligne, 4000 Liege, Belgium

the anus and have a reported incidence of 1 in 4,500 [1]. Some ATD may be totally asymptomatic and discovered only incidentally. However, more than three quarters of ATD give rise to symptoms in the first 2 years of life, presenting as an abdominal mass, symptoms of intestinal obstruction, intussusceptions, or gastrointestinal bleeding [2]. Various malignant transformations in the mucosa of the duplication have been reported in adults [3, 4]. Therefore, complete surgical removal of the duplication is advised, but removal cannot always be radical as in large thoracoabdominal or long tubular duplications.

Prenatal ultrasonography (US) can lead to diagnosis of ATD in asymptomatic neonates. Early surgical correction in the neonatal period is advocated to avoid potential morbidity and mortality but it could increase surgically related morbidity in asymptomatic patients [5].

Advances in laparoscopy and thoracoscopy in small infants and neonates had led to the publication of short case series or reports of ATD treated successfully by minimally invasive surgery (MIS) [6–9]. However, large series assessing conversion rates and outcomes of MIS for ATD are lacking, especially in neonates [5, 7].

Our hypothesis is that prenatal diagnosis can influence the outcome of the patients operated on by MIS for ATD. The aim of this study was to assess the morbidity rate of patients with ATD operated on by thoracoscopy or laparoscopy and the factors that induce conversion or complications, and to compare the outcome of prenatal and postnatal diagnoses of ATD.

Materials and methods

A retrospective multicenter study was conducted by the surgeons of the GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile). We reviewed the operative protocols, pathology reports, and hospitalization charts of children under 18 years of age who were operated on by thoracoscopy or laparoscopy for ATD from January 1994 to December 2009.

Definitions

Alimentary tract duplications were defined in pathology reports as a well-developed coat of smooth muscle, lined with alimentary tract epithelium, and attached to some part of the alimentary tract [10]. We excluded from the study bronchogenic cysts which are lined by respiratory epithelium and cartilage in the cyst wall. The prenatal diagnosis group comprised patients with a cystic intra-abdominal or intrathoracic formation discovered during prenatal US and for which postnatal diagnosis was an ATD. Symptomatic patients were defined by the appearance of symptoms

before surgery. Emergency surgery was defined by the need to perform surgery in symptomatic patients at admission or the day after a unplanned admission.

We defined three groups according to the procedures:

- *Full MIS group* patients with intracorporeal dissection and resection of the ATD, with extraction through a trocar site after the dissection had been completed.
- *Assisted MIS group* patients in which one trocar site had to be enlarged to extract the ATD in order to complete the dissection or resection extracorporeally, without an additional laparotomy.
- *Conversion group* patients for whom there was a need to perform an additional laparotomy or thoracotomy to complete the procedure.

The resection was complete if the duplication was removed either by resection anastomosis or total mucosal enucleation. The resection was incomplete if the duplication was unroofed, with or without mucosal coagulation.

For statistical comparisons of ATD location, we made two groups: small bowel (jejunum, ileum, ileocecal valve) versus other locations (esophagus, stomach, duodenum, colon, and rectum).

Variables of interest

We assessed demographic data, conversion rate, perioperative complications, type of resection (complete versus incomplete), peri- and postoperative complications, and residues at last follow-up.

Statistics

Qualitative data were reported as numbers (and percentages). Quantitative data with normal distribution were reported as means with confidence intervals and comparisons were performed with parametric tests (ANOVA, χ^2). Quantitative data without a normal distribution were reported as medians with extremes and comparisons were made with the Mann–Whitney test. For multivariate analyses we used the logistic regression test. Results with $P < 0.05$ were considered significant.

Results

Demographic data

Demographic data are summarized in Table 1 and the numbers of patients treated per center are displayed in Fig. 1. In seventy patients (61 %) the ATD was localized in the small bowel (Table 2). Twenty patients (17.5 %) had comorbidities, and among them 7 (6 %) had urologic anomalies and 2 (1.7 %) had vertebral anomalies.

Table 1 Demographic data

| | |
|------------------------------|---------------------|
| No. patients | 114 |
| No. centers | 18 |
| Median No. patients/center | 5 (1–23) |
| No. operating surgeons | 34 |
| Sex ratio (M/F) | 51/63 |
| Median term at birth (weeks) | 39 (30–42) |
| Median weight at birth (g) | 3,200 (1,065–4,500) |

Ranges are in parentheses

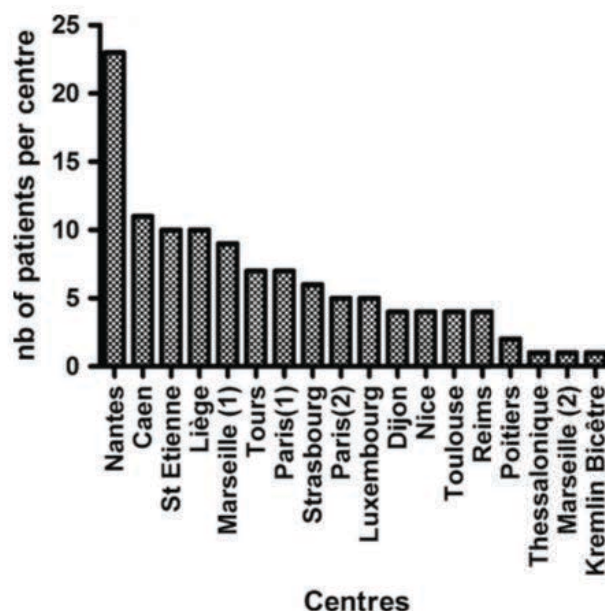


Fig. 1 Number of patients with alimentary tract duplication operated on by minimally invasive surgery per center from 1994 to 2009. Paris (1): Robert Debré Hospital, Paris; Paris (2): Trousseau Hospital, Paris; Marseille (1): La Timone Hospital, Marseille; Marseille (2): St. Joseph Hospital, Marseille

Prenatal diagnosis

Sixty-two patients (54 %) had a cystic image detected prenatally by ultrasound (US), including 40 in the second trimester of pregnancy. Duplication was mentioned as a diagnosis in 40 cases. The mean diameter of the duplication increased, not significantly, from 16 mm (range = 13–19) in the second trimester to 19 mm (range = 15–23) in the third trimester of pregnancy ($P = 0.3$).

Postnatal events

The main symptoms of ATD consisted of emesis/occlusion for 16 patients (34 %) and pain for 16 patients (34 %) (Table 2). Among patients with emesis/occlusion, one had intussusception and another had a volvulus (both for small

Table 2 Number of alimentary tract duplications, proportion of symptomatic patients, and emergency surgeries according to location

| | Total | Type of symptoms (No. patients) | Emergency surgery (No. patients) |
|---------------|-------|--|---|
| Esophagus | 16 | Dyspnea/cough (4) GERD/dysphagia (2) Fever, pain (1) Pain (1) | Respiratory distress (1) |
| Stomach | 14 | Pain (1) | Pain (1) |
| Duodenum | 7 | Occlusion/emesis (3) | Occlusion (3) |
| Jejunum-Ileum | 47 | Occlusion/emesis (6) Pain (10) Abdominal mass (5) | Occlusion (6) Pain (4) Increase in size (4) Abdominal trauma (1) |
| Ileocecal | 23 | Occlusion/emesis (6) Pain (3) Abdominal mass (1) | Occlusion (5) |
| Appendix | 2 | Fever, pain (1) Abdominal mass (1) | Suspicion of appendicitis (2) |
| Colon | 4 | Pain (2) Occlusion (1) | Pain (1) Occlusion (1) |
| Rectum | 1 | Constipation (1) | |
| Total | 114 | 49 | 29 |

Table 3 Differences between pre- and postnatal diagnosis groups

| | Prenatal (<i>n</i> = 62) | Postnatal (<i>n</i> = 52) | <i>P</i> |
|---|---------------------------|----------------------------|----------|
| Symptoms | 16 | 33 | <0.01 |
| Median age at symptoms (days) | 16 (0–972) | 1268 (0–3,202) | <0.01 |
| Median age at diagnosis | NR | 29 (0–157) | |
| Mean diameter of the duplications at diagnosis (mm) | 30 (24–36) | 35 (28–42) | 0.3 |
| Small bowel duplication | 27 | 20 | 0.7 |
| Median age at surgery (days) | 102 (1–1,356) | 1041 (6–4,872) | <0.01 |
| Mean weight at surgery (kg) | 6.4 (6–6.8) | 16.8 (13.5–20.1) | <0.01 |
| Mean diameter of the duplication at surgery (mm) | 34 (26–42) | 38 (31–45) | 0.5 |
| Emergency surgery (No) | 12 | 17 | 0.1 |

NR not relevant

Ranges are in parentheses

bowel duplication). For the others, the cause was presumably lumen obstruction by the duplication. Differences between prenatal and postnatal groups are summarized in Table 3.

For patients with occlusion, the diameter of the duplication was the same as for patients without occlusion ($P = 0.8$). The preoperative imaging workup was made by US in 74 cases, CT scan in 25 cases, contrast studies in 9 cases, and MRI in 7 cases. ATD was mentioned as a preoperative diagnosis in 101 cases (88.5 %). The mean diameter of the duplication increased significantly from 32 mm at diagnosis to 36 mm (range = 30–42) before surgery ($P = 0.01$). Twenty-nine patients (25 %) underwent emergency surgery (Table 2). The mean diameter of the duplication was 46 mm (range = 36–56) in the emergency surgery cases versus 33 mm (range = 25–39) in

nonemergency surgery cases ($P = 0.04$). In a multivariate analysis comprising post/prenatal group, age at surgery (<1 year versus others), duplication size, and location (small bowel vs. others), only the postnatal diagnosis group was significantly associated with the risk of being symptomatic before surgery ($P < 0.01$).

Surgery

There were 102 laparoscopies and 12 thorascopies (7 right, 5 left). All the duplications, except one, were cystic. The two patients with multiple duplications were counted once because only one of the surgeries was performed by MIS. There were two thoracoabdominal duplications: one operated on by thoracoscopy for the thoracic component (the patient had had an earlier laparotomy for the abdominal

Table 4 Number and type of full, assisted, or converted MIS according to the location of the duplication

| | Full MIS | Assisted MIS | Conversion |
|---------------|-----------|--------------|------------|
| Esophagus | 13 | 0 | 3 |
| Stomach | 12 | 1 | 1 |
| Duodenum | 4 | 0 | 3 |
| Jejunum/ileum | 7 | 23 | 17 |
| Ileocecal | 7 | 5 | 11 |
| Appendix | 2 | 0 | 0 |
| Colon | 3 | 0 | 1 |
| Rectum | 1 | 0 | 0 |
| Total | 49 (43 %) | 29 (25 %) | 36 (32 %) |

Table 5 Conversion rates according to the presence of prenatal diagnosis, age, weight, emergency surgery, and location

| | Conversion rates | | <i>P</i> |
|---------------------|------------------|--------|--------------------|
| | Yes (%) | No (%) | |
| Prenatal diagnosis | 42 | 20 | <0.01 |
| Age < 1 year | 40 | 19 | <0.01 |
| Weight < 10 kg | 41 | 8 | <0.01 multivariate |
| Emergency surgery | 48 | 26 | 0.04 |
| Small bowel/ileocec | 40 | 18 | 0.02 |

Only the weight was considered significant in multivariate analysis

component) and the other operated on entirely by laparoscopy. Two patients underwent perioperative endoscopy to facilitate the dissection of their duplication (colon and esophagus). The mean operative time was 90 min (range = 82–98) and did not differ statistically between thoracoscopy and laparoscopy ($P = 0.8$). Thirty-six patients (32 %) had conversion to an open procedure. The rates of conversion according to the location of the duplication are listed in Table 4. The factors affecting the conversion rate are listed in Table 5. In a multivariate analysis, only weight less than 10 kg was considered significant for a higher risk of conversion ($P < 0.01$). The reasons for conversion found in the operative charts are listed in Table 6. Among the 12 patients in whom dissection from the alimentary tract was considered difficult, 5 achieved successful enucleation rather

Table 6 Number and reasons for conversion found in operative charts

| | |
|--|----|
| Difficulty separating the duplication from the digestive tract | 12 |
| Duplication hardly visible by MIS | 8 |
| Need for intestinal resection | 7 |
| Easier by an inguinal or Pfannenstiel incision | 3 |
| Dilation of the small bowel | 2 |
| Duplication size | 2 |
| Need for adhesiolysis | 1 |
| Esophageal perforation (before the procedure) | 1 |

Table 7 Rate of radical surgery according to the location of the duplication

| | Resection anastomosis | Enucleation | Unroofing |
|---------------|-----------------------|-------------|-----------|
| Esophagus | 0 | 13 | 3 |
| Stomach | 0 | 9 | 5 |
| Duodenum | 0 | 2 | 5 |
| Jejunum/ileum | 26 | 19 | 2 |
| Ileocecal | 3 | 10 | 10 |
| Appendix | 2 | 0 | 0 |
| Colon | 1 | 1 | 2 |
| Rectum | 0 | 1 | 0 |
| Total | 32 (28 %) | 55 (48 %) | 27 (24 %) |

than resection anastomosis or unroofing after conversion. The size of the duplication did not statistically affect the rate of conversion ($P = 0.1$). Twenty-nine patients (25 %) had an assisted MIS. All but one (stomach) were for small bowel duplications. Among them, four patients had a laparoscopic emptying of the duplication to facilitate the extraction through the umbilical trocar site. Eighty-seven patients (76 %) underwent radical surgery: 32 resection anastomoses and 55 enucleations. Among the 27 patients (23 %) with partial surgery, 18 had coagulation of the remaining mucosa, and for the other 9 patients the mucosa was left in place.

The rate of radical surgery was 83 % if the duplication was in the small bowel compared to 66 % for other locations ($P = 0.04$) (Table 7). Radical surgery of the duplication was achieved in 83 % of the 36 patients with a conversion and in 73 % of the 78 patients without conversion ($P = 0.1$).

Outcome

The peri- and postoperative complications are displayed in Table 8. Eight patients (7 %) had nine postoperative

Table 8 Outcome, type, and number of patients with peri- and postoperative complications

| | |
|--|------------------|
| Perioperative | |
| Unintentional opening of digestive tract | 10 |
| Before conversion | 5 |
| After conversion | 5 |
| Postoperative < 30 days | |
| Occlusion | 5 ^a |
| Trocar cellulitis | 1 (colonic) |
| Chylothorax | 1 (thoracoscopy) |
| Gastroparesis | 1 |
| Late complications: 2 months (30 days–4 years) | |
| Small bowel obstruction managed conservatively | 4 |

^a One patient had a surgical band adhesiolysis

Table 9 Patients with small bowel adhesions, according to the type of surgery, type of resection, and the perioperative events

| Location | Opening digestive tract | Type of MIS | Type of resection | Need for adhesiolysis |
|-----------|-------------------------|--------------------------------|-----------------------|-----------------------|
| Esophagus | No | Full Previous laparotomy | Enucleation | No |
| Duodenum | Yes | Full | Unroofing | No |
| Ileum | No | Assisted | Enucleation | Yes |
| Ileum | No | Conversion | Resection/anastomosis | No |
| Ileum | No | Conversion | Enucleation | No |

Table 10 Presence of ectopic mucosa according to the location of the duplication

| Location | Ectopic mucosa | No ectopic mucosa |
|-------------|---------------------|-------------------|
| Esophagus | 3 ^a | 13 |
| Stomach | 0 | 14 |
| Duodenum | 3 | 4 |
| Small bowel | 26 ^{a,b,c} | 21 |
| Ileocecal | 15 | 8 |
| Appendix | 0 | 2 |
| Colon | 0 | 4 |
| Rectum | 0 | 1 |

^a One small bowel and one esophageal duplication had respiratory ectopic mucosa

^b One small bowel ATD had pancreatic ectopic mucosa

^c One small bowel ATD had colonic ectopic mucosa

complications, which are listed in Tables 8 and 9. The rate of complications did not statistically differ according to the presence of a conversion, complete resection of the duplication, age at surgery, and emergency ($P > 0.1$). Only one small bowel obstruction occurred after a full MIS. The rates of preoperative and postoperative adverse events were not different between thoracoscopic procedures (25 %) and laparoscopic procedures (14 %) ($P = 0.4$). The median length of hospital stay was 3 days (range = 1–21) for those without conversion compared to 6 days (range = 1–27) for those who had conversion ($P < 0.01$) and was not different between thoracoscopy and laparoscopy patients ($P = 0.4$).

Pathology

An ectopic mucosa was found in 47 cases (41 %) of pathologic resection specimens. The rate of ectopic mucosa according to the location of the duplication is listed in Table 10. Ectopic mucosa was found in 9 of the 27 patients (33 %) with partial resection and in 38 of the 87 patients (46 %) with complete resection ($P = 0.5$).

Follow-up

Fifteen patients (13 %) were lost to follow-up. The median follow-up was 3 months (range = 1–120). Thirty-seven

patients (32 %) had an US during follow-up. Eighteen of the 27 patients (66 %) who underwent partial surgery had an US during follow-up. Five of them (18 %) had a residue of 15 mm (range = 10–25) and two had ectopic mucosa.

Discussion

This study showed that MIS for ATD is feasible and safe with a low rate of adverse events. This is, to date, the largest published study about MIS for ATD. In our study, only one of our centers had more than 12 patients in 15 years (Fig. 1), which explains why reports on large series of MIS for ATD is scarce [5, 7–9, 11]. The latest two-center large study of 73 patients with ATD was published in 2003, but none of the patients underwent a minimally invasive procedure [11]. In our study, the distribution of the ATDs along the digestive tract is comparable to already published series of ATD [2, 11], showing that the location of the ATD did not influence the choice of MIS over open surgery. Although thoracoscopy obviously differs from laparoscopy, with specific adverse events (e.g., chylothorax), we wanted to include the outcome of thoracoscopy for thoracic esophageal duplications as part of MIS. Moreover, mean operative time, length of hospital stay, and the number of adverse events in the cases of thoracoscopy were not different from those of laparoscopy, and thoracoscopic resection results in a shorter hospital stay than thoracotomy as previously found by other studies [8, 12]. In our study, the rate of prenatally detected cases was higher than that in published series, and our study is the first that tries to address both the symptoms and the outcome in this group of patients [2, 7, 11–12]. Prenatal ultrasonographic features of ATD have been identified to improve diagnostic accuracy. These include intra-abdominal or intrathoracic cystic mass detected in the second trimester of gestation (unlike ovarian cysts, which appear at the third trimester), with a hyperechoic mucosa surrounded by hypoechoic muscular layers, and the presence of debris within the lesion [7] (Fig. 2).

In our study, the prenatal diagnosis group had significantly fewer symptoms than the postnatal group. This



Fig. 2 Gastric duplication in a fetus, at 26 weeks of gestational age, presenting as a cystic mass adjacent to the stomach (S), with hyperechoic mucosa surrounded by hypoechoic muscular layer (*white arrow*)

shows that the ability to accurately diagnose ATD prenatally has provided an opportunity to treat these lesions before they produce symptoms or complications. On the other hand, one quarter of prenatally detected patients had symptoms before surgery, which occurred from birth to almost 3 years after prenatal detection. Moreover, half of symptomatic patients in the prenatal group had symptoms before 1 month of age. In our series, the median age at surgery for the prenatal group was almost 3 months. In a recent series published by Laje et al. [7], although the rate of symptomatic patients was the same as ours, the age at surgery was 1 month. Moreover, the number of emergency surgeries was the same in the prenatal group as in the postnatal group, which shows that the benefit of prenatal diagnosis can be lost by waiting too long before operating on asymptomatic patients. An interesting finding not found in other series with prenatal diagnosis [5, 7, 12] is that the duplication sizes in prenatal and postnatal groups were the same. This may be attributed to a faster growth pattern in the prenatal group, which is why, despite generalized and systematic prenatal ultrasound in France and Western Europe, some duplications are detected prenatally and others later in infancy. The fast growth in the prenatal group could explain why the emergency rate is the same in the prenatal and postnatal groups in a multivariate analysis. Moreover, a 3-cm-diameter duplication may lead to occlusions more often in neonates than in older children. All these results and hypotheses indicate that there was no benefit to waiting longer than 1 month before surgery for prenatally detected patients.

This study is the first one to report and analyze the rate of conversion in MIS for ATD. The rate of conversion was significantly higher among patients who weighed less than

10 kg and was not reported in other studies about ATD [7, 8, 11]. This is in contrast with other publications that show that complex endoscopic procedures in small neonates are safe and feasible [6, 13]. The high rate of conversion in small infants could reflect the lack of working space to clearly identify or dissect the duplication from the normal alimentary tract. Moreover, in small infants or neonates, there is the opportunity to perform a small and more cosmetic incision by laparotomy. Other factors of conversion included emergency surgery and location of the ATD in the small bowel but they were not significant in multivariate analysis (Table 5). Hence, 42 % of patients with prenatal diagnosis underwent conversion to an open procedure, although they had an earlier diagnosis and they were less symptomatic than postnatal diagnosis patients. However, we still believe that MIS should be attempted first in this subgroup, because almost two thirds of these patients could benefit from the advantages of MIS (less postoperative bowel obstruction, pain, and scarring) over open procedures. These statements should be confirmed by prospective studies comparing MIS with open surgery for ATD. Moreover, in our series, conversion did not provide a higher rate of complete resection and the length of hospital stay was longer than in assisted or full MIS patients.

Although this study showed some variation in surgical technique used to treat ATD (use of endoscopy to dissect the duplication, or emptying the duplication first to facilitate its extraction), almost all centers used assisted MIS for small bowel duplication (Table 4). In this location, assisted MIS was preferred because small bowel can be easily extracted through an umbilical or a trocar incision, whereas it is not possible when the ATD is located in the nonmobile alimentary tract (esophageal or duodenal duplications). Thus, assisted MIS for small bowel duplication could be a good alternative if complete resection is not possible by full MIS (Fig. 3).

Partial resections can be justified for duodenal or esophageal ATD in order to decrease the morbidity of a complete resection (Table 7). Moreover, ectopic mucosa is rarely found in these locations (Table 10). Conversely, given the high rate of ectopic mucosa in small bowel duplications, partial resection in these locations is not recommended. A good alternative could be a resection anastomosis or total enucleation through assisted MIS. Complete resection rates were not different between conversions and full or assisted MIS. This result tends to show that the choice of MIS over an open procedure might not affect the rate of complete resection. Perioperative complications were minor: only one opening of the digestive tract could have led to a further small bowel adhesion. For the other five patients with postoperative small bowel adhesions, we could implicate either assisted MIS or conversion (Table 9) and most of the patients were treated without additional surgery.



Fig. 3 Laparoscopic view of asymptomatic and uncomplicated ileal duplication in an 11-month-old boy, who had to be treated by an assisted laparoscopy to complete enucleation

The rate and distribution of ectopic mucosa are consistent with those of other series of ATD [2, 5]. The high rate of ectopic mucosa in small bowel duplications reinforces the need to resect completely the mucosa in these locations. If total resection is not possible without morbidity (long tubular duplications, thoracoabdominal, esophageal, or duodenal ATD), sequential US follow-up of incomplete resection is mandatory because of the risk of malignancy in adulthood. In our study, 23 % of our patients had incomplete resection, and among them one third had ectopic mucosa. Only two thirds of patients with incomplete resection had imaging during their follow-up, which was inadequate. For 18 % of patients who had an US evaluation, macroscopic residue was present and required a close follow-up given the risk of malignancy in adulthood.

This study is the largest attempt to focus on MIS for ATD, and it provides reliable conversion rates and addresses the outcome of prenatally diagnosed patients with ATD. Although this study is retrospective, it shows that MIS can be the preferred approach for ATD because of low morbidity and a short length of hospital stay. Surgeons and parents should be aware that the risk of conversion is higher in small infants or neonates. Whenever it is possible, and especially for small bowel duplication, resection should be complete; therefore, assisted MIS offers a good alternative in this location.

Acknowledgments The authors thank Dr. Jacques Guitard, Mrs. Aurore Thollot, Dr. Patrice Ericum, and Pr. François Varlet for their assistance in collecting the data, and Ms. Eichner-Raja for revising the manuscript.

Disclosures Florent Guerin, Guillaume Podevin, Thierry Petit, Manuel Lopez, Pascal Delagausie, Hubert Lardy, Arnaud Bonnard, François Becmeur, Paul Philippe, Michelle Larroquet, Emmanuel Sapin, Jean Yves Kurzenne, Aurélie le Mandat, Caroline Francois-Fiquet, Jean Gaudin, Ioannis Valioulis, Gerard Morisson-Lacombe,

Philippe Montupet, Martine Demarche for the GECEI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile) have no conflicts of interest or financial ties to disclose.

Appendix: GECEI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile)

Florent Guerin, Guillaume Podevin, Thierry Petit, Manuel Lopez, Pascal de Lagausie, , Hubert Lardy, Arnaud Bonnard, François Becmeur, Paul Philippe, Michèle Larroquet, Emmanuel Sapin, Jean Yves Kurzenne, , Aurélie le Mandat, Caroline Francois-Fiquet, Jean Gaudin, Ioannis Valioulis, Gérard Morisson-Lacombe, Philippe Montupet, Martine Demarche.

References

- Schalamon J, Schlee J, Hollwarth ME (2000) Experience with gastro-intestinal duplications in childhood. *Langenbecks Arch Surg* 385:402–405
- Shew S (2005) Duplications of the digestive tract. In: Ashcraft KW, Holcomb GW, Murphy JP (eds) *Pediatric surgery*. WB Saunders, Philadelphia, pp 543–552
- Kim TH, Kim JK, Jang EH, Lee JH, Kim YB (2010) Papillary adenocarcinoma arising in a tubular duplication of the jejunum. *Br J Radiol* 83:e61–e64
- Kusunoki N, Shimada Y, Fukumoto S, Watani Y, Ohshima T, Arai E, Miyazaki N, Maeda S (2003) Adenocarcinoma arising in a tubular duplication of the jejunum. *J Gastroenterol* 38:781–785
- Foley PT, Sithasanan N, McEwing R, Lipsett J, Ford WD, Furness M (2003) Enteric duplications presenting as antenatally detected abdominal cysts: is delayed resection appropriate? *J Pediatr Surg* 38:1810–1813
- Kalfa N, Allal H, Raux O, Lardy H, Varlet F, Reinberg O, Podevin G, Heloury Y, Becmeur F, Talon I, Harper L, Vergnes P, Forgues D, Lopez M, Guibal MP, Galifer RB (2007) Multicentric assessment of the safety of neonatal video surgery. *Surg Endosc* 21:303–308
- Laje P, Flake AW, Adzick NS (2010) Prenatal diagnosis and postnatal resection of intraabdominal enteric duplications. *J Pediatr Surg* 45:1554–1558
- Merry C, Spurbek W, Lobe TE (1999) Resection of foregut-derived duplications by minimal-access surgery. *Pediatr Surg Int* 15:224–226
- Michel JL, Revillon Y, Montupet P, Sauvat F, Sarnacki S, Sayegh N, Fekete C (1998) Thoracoscopic treatment of mediastinal cysts in children. *J Pediatr Surg* 33:1745–1748
- Gross RE, Holcomb GW Jr, Farber S (1952) Duplications of the alimentary tract. *Pediatrics* 9:448–468
- Puligandla PS, Nguyen LT, St-Vil D, Flageole H, Bensoussan AL, Nguyen VH, Laberge JM (2003) Gastrointestinal duplications. *J Pediatr Surg* 38:740–744
- Bratu I, Laberge JM, Flageole H, Bouchard S (2005) Foregut duplications: is there an advantage to thoracoscopic resection? *J Pediatr Surg* 40:138–145
- Ponsky TA, Rothenberg SS (2008) Minimally invasive surgery in infants less than 5 kg: experience of 649 cases. *Surg Endosc* 22:2214–2219

Commentaires de l'article

Cette étude a montré que le traitement des duplications digestives par coelioscopie est faisable et sûr, avec un taux de complications très faible. Celle-ci est à ce jour la plus grande série publiée.

Dans notre étude, le taux de diagnostic avant la naissance était plus élevé que dans les séries publiées. Les caractéristiques échographiques en antenatal ont été identifiées pour améliorer la précision du diagnostic et la prise en charge post-natale. Le groupe avec diagnostic anténatal avait significativement moins de symptômes que le groupe postnatal, montrant que le diagnostic anténatal permettait une prise en charge évitant les symptômes et/ou les complications. Dans notre série, l'âge médian à la chirurgie pour le groupe prénatal était de 3 mois. Dans une série récente publiée par Laje, bien que le taux de patients symptomatiques était le même que le nôtre, l'âge lors de la chirurgie était de 1 mois (1). Cette étude analysait également le taux de conversion de la chirurgie mini-invasive dans les duplications digestives, significativement plus élevée chez les patients pesant moins de 10 kg. La chirurgie d'urgence et la localisation de la duplication représentaient d'autres facteurs de conversion, mais n'étaient pas significatifs dans l'analyse multivariée. Au total, 42% des patients avec diagnostic anténatal ont subi une conversion.

La résection-anastomose est le traitement habituel, mais les résections partielles peuvent être justifiées pour des duplications duodénales ou de l'oesophage, afin de diminuer la morbidité d'une résection complète. Si la résection totale n'est pas possible (duplications tubulaires ou thoraco-abdominales, duplication de l'oesophage ou duodénale, duplication sur la valvule iléo-caecale), un suivi est obligatoire en raison du risque de malignité à l'âge adulte. Dans notre étude, 23% de nos patients ont eu une résection incomplète, et parmi eux un tiers avait une

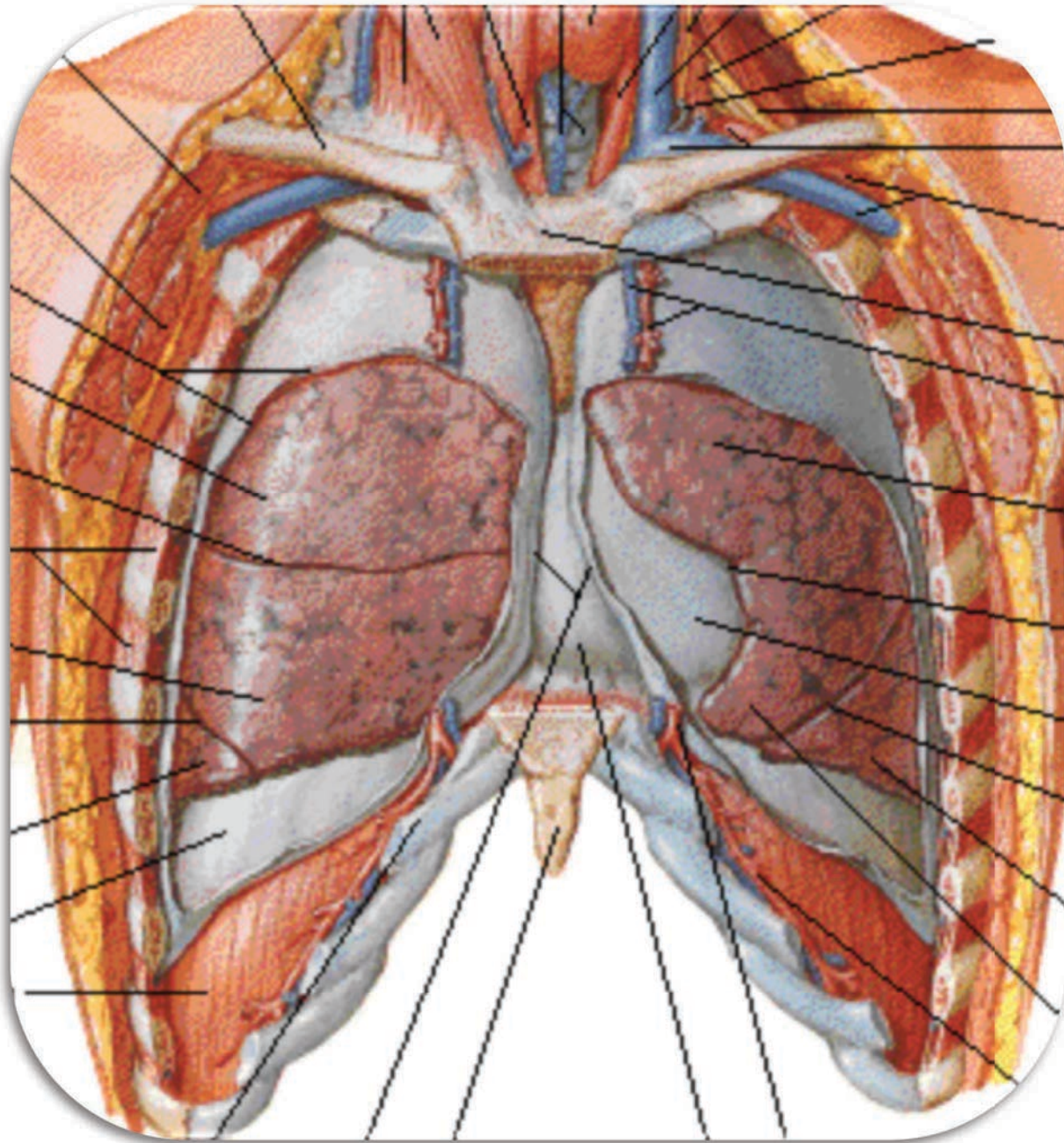
muqueuse ectopique. Seuls deux tiers des patients avaient eu une résection incomplète.

En conclusion, cette étude représente la plus grande série publiée dans la cure cœlioscopique des duplications digestives. Il démontre que le taux de conversion est faible chez les enfants qui ont eu un diagnostic anténatal. Bien que cette étude soit rétrospective, elle montre que la cœlioscopie est l'approche à choisir pour traiter les duplications digestives, en raison de la faible morbidité et d'un séjour à l'hôpital très court, en plus des bénéfices de la cœlioscopie.

Références

1. Laje P, Flake AW, Adzick NS (2010) Prenatal diagnosis and postnatal resection of intraabdominal enteric duplications. *J Pediatr Surg* 45:1554–1558

Chirurgie Thoracique



Pleuro-pneumopathie & Thoracoscopie

La plupart des enfants avec pneumonies communautaires répondent aux antibiotiques. Cependant, des complications pulmonaires peuvent se développer : pleuro-pneumopathies purulentes, abcès du poumon, pneumatocele, fistule broncho-pulmonaire et nécrose cavitaires. La gangrène pulmonaire est l'une des complications les plus rares et les plus graves de la pneumonie bactérienne. Un traitement retardé, une antibiothérapie inadaptée, une pneumonie aspirative, ainsi que la présence de bactéries anaérobies ont été décrits comme les conditions favorables pour développer cette pathologie. Les approches thérapeutiques vont d'un traitement médical conservateur à la chirurgie radicale. En raison de la faible incidence de cette complication et quelques bons résultats rapportés de chaque technique, aucun traitement définitif de pneumonie nécrosante chez les nourrissons n'a encore été établi. Le but de cette étude a été de proposer et d'évaluer l'approche thoracoscopique comme un traitement intermédiaire de choix pour cette pathologie.

Aucun consensus clair n'existe concernant la stratégie thérapeutique optimale à adopter pour une pleurésie purulente. Les options incluent des fibrinolytiques intra-pleuraux, la thoracoscopie ou la thoracotomie. Les enfants sont traités différemment selon leur tableau clinique. La thoracoscopie a montré récemment des avantages de morbidité minimale et une récupération plus courte. Mais les facteurs pronostiques précis de la pleurésie purulente traités par cette technique sont toujours discutables. Une meilleure définition était donc nécessaire à la fois pour servir de base pour le choix thérapeutique et pour prédire la progression de la maladie en post-opératoire. Le but d'une deuxième étude était d'identifier les facteurs pronostiques cliniques, bactériologiques, radiologiques préopératoires,

d'apprécier les résultats de la thoracoscopie et de comparer les résultats en fonction du moment du traitement chirurgical.

Ces deux travaux ont été publiés dans le *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical techniques* en 2005 et *Journal of Pediatric Surgery* en 2006, Ils ont fait l'objet de communications scientifiques internationales et nationales avec comité de lecture entant que co-auteur.

An Early Thoracoscopic Approach in Necrotizing Pneumonia in Children: A Report of Three Cases

NICOLAS KALFA, MD,¹ HOSSEIN ALLAL, MD,¹ MANUEL LOPEZ, MD,¹
 FRANÇOIS COUNIL, MD,² DOMINIQUE FORGUES, MD,¹
 MARIE-PIERRE GUIBAL, MD,¹ and RENÉ-BENOÎT GALIFER, MD, PhD¹

ABSTRACT

Introduction: Cavitory necrosis remains a rare complication of bacterial pneumonia in children. Conservative medical treatment and radical surgical treatment with lung resection are the current therapeutic choices. Evaluation of thoracoscopy for this pathology has not yet been reported. We describe 3 cases.

Materials and Methods: Between January 2001 and January 2002, 3 children (1, 2, and 3 years old) were admitted to our institution with necrotizing pneumonia. The diagnosis was based on injected computed tomography (CT) scan showing pulmonary condensation, intra-parenchymal bullae, and hypovascularization. In addition to an adapted antibiotic therapy, a thoracoscopic approach was decided on within 24 hours of diagnosis, with extensive decortication, ablation of superficial necrotic debris, irrigation, and drainage.

Results: No conversion to open thoracotomy or lung resection was needed. Admission to the intensive care unit was unnecessary. On average, apyrexia was reached on postoperative day (POD) 2 and tube drainage was removed on POD 15. Mean follow-up at 16 months showed excellent lung re-expansion with no relapse.

Conclusion: On the condition that the decision is made quickly, thoracoscopy may be a valuable treatment option in childhood necrotizing pneumonia, as it hastens recovery and avoids lung resection. Injected CT scan allows an early diagnosis and we propose the first 24 hours after diagnosis as the optimal period for thoracoscopy because of the rapid natural course of lung gangrene.

INTRODUCTION

MOST CHILDREN WITH COMMUNITY-ACQUIRED PNEUMONIA respond to appropriate antibiotic therapy. In some children, however, suppurative lung complications develop, such as recurrent pneumonia, lung abscess, pneumatocele, bronchopulmonary fistula, and cavitory necrosis. Massive pulmonary gangrene is one of the rarest and most severe complications of bacterial pneumonia.¹ Delayed treatment, ill-adapted antibiotic therapy, aspiration

pneumonia, and the presence of anaerobes have been described as the facilitating conditions of this pathology.^{2,3}

Therapeutic approaches range from conservative medical treatment¹ to radical surgery.⁴ Because of the low incidence of this complication and some good results reported with each technique, no definitive treatment of necrotizing pneumonia in infants has yet to be established.

The aim of this study is to propose and evaluate the thoracoscopic approach as an intermediate treatment choice for this pathology.

Departments of ¹Visceral Pediatric Surgery and ²Pediatric Pulmonology, Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital, Montpellier, France.

Presented at the 5th European Congress of Pediatric Surgery, May 21–24, 2003, Tours, France.

MATERIALS AND METHODS

Between January 2002 and February 2003, 3 patients were admitted to our institution for severe necrotizing pneumonia. Their mean follow-up has been 16 months.

The diagnosis of necrotizing pneumonia was based on physical examination and signs on injected computed tomograph (CT) scan:⁵ pulmonary consolidation, intra-parenchymal bullae, and hypovascularization. It was definitively distinguished from lung abscess, which is a solitary cavity with thick contrast-enhancing walls and no loss of normal architecture in the surrounding parenchyma. Diagnosis was confirmed by visualization of lung gangrene during surgery.

Case 1

A 3-year-old girl was admitted to our institution for worsening bacterial pneumonia symptoms following three successive short courses of empirical single-antibiotic therapy. Clinical examination and chest x-ray revealed a right pneumonia with mild pleural effusion. Ultrasonography showed an echogenic loculated empyema with multiple septa. Chest CT scan confirmed the diagnosis of pyopneumothorax associated with a middle lobar necrotizing pneumonia (Fig. 1).

A thoracoscopic approach was decided on immediately. The patient was placed in the lateral decubitus position on the opposite side of the pneumonia. The telescope trocar was placed in the 5th rib space on the anterior axillary line. The optic was 5 with 30 degree vision was particularly useful for total exploration of the pleural cavity, especially the lower cul-de-sac. Pneumothorax was established with carbon dioxide at rates ranging from 6 to 10 mm Hg. Working trocars were then placed under thoracoscopic vision. A double-current system was used

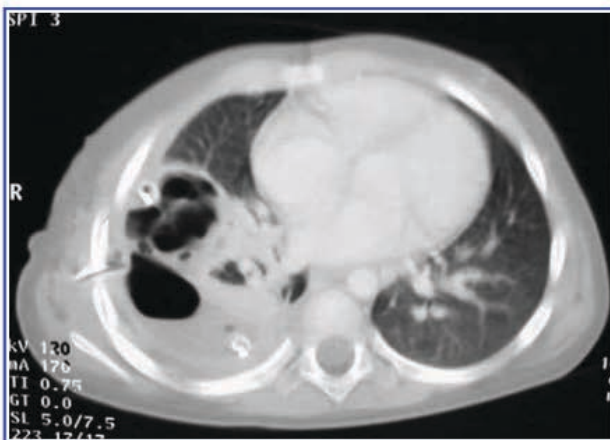


FIG. 1. Computed tomograph (CT) scan of Case 1 shows pulmonary destruction with intra-parenchymatous bullae and associated empyema.



FIG. 2. Follow-up chest x-ray of Case 1, 10 months after thoracoscopic treatment. Note pulmonary re-expansion and absence of pachypleuritis.

for irrigation and aspiration. Systematic samplings of liquid and pleural biopsies were first performed. The thoracoscopic surgery started with exploration of the entire pleural cavity, with a search for and staging of empyema and pleural peel. The parenchyma was evaluated in terms of color, retraction, topography, and consistency, with a cautious examination using nontraumatic instruments. Extensive decortication was performed to allow lung re-expansion. The most superficial necrotic tissues were removed. Air leaks were closed by manual suturing where technically possible. Irrigation and aspiration were abundant. Drainage was optimized with contact to the necrosis and air leakage using two chest tubes (minimum 14 Fr). Lung re-expansion was confirmed by chest x-ray at the end of the procedure.

The perioperative pleural specimens were negative. A probabilistic antibiotic therapy was successful. Apyrexia was reached on postoperative day (POD) 2 and tube drainage was stopped on POD 13, after the last air leak. The child was discharged at the completion of antibiotic therapy (POD 21) after a control CT scan showed improvement in the parenchymatous necrosis and the beginning of lung re-expansion. Two months after the main episode, follow-up was consistent with a transient localized suspended pleural effusion, with no fever or recurrent pneumonia. The effusion resolved spontaneously within 1 week. After 16 months, the chest x-ray was normal, with symmetric lungs and no pachypleuritis (Fig. 2).

Case 2

An 18-month-old girl was admitted to the hospital for a right pneumonia with respiratory distress, severe septic syndrome, and a large pleural fluid collection. Chest x-ray and transthoracic ultrasonography showed a right

lower lobar consolidation with parapneumonic effusion. Initial drainage of the empyema with thoracoscopy and an antimicrobial therapy adapted to a resistant-to-penicillin *Streptococcus* led to only brief clinical improvement. The course of the pneumonia was consistent with a relapse of septic signs. Twelve days after admission, chest x-ray and CT scan showed necrotizing pneumonia in the right inferior lobe with loculated pneumothorax and air leakage from the necrosis (Figs. 3 and 4). A second thoracoscopy was therefore performed within the first 24 hours of diagnosis of the necrosis, using the same technique as in Case 1. This led to improvement of the respiratory symptoms, and apyrexia was reached on POD 2. Drainage was maintained for 17 days until the closure of the bronchopulmonary fistula. The child was discharged 1 month after the procedure. Sixteen months later, the girl was free of all respiratory symptoms, with an excellent pulmonary re-expansion and one bullous sequela in the inferior lobe (Fig. 5).

Case 3

A 2-year-old girl with bacterial pneumonia was initially treated with antibiotics alone for 3 weeks. An empyema occurred and pleural drainage was necessary. Despite this treatment, the clinical course was consistent with the persistence of septic signs and the development of a pneumothorax. A thoracoscopy within the first 24 hours showed a necrotizing pneumonia with direct visualization of the lung gangrene (Fig. 6). After the thoracoscopic approach as previously described, apyrexia was reached on POD 2. Drainage was efficient by POD 14. The child was discharged 20 days after the procedure. Six months after the procedure, the patient no longer had any clinical symptoms and chest x-ray showed good pulmonary re-expansion with moderate pachypleuritis.

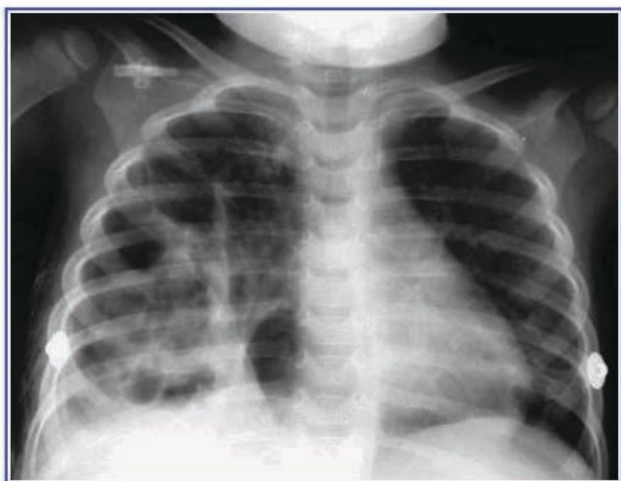


FIG. 3. Preoperative chest x-ray of Case 2. Note multiple cavitations and retraction of the lung parenchyma.

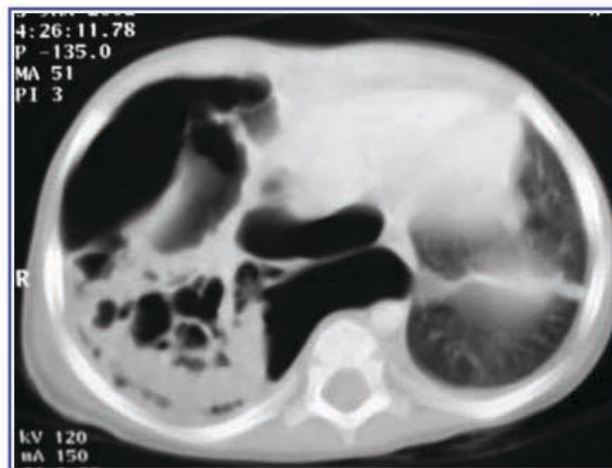


FIG. 4. Preoperative chest CT scan of Case 2; it is essential before surgery to evaluate the severity of pulmonary destruction.

None of the children required conversion to thoracotomy, lung resection, or admittance to the intensive care unit.

DISCUSSION

Pneumonia seems to be showing a new epidemiological pattern, especially in Europe⁶ and North America.⁷ Increased incidence, newly aggressive organisms with antibiotic resistance,⁸ and more severe morbidity with frequently necrotizing forms have been described.⁹ Whereas in adults it is linked with alcohol abuse, diabetes mellitus, and nutritional deficiencies,¹⁰ in pediatrics this pathology is being described in previously healthy young children, even without predisposing factors. Possible explanations include a history of delayed initiation of antibiotic therapy,¹¹ *Staphylococcus*-produced toxins,⁶ *Aspergillus*, and *Legionella*.³

The clinical march of this pathology has been reported in detail by McCarthy¹²: consolidation and pleural effusion are commonly present at the time of initial chest x-ray. As shown in our cases, cavitation is progressive, extending in the pleural cavity over the course of a few days. For this reason, early CT scan¹³ is helpful, as it can explain the persistence or relapse of septic signs by demonstrating necrotic lucency within the area of consolidation. CT scan must be preferred to chest x-ray to hasten diagnosis.³

The advantages of thoracoscopy in the treatment of parapneumonic empyema¹⁴ are its efficacy and minimal morbidity. Based on our experience, we propose a new indication for this approach: severe necrotizing pneumonia in children. This technique should be compared to both radical surgery and conservative treatment to fully appreciate its advantages for this indication.

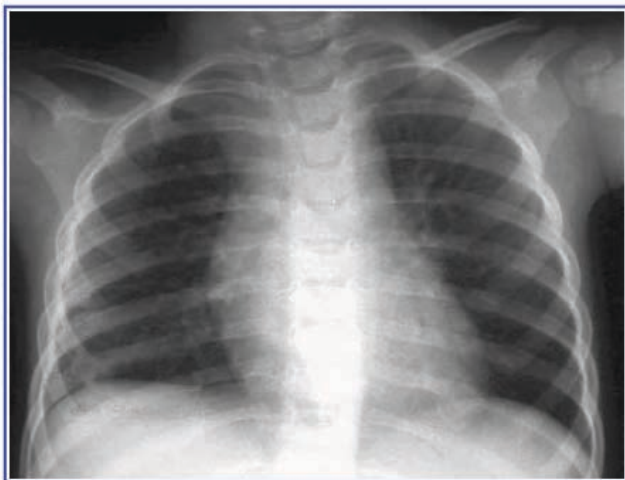


FIG. 5. Follow-up chest x-ray of Case 2, 10 months after thoracoscopy. Except for one bullous sequela in the inferior lobe, the recovery of the lung parenchyma is very satisfactory.

Radical and aggressive surgery has been considered by some to be the optimal treatment of pulmonary gangrene in adults. Knight¹⁵ and Proctor¹⁶ were the first to assert that early surgical intervention is necessary. Krishnadasan¹⁷ advocated pulmonary resection (from wedge resection to pneumectomy), with an emphasis on reinforcing the bronchial stump. But in these series, a long period of ineffective antibiotic therapy was usually reported before lobectomy or pneumectomy was decided on.^{4,10} Moreover, the decision to proceed to lung resection in children is highly debatable because it can compromise future pulmonary function.

In contrast, conservative management with high-dose antibiotic therapy and pleural drainage can result in parenchymal conservation and re-expansion, especially in children. Kerem¹ showed unexpectedly satisfying recuperation of the lung parenchyma. However, this treatment option can prolong the disease course and leads to longer hospitalization and the emergence of resistant bacteria.

The logical question is thus whether less aggressive but earlier surgery can shorten disease progression¹² and avoid later salvage surgery. We think that thoracoscopy may be an intermediate option for treating lung gangrene of bacterial etiology and that it should be considered for this pathology. It is, in fact, a semiconservative surgery because it avoids large lung resections. Ablation of the necrotic debris and efficient drainage of empyema and closure of air leaks could hasten recovery. In our experience, apyrexia was reached 48 hours after the procedure, whereas the patients in Kerem's series¹ needed an average of 14 days of medical treatment before apyrexia.

Two conditions are necessary, however. The thoracoscopy should be decided on as soon as possible so that

surgical processing is easier, more effective, and less dangerous for the lung, with a lower risk of creating air leaks. We propose the first 24 hours after diagnosis as the optimal period for surgery because the natural course of lung gangrene can be rapid, and diagnosis has already been delayed by the initial normal chest x-ray. Second, adapted antibiotic therapy and meticulous chest care should remain the cornerstones of any treatment. We report relatively long hospitalizations for our patients and many factors may explain this. The first was the need for a long drainage period—until the bronchopulmonary fistula was closed. This drainage also prevented the development of large pleural effusions that would have impaired pulmonary re-expansion. Thus, when compared to thoracotomy, thoracoscopy plus conservative lung therapy may be beneficial, not by shortening the hospital stay, but by saving a potentially functional lung. This prognostic consideration is of great importance in such young children and may justify the length of drainage time. Another reason for the long hospital stay was simply the novelty of the treatment strategy. Two days after the end of drainage, all the children were afebrile, with no particular treatment required except antibiotic therapy. Their pulmonary function was compatible with outpatient management, but since these patients were the first to benefit from this new surgical indication, we preferred to watch over them in our pediatric pulmonary department until they had completed the full course of antibiotic therapy.

Despite the advantages of this technique, its impact on fragile lungs in terms of morbidity has to be considered, especially since interventional therapy under radiologic control has shown poor outcomes in necrotizing pneumonia.¹⁸ Thoracoscopy, however, seems to be a more

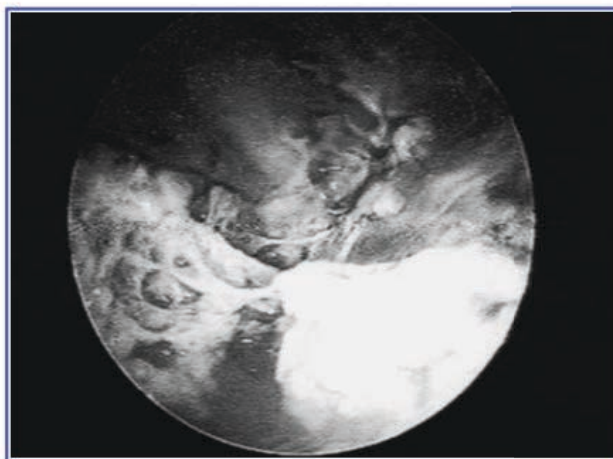


FIG. 6. Perioperative thoracoscopic aspect of necrotizing pneumonia in Case 3. The pulmonary lobes are covered with necrotic tissue, which favors the persistence of pleural infection and hampers lung re-expansion.

cautious approach than classic radiologic interventional therapy, thanks to direct visualization and optimal control of the whole pleural cavity.

Early thoracoscopy may be a valuable treatment option in childhood necrotizing pneumonia because it hastens recovery in comparison to medical treatment alone and avoids the extensive lung resection of late thoracotomy. Although we report only 3 cases, thoracoscopy seems to be promising in this new indication in young children. Further series are needed to confirm this.

REFERENCES

1. Kerem E, Bar Ziv Y, Rudenski B, Katz S, Kleid D, Branski D. Bacteremia necrotizing pneumococcal pneumonia in children. *Am J Respir Crit Care Med* 1994;149:242-244.
2. Leatherman JW, Iber C, Davies SF. Cavitation in bacteremic pneumococcal pneumonia: causal role of mixed infection with anaerobic bacteria. *Am Rev Respir Dis* 1984; 129:317-321.
3. Hodina M, Hanquinet S, Cotting J, Schnyder P, Gudinchet F. Imaging of cavitory necrosis in complicated childhood pneumonia. *Eur Radiol* 2002;12:391-396.
4. Cowles RA, Lelli Jr JL, Takayasu J, Coran AG. Lung resection in infants and children with pulmonary infections refractory to medical therapy. *J Pediatr Surg* 2002;37: 643-647.
5. Donnelly LF, Klosterman LA. Cavitory necrosis complicating pneumonia in children: sequential findings on chest radiography. *AJR Am J Roentgenol* 1998;171: 253-256.
6. Gillet Y, Issartel B, Vanhems Ph, et al. Staphylococccic necrotizing pneumonia associated with Panton-Valentine leukocidin. *Bulletin epidemiologique hebdomadaire* 2000; 197-198. [French]
7. Haussdorff WP. Invasive pneumococcal disease in children: geographic and temporal variations in incidence and serotype distribution. *Eur J Pediatr* 2002;161:S135-S139.
8. Adam D. Global antibiotic resistance in Streptococcus pneumoniae. *J Antimicrob Chemother* 2002;50:1-5.
9. Rees JHM, Spencer DA, Parikh D, Weller P. Increase in incidence of childhood empyema in West Midlands, UK. *Lancet* 1997;349:402.
10. Penner C, Maycher B, Long R. Pulmonary gangrene, a complication of bacterial pneumonia. *Chest* 1994;105: 567-573.
11. Hammond JM, Lydell C, Potgieter PD, Odell J. Severe pneumococcal pneumonia complicated by massive pulmonary gangrene. *Chest* 1993;104:1610-1612.
12. McCarthy VP, Patamasucon P, Gaines T, Lucas MA. Necrotizing pneumococcal pneumonia in childhood. *Pediatr Pulmonol* 1999;28:217-221.
13. Tan Kendrick AP, Ling H, Subramaniam R, Joseph VT. The value of early CT in complicated childhood pneumonia. *Pediatr Radiol* 2002;32:16-21.
14. Kercher K, Attori R, Hoover D, Morton D. Thoracoscopic decortication as first-line therapy for pediatric parapneumonic empyema. *Chest* 2000;118:24-27.
15. Knight L, Fraser RG, Robson HG. Massive pulmonary gangrene: a severe complication of Klebsiella pneumonia. *Can Med Assoc J* 1975;112:196-198.
16. Proctor RJ, Griffin JP, Eastridge CE. Massive pulmonary gangrene. *South Med J* 1977;70:1144-1146.
17. Krishnadasan B, Sherbin VL, Vallieres E, Karmy-Jones R. Surgical management of lung gangrene. *Can Respir J* 2000; 7:401-404.
18. Hoffer FA, Bloom DA, Colin AA, Fishman SJ. Lung abscess versus necrotizing pneumonia: implications for interventional therapy. *Pediatr Radiol* 1999;29:87-91.

Address reprint requests to:

*Nicolas Kalfa, MD
Visceral Pediatric Surgery Department
Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital
34295 Montpellier Cedex 5
France*

E-mail: nicolaskal@aol.com

Commentaires de l'article

La pneumonie semble représenter un nouveau modèle épidémiologique, en particulier en Europe et en Amérique du Nord. L'augmentation de l'incidence, les bactéries nouvellement agressives avec résistance aux antibiotiques et une morbidité plus sévère avec des formes nécrosantes ont été décrites récemment. Alors que chez les adultes ce phénomène semble lié à l'abus d'alcool, le diabète sucré et les carences nutritionnelles, en pédiatrie cette pathologie est décrite chez de jeunes enfants en bonne santé et sans facteurs prédisposants. Les explications possibles comprennent une initiation retardée de l'antibiothérapie et l'existence de toxines produites par les germes de type staphylococcus, aspergillus et légionnelle. L'épanchement pleural est généralement présent au moment de la radiographie de thorax initiale et la cavitation est progressive se prolongeant dans la cavité pleurale en quelques jours. Ainsi l'examen tomодensitométrique est très utile, car il peut expliquer la persistance ou la récurrence de signes septiques en démontrant des lésions nécrotiques à un moment de l'évolution.

La chirurgie radicale et agressive a été considérée par certains comme le traitement optimal de la gangrène pulmonaire chez les adultes. Knight et Proctor ont été les premiers à affirmer que l'intervention chirurgicale précoce était nécessaire (1) Krishnadasan préconisait une résection pulmonaire (2). Mais dans ces séries, une longue période de traitement antibiotique inefficace était généralement rapportée avant la lobectomie. La décision d'une résection du poumon chez les enfants est très discutable, car il peut compromettre la fonction pulmonaire à venir.

En revanche, le traitement conservateur à haute dose d'antibiotiques avec drainage pleural peut permettre une conservation du parenchyme et sa ré-expansion, surtout chez les enfants. Kerem a montré de façon inattendue la

récupération du parenchyme pulmonaire (3). Toutefois, cette option de traitement peut prolonger le cours de la maladie et conduit à une hospitalisation prolongée. La question logique était donc de savoir si avec une chirurgie moins agressive on pouvait réduire la progression de la maladie et éviter une chirurgie de sauvetage. Nous pensons que la thoracoscopie peut être une option intermédiaire pour traiter la gangrène du poumon d'étiologie bactérienne et qu'elle devrait être considérée. Ses avantages dans le traitement de l'empyème para pulmonaire sont l'efficacité et une morbidité minimale. Basé sur notre expérience, nous proposons une nouvelle indication pour cette approche dans des cas de pneumonie nécrosante sévère chez l'enfant. Cette technique devrait être comparée à la fois à la chirurgie radicale et au traitement conservateur pour apprécier pleinement ses avantages pour cette indication. Elle évite de grandes résections pulmonaires. L'ablation nécrotique et un drainage efficace de l'empyème avec la fermeture éventuelle des fuites d'air peuvent accélérer le rétablissement. Dans notre expérience, l'apyrexie a été atteinte 48 heures après la procédure, alors que les patients dans la série de Kerem ont eu besoin de 14 jours de traitement médical en moyenne avant apyrexie (3). Deux conditions sont nécessaires, cependant. La thoracoscopie doit être décidé dès que possible afin que le traitement chirurgical soit plus facile, plus efficace, et moins dangereux pour le poumon, avec un risque moindre de créer des fuites d'air ; nous proposons la thoracoscopie dans les premières 24 heures après le diagnostic qui nous semble être la période optimale pour la chirurgie ; deuxièmement, une antibiothérapie adaptée doit rester la pierre angulaire de tout traitement. Nous rapportons de relativement longues hospitalisations pour nos patients et de nombreux facteurs peuvent l'expliquer : le premier est la nécessité d'une longue période de drainage, jusqu'à fermeture de la fistule broncho-pulmonaire. Le drainage a également empêché le développement de grands épanchements pleuraux. Ainsi, par rapport à une thoracotomie, la thoracoscopie

est la thérapie la plus conservatrice et la plus bénéfique pour le poumon, non pas par le raccourcissement de la durée d'hospitalisation, mais en favorisant un poumon potentiellement fonctionnel. Cet élément pronostique est d'une grande importance chez ces jeunes enfants et peut justifier la durée du temps de drainage. Une autre raison pour le long séjour à l'hôpital était tout simplement la nouveauté de la stratégie de traitement. Deux jours après la fin de drainage, tous les enfants étaient apyrétiques, sans traitement particulier requis, sauf antibiothérapie. Leur fonction pulmonaire était compatible avec une prise en charge ambulatoire, mais comme il s'agissait des premiers patients à bénéficier de cette nouvelle indication chirurgicale, nous avons préféré les surveiller dans notre service jusqu'à ce qu'ils aient terminé le traitement antibiotique. La thoracoscopie précoce peut être un avantage car il accélère le rétablissement en comparaison du traitement médical seul et évite l'étendue de la résection pulmonaire par chirurgie ouverte. Bien que nous ne rapportions que 3 cas, la thoracoscopie semble être prometteuse pour cette nouvelle indication chez les jeunes enfants. D'autres séries sont nécessaires pour confirmer cette hypothèse.

Références

1. Knight L, Fraser RG, Robson HG. Massive pulmonary gangrene: a severe complication of Klebsiella pneumonia. *Can Med Assoc J* 1975; 112:196–198.
2. Krishnadasan B, Sherbin VL, Vallieres E, Karmy-Jones R. Surgical management of lung gangrene. *Can Respir J* 2000; 7:401–404.
3. Kerem E, Bar Ziv Y, Rudenski B, Katz S, Kleid D, Branski D. Bacteremia necrotizing pneumococcal pneumonia in children. *Am J Respir Crit Care Med* 1994; 149:242-244.



ELSEVIER

Thoracoscopy in pediatric pleural empyema: a prospective study of prognostic factors

Nicolas Kalfa^a, Hossein Allal^{a,*}, Manuel Lopez^a, Magali Saguintaah^b, Marie-Pierre Guibal^a, Edith Sabatier-Laval^a, Dominique Forgues^a, François Council^c, René-Benoit Galifer^a

^aVisceral Pediatric Surgery Department, Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital, Montpellier Cedex 5 34295, France

^bPediatric Radiology Department, Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital, Montpellier Cedex 5 34295, France

^cPediatric Pneumonology Department, Lapeyronie-Arnaud de Villeneuve Hospital, Montpellier Cedex 5 34295, France

Index words:

Empyema;
 Child;
 Thoracoscopy;
 Prognosis;
 Complications;
 Pneumopathy

Abstract

Purpose: The indications for thoracoscopy remain imprecise in cases of pleural empyema. This study aimed to identify preoperative prognostic factors to help in the surgical decision.

Methods: From 1996 to 2004, 50 children with parapneumonic pleural empyema underwent thoracoscopy either as the initial procedure (n = 26) or after failure of medical treatment (n = 24). Using multivariate analysis, we tested the prognostic value of clinical and bacteriological data, the ultrasonographic staging of empyema, and the delay before surgery. Outcome measures were technical difficulties, postoperative complications, time to apyrexia, duration of drainage, and length of hospitalization.

Results: The clinical and bacterial data did not significantly predict the postoperative course. Echogenicity and the presence of pleural loculations at ultrasonography were not independent significant prognostic factors. A delay between diagnosis and surgery of more than 4 days was significantly correlated ($P < .05$) with more frequent surgical difficulties, longer operative time, more postoperative fever, longer drainage time, longer hospitalization, and more postoperative complications, such as bronchopleural fistula, empyema relapse, and persistent atelectasia.

Conclusion: The main prognostic factor for thoracoscopic treatment of pleural empyema is the interval between diagnosis and surgery. A 4-day limit, corresponding to the natural process of empyema organization, is significant. The assessment of loculations by ultrasonography alone is not sufficient to predict the postoperative course.

© 2006 Elsevier Inc. All rights reserved.

Parapneumonic effusion and empyema lie on a continuum from a nonspecific pleural reaction that does not require surgery to a potentially severe complication of

bacterial pneumonia by an extension of the infection into the pleural space [1,2]. The risks of pleural and parenchymatous morbidity should therefore not be neglected, especially in young children. Failure to control the pleural process may lead to the development of multiple loculations and organized empyema, major pleural thickening, and restrictive ventilatory disorders [3].

* Corresponding author. Tel.: +33 4 67 338 783; fax: +33 4 67 339 512.

E-mail address: h-allal@chu-montpellier.fr (H. Allal).

No clear consensus has been reached concerning the optimal therapeutic strategy to adopt for advanced empyema. The options include intrapleural fibrinolytics [4,5], thoracoscopy [6], and thoracotomy [7], and children are treated differently according to their clinical picture. Thoracoscopy has recently shown the advantages of minimal morbidity, hastened recovery, high safety, and efficacy [8-10]. But the precise prognostic factors of empyema treated by this technique are still debatable. A better definition of them is thus necessary both to provide the basis for the right therapeutic choice and to predict the postoperative disease progression.

The aim of this study was to identify the preoperative clinical, bacteriological, and radiologic prognostic factors of thoracoscopy in this increasingly frequent pathology and to compare patients' outcomes according to the timing of the surgical treatment.

1. Methods

1.1. Patients

From September 1996 to December 2004, 50 children with pleural empyema were admitted to our department. The diagnosis was confirmed in all cases by bacteriological or biochemical study of liquid sample [11] (lactate dehydrogenase >1000 IU/L, glucose <40 mg/dL) and surgical findings (fibrin organization, purulent pleural fluid). Seven patients were enrolled retrospectively in this study, and 43, prospectively.

We recorded the following data: age, sex, and clinical findings; chronology of initial signs and diagnosis; oxygen saturation (pulse oximetry) at the time of admission and need for oxygen; delay before operative drainage; bacteriological and biochemical study of liquid; and radiologic and preoperative findings. Empyema was classified according to the American Thoracic Society staging [12]; stage I is exudative pleuresia, stage II is fibrinopurulent, and stage III is organizing. The outcome measures were technical difficulties, postoperative complications, time to stable apyrexia, duration of drainage, and length of hospitalization. The period of follow-up ranged from 6 months to 3 years.

1.2. Ultrasonographic methods

Ultrasonographic (US) examinations were performed with an ATL UM9 HDI apparatus (ATL Ultrasound, Bothell, WA). A 10-MHz linear transducer with a low-wall filter (100 kHz) and low pulse-repetition frequency (1-2 Hz) was used. The patient was in a sitting position. The echogenicity of the liquid, the maximal thickness of the effusion, and the presence of loculations were studied. Examinations were performed every 2 days in the preoperative period until surgery only by senior pediatric radiologists.

1.3. Surgical methods

The patient underwent a selective intubation and was placed in the lateral decubitus position on the opposite side of the empyema. Two ports were used (telescope and 1 instrument). A third one was necessary for empyema with extensive pleural peel. Pneumothorax with carbon dioxide (6-10 mm Hg) allowed the lung to collapse. An initial debridement with the telescope was often useful before placing the first working port. After a systematic sampling of liquid, abundant irrigation and aspiration with a double-current system were performed. Extensive debridement and ablation of all septa allowed the whole pleural cavity to be unified. This decortication was as complete as possible in each case, with particular attention paid to the visceral pleura to avoid air leakage. Although large ports would have been advantageous, a 5-mm working port was used because of the limited space between ribs, especially in small children. Two chest tubes (minimum of 14F) were positioned anteriorly and posteriorly. A chest radiograph at the end of the procedure confirmed the lung reexpansion.

1.4. Statistical methods

The statistical analysis was performed by the Medical Information and Biostatistics Department of Montpellier University Hospital. The univariate analysis was performed with the nonparametric Mann-Whitney *U* test for quantitative data, and Pearson χ^2 or Fisher's Exact test for nominative data. Normal distribution of outcome measures was tested by a Shapiro-Wilk test. Each factor was then individually assessed by a multivariate analysis according to an analysis of variance test. Confusion factors were excluded.

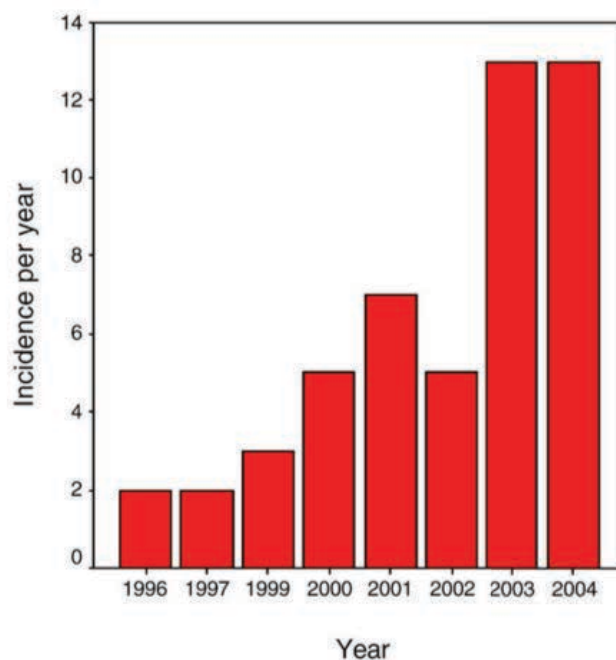


Fig. 1 Increased incidence of bacterial pneumonia in children from 1996 to 2004.

2. Results

A marked increase in the incidence of empyema has been observed in our institution since 1996 (Fig. 1).

2.1. Prognostic value of clinical data

The mean age was 4 1/2 years (ranging from 5 months to 16 years), and 27 patients (54%) were girls. All patients had previously been healthy. The clinical findings were principally fever (86%) and tachypnea (74%). The range of oxygen saturation was from 81% to 99%. Fifty-six percent of the patients needed oxygen (average of 1 L/min, maximum of 5 L/min). The clinical data did not allow us to predict the postoperative outcome. In particular, the severity of the initial clinical presentation could not be used to forecast the risk of surgical difficulties and postoperative complications (Table 1).

2.2. Prognostic value of bacteriological data

Twenty-seven patients (54%) had a culture-proven bacterial pathogen in the pleural effusion. The most frequent pathogen was *Streptococcus pneumoniae* (18 cases). *Staphylococcus aureus* was found in 2 patients. Other pathogens were *Streptococcus alpha haemolyticus*, *Peptostreptococcus*, and *Bacteroides*. *Streptococcus pneumoniae* was penicillin-resistant in 17% of the cases, with antibiotic resistance that remained stable over the study period. In cases of multiresistant germs, the duration of postoperative fever was increased ($P < .05$). The duration of drainage, the duration of postoperative fever, and the risk of complica-

tions were also increased when compared with outcomes of cases with penicillin-sensitive pneumococcus, but the differences did not reach significance.

2.3. Prognostic value of preoperative pleural ultrasonography

Ultrasonographic examinations were performed at least twice in all patients. The delay between the last examination and surgery ranged from 12 to 48 hours. The last US before surgery showed an echogenic pleural liquid in 78% of the cases, which was suspected of being purulent or showed the beginnings of fibrin deposition. The mean thickness of the empyema was 37 mm (ranging from 15 to 81 mm). Loculations were present in 70%. When compared with the surgical exploration, the accuracy for detecting loculations was 80%, and US failed to detect organization of empyema in 9 cases. The multivariate analysis revealed that the echogenicity, the presence of pleural loculations, and the thickness of effusion at US were not independent significant prognostic factors. The durations of surgery, drainage, and hospitalization were not longer when the empyema appeared to be extensive or organizing on ultrasonography (Table 1).

2.4. Prognostic value of the interval between diagnosis and surgery

During the interval between diagnosis and surgery, the initial nonsurgical treatment was started; this included a course of antibiotics, respiratory kinesitherapy, and a chest

Table 1 Prognostic value of clinical, bacteriological, and radiologic data after thoracoscopy for empyema in children

| | | Operative time (min) | Postoperative fever (d) | Duration of drainage (d) | Hospitalization (d) | Surgical difficulties | Complications |
|-----------------------------------|--|----------------------|-------------------------|--------------------------|--------------------------|-----------------------|---------------|
| Age ^a | <3 y (n = 18) | 89 P = NS | 4.4 P = NS | 7.5 P = NS | 15.8 P = NS | 7% P = NS | 20% P = NS |
| | >3 y (n = 32) | 90 | 4 | 5.9 | 13.5 | 11% | 19% |
| Sex | Male (n = 23) | 81 P = NS | 5.9 P = NS | 4.8 P = NS | 14.6 P = NS | 12% P = NS | 11% P = NS |
| | Female (n = 27) | 96 | 4 | 7.8 | 14.1 | 13% | 26% |
| Respiratory distress | Yes (n = 20) | 85 P = NS | 4.5 P = NS | 7 P = NS | 14.2 P = NS | 6% P = NS | 12% P = NS |
| | No (n = 30) | 93 | 3.8 | 6.1 | 14.4 | 13% | 26% |
| Bacteriological data ^b | Penicillin-sensitive pneumococcus (n = 15) | 84 P = NS | 3. P < .05 | 5.4 P = NS ^c | 12.6 P = NS ^c | 6% P = NS | 13% P = NS |
| | Penicillin-resistant pneumococcus (n = 3) | 97 | 8.3 | 16.3 | 23 | 0% | 60% |
| Pleural loculations at US | Yes (n = 35) | 87 P = NS | 3.4 P = NS | 5.8 P = NS | 13.2 P = NS | 14% P = NS | 20% P = NS |
| | No (n = 15) | 83 | 4.3 | 6.8 | 15.3 | 0% | 6% |
| Pleural fluid echogenicity | Yes (n = 39) | 87 P = NS | 4 P = NS | 5.8 P = NS | 14 P = NS | 12% P = NS | 15% P = NS |
| | No (n = 11) | 78 | 3.6 | 8.1 | 13.7 | 0% | 18% |
| Thickness of empyema | <30 mm (n = 28) | 87 P = NS | 4.1 P = NS | 6.5 P = NS | 14.6 P = NS | 14% P = NS | 10% P = NS |
| | ≥30 mm (n = 22) | 84 | 3.8 | 6 | 13.2 | 5% | 22% |

^a Three years was chosen as the limit, since postnatal alveolar development mainly takes place during this period [29,30].

^b In 25 cases, no bacteria were found in either pleural samples or blood cultures.

^c Nonsignificant because of high variances.

Table 2 Effect of the interval between diagnosis and surgery on the postoperative outcome

| Outcome measures | Delay \leq 4 d | Delay $>$ 4 d | <i>P</i> |
|-----------------------------------|-------------------|-------------------|----------|
| | (n = 26 children) | (n = 24 children) | |
| | Mean \pm SD | Mean \pm SD | |
| Operative time (min) | 74 \pm 20 | 98 \pm 26 | $<$.05 |
| Length of postoperative fever (d) | 2.7 \pm 4.2 | 5.3 \pm 3.2 | $<$.05 |
| Duration of drainage (d) | 4.5 \pm 4 | 8 \pm 6.8 | $<$.01 |
| Length of hospitalization (d) | 10.9 \pm 4.3 | 17 \pm 8.4 | $<$.01 |
| Surgical difficulties | 0% | 21% | $<$.05 |
| Complications | 3.8% | 29% | $<$.05 |

tube when necessary. The length of treatment was decided by the referring pediatricians of the hospital and was based on clinical evolution and complementary examinations. Thus, this interval varied widely and ranged from 1 to 32 days (median, 5 days). A delay of more than 4 days (24 children) was correlated with more frequent surgical difficulties ($P < .05$) (Table 2). In 5 cases, the decortication and release of the lung was a delicate procedure, especially in the lower parts of the pleural cavity, and surgery was never shorter than 2 hours. One conversion to thoracotomy was necessary because of an advanced pleural symphysis.

Early thoracoscopy significantly reduced the duration of the surgical procedures (74 vs 98 minutes, $P < .05$) and the duration of postoperative fever by half (2.7 vs 5.3 days, $P < .05$). The drainage time and length of hospitalization were also notably shorter when surgery was decided on within the first 4 days after diagnosis ($P < .01$) (Table 2). Seventy percent of the patients with late surgery had to stay in the hospital for at least 2 weeks because of persistent septic signs, need of intravenous antibiotic therapy, significant pleural fluid production, or postoperative complications. Only 19% of the patients operated on during the first 4 days were hospitalized for so long.

More postoperative complications occurred in cases of postponed surgery ($P < .05$), such as bronchopleural fistula (3 cases, 2 of them with necrotizing pneumonia), empyema relapse (3 cases), and pneumatocele (1 case). All of them occurred in patients operated on after a relatively long delay, except for 1 case of persistent atelectasis. Additional thoracoscopic procedures were required 3 times, only in cases of late surgery.

2.5. Effect of the surgeons' learning curve

To exclude the effect of the surgeons' learning curve, we looked for an influence of the operative year on the outcome measures. We found no correlations between the year of surgery, the length of the procedure, the presence of technical difficulties, and the postoperative course.

3. Discussion

An increase in the incidence of empyema has been reported since 1995, but the etiology is still largely unknown [13]. Although various therapeutic choices for pediatric empyema have been reported to be successful (chest tube drainage [14], thoracotomy [15], thoracoscopy [16], fibrinolytics [4,5]), the aim of this work was to highlight the earliness of surgical treatment as the most favorable prognostic factor. To ensure the homogeneity of the study group, all patients underwent ultrasonography as the reference imaging examination and thoracoscopy as the method of surgical treatment. The postoperative course was not influenced by the year of the surgery, and thus, the effect of the surgeons' learning curve could be excluded as a bias. This study was not a randomized comparative trial of different therapeutic options, in particular, of thoracotomy and thoracoscopy. But an understanding of the prognostic factors is, nevertheless, critical to choosing the best therapeutic attitude.

Unlike previous reports [17,18], we show that the surgical decision should not be based on clinical and bacteriological data alone. The clinical presentation was not a determinant of the pathologic outcome. Except for major respiratory distress, which is a rare occurrence in pleural empyema and may require urgent drainage, the potential severity of the empyema was not reflected by the clinical status at admission in our series. Even with moderate or minimal infectious or respiratory symptoms, pleural empyema exposes the patient to devastating morbidity if neglected or operated on too late. Similarly, bacteriological data alone were not sufficient to determine the need for aggressive treatment. Even if the postoperative course tends to be shorter in cases of nonresistant bacteria, the risk of complications does exist. As shown by Hardie et al [11], penicillin-sensitive streptococci do not result in a more favorable issue than resistant bacteria. Although the natural history of infection can be influenced by the bacterial virulence [19], bacteriological data did not appear as an independent and significant prognostic factor in our study.

The timing of surgical treatment was expected to be a major prognostic factor [20], based on our preliminary report [21]. This result is supported by the pathophysiology of this disease. Stage I lasts a maximum of 3 to 4 days [22], and beyond this limit, the natural organizing process greatly reduces the likelihood that medical treatment will succeed [23]. The transthoracic chest drainage tube, without surgical removal of restrictive purulent debris, is inadequate and ineffective in complicated parapneumonic empyema because of tube clogging and multiple loculations. The present study demonstrated that whether surgery is performed within 4 days of diagnosis or later seems to be the best predictor of postoperative outcome. Early surgery facilitates the unification of the whole pleural space, allows complete decortication even in the pleural cul-de-sac, and significantly reduces the postoperative febrile period and the length of

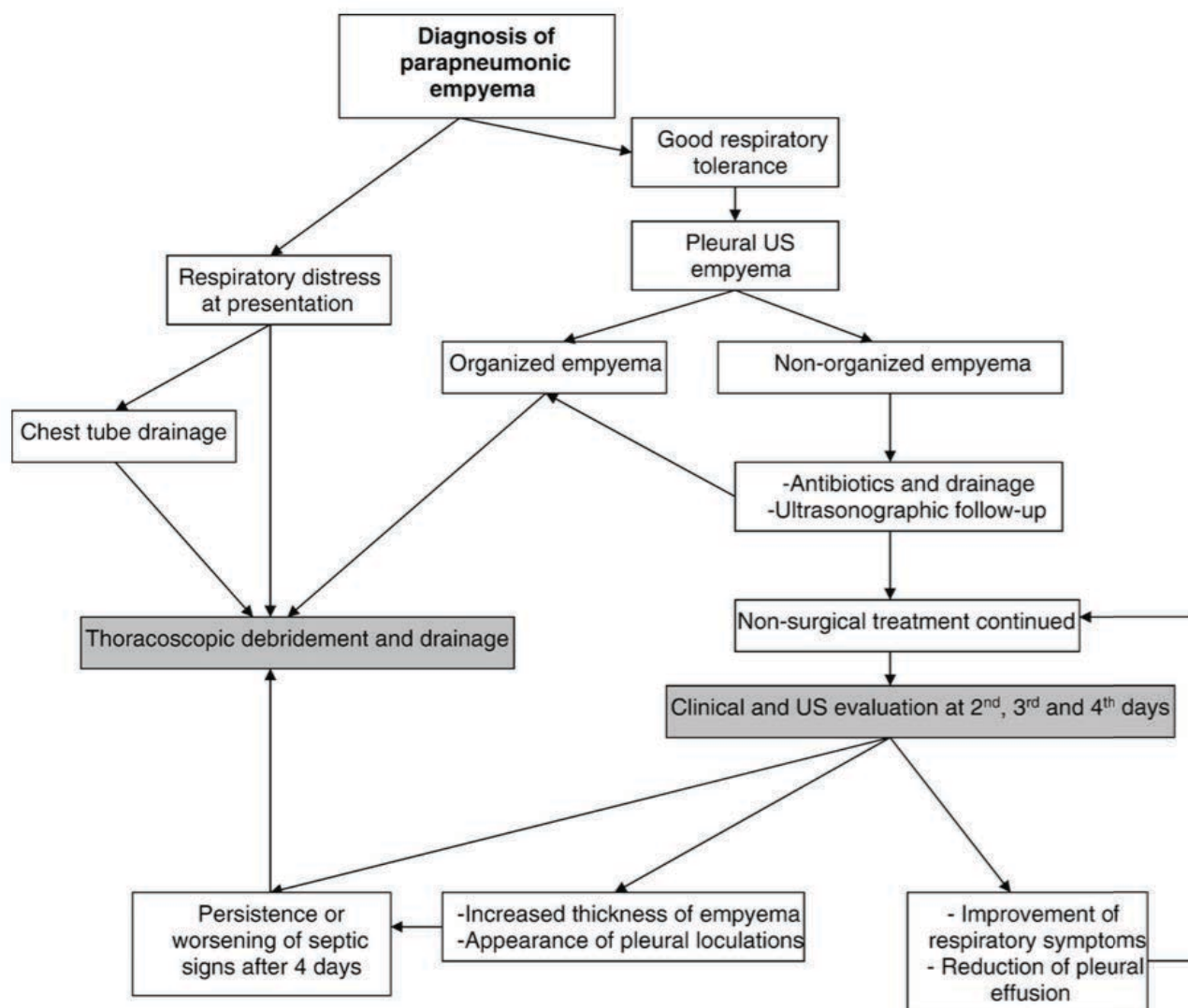


Fig. 2 Algorithm for the surgical decision based on both clinical and US data from the first 4 days after diagnosis.

hospitalization [6]. In contrast, when performed after 4 days, thoracoscopy encounters more frequent technical difficulties and seems to be less effective. The risk of parenchymal injury is higher, and more complications occurred in our series, such as bronchopleural fistula, empyema relapse, and persistent atelectasis. In addition, some authors have emphasized the economic advantages of an early procedure that results in a shorter hospital stay with fewer additional procedures and a shorter course of antibiotics [24]. Nevertheless, the definition of an early thoracoscopy has not yet been clearly established. A 2-day limit was proposed by Schultz et al [25]. But recommending systematic thoracoscopy 2 days post diagnosis might expose too many children able to recover quickly without surgery to invasive treatment. A 4-day limit seems more acceptable because it would not lead to systematic surgery and would provide enough time for initial medical treatment with pleural drainage to succeed. At this point, only nonresponding patients could benefit from highly effective thoracoscopy

(Fig. 2). However, we do not recommend prolonging nonsurgical treatment beyond this 4-day limit.

Surprisingly, our study did not confirm US findings as a significant prognostic factor of postoperative outcome. Computed tomographic scans and pleural US have been proposed to assess the empyema stage and provide surgical indications. Computed tomography is not specific enough to diagnose and stage empyema [26], however, and was not used in this study. Ultrasonography has been shown to be more reliable for evaluating the nature of the pleural fluid [27] and was chosen as the reference examination for all of our patients. The US findings were expected to be a valuable prognostic factor in this disease since Ramnath et al [28] reported that an early sonographic evaluation of parapneumonic effusion was useful in assessing disease severity. But the sensitivity of US for detecting loculations when compared with operative confirmation was only 77% in the present cohort. This discordance may be explained by 2 factors: first, the interval between the last US and surgery

(12-48 hours) may be sufficient for the disease to progress; second, ultrasonography is very sensitive for detecting quite thin loculations because of the excellent contrast between anechogenic fluid and echogenic membranes, but this sensitivity may decrease in cases of very echogenic fluid. A low-grade organized empyema at US does not guarantee the absence of purulent debris and the success of medical treatment alone. Ultrasonography may thus underevaluate the disease progression, and the surgical decision may be inappropriately delayed. For these reasons, the US findings were not able to predict the outcome of our patients, the length of hospitalization, or the risk of complications. More closely spaced and regular exams—every 24 hours, for example—may counterbalance these limits and provide useful data. Despite these shortcomings for prognosis, US remains a central diagnostic tool for pleural effusion in children.

This study highlights the delay between diagnosis and surgery as the main prognostic factor of the postoperative outcome of empyema in children. The 4-day limit is supported by pathophysiological considerations and corresponds to the natural course of pleural organization. Yet the efficacy of nonsurgical treatment should not be minimized, and a brief preliminary trial of medical treatment with chest tube in nonorganized empyema could reduce excessive surgical indications.

References

- [1] Light RW. A new classification of parapneumonic effusions and empyema. *Chest* 1995;108:299-301.
- [2] Hilliard TN, Henderson AJ, Langton Hewer SC. Management of parapneumonic effusion and empyema. *Arch Dis Child* 2003;88:915-7.
- [3] Kohn GL, Walston C, Feldstein J, et al. Persistent abnormal lung function after childhood empyema. *Am J Respir Med* 2002;1:441-5.
- [4] Thomson AH, Hull J, Kumar MR, et al. Randomised trial of intrapleural urokinase in the treatment of childhood empyema. *Thorax* 2002;57:343-7.
- [5] Yao CT, Wu JM, Liu CC, et al. Treatment of complicated parapneumonic pleural effusion with intrapleural streptokinase in children. *Chest* 2004;125:566-71.
- [6] Kercher KW, Attorri RJ, Hoover JD, et al. Thoracoscopic decortication as first-line therapy for pediatric parapneumonic empyema. A case series. *Chest* 2000;118:24-7.
- [7] Karaman I, Erdogan D, Karaman A, et al. Comparison of closed-tube thoracostomy and open thoracotomy procedures in the management of thoracic empyema in childhood. *Eur J Pediatr Surg* 2004;14:250-4.
- [8] Rescorla FJ, West KW, Gingalewski CA, et al. Efficacy of primary and secondary video-assisted thoracic surgery in children. *J Pediatr Surg* 2000;35:134-8.
- [9] Cohen G, Hjortdal V, Ricci M, et al. Primary thoracoscopic treatment of empyema in children. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2003;125:79-83.
- [10] Liu HP, Hsieh MJ, Lu HI, et al. Thoracoscopic-assisted management of postpneumonic empyema in children refractory to medical response. *Surg Endosc* 2002;16:1612-4.
- [11] Hardie WD, Roberts NE, Reising SF, et al. Complicated parapneumonic effusions in children caused by penicillin-nonsusceptible *Streptococcus pneumoniae*. *Pediatrics* 1998;101:388-92.
- [12] Andrews NC, Parker EF, Shaww RR, et al. American Thoracic Society Subcommittee on surgery management of nontuberculous empyema. *Am Rev Respir Dis* 1962;85:935-6.
- [13] Eastham KM, Freeman R, Kearns AM, et al. Clinical features, aetiology and outcome of empyema in children in the north east of England. *Thorax* 2004;59:522-5.
- [14] Shoseyov D, Bibi H, Shatzberg G, et al. Short-term course and outcome of treatments of pleural empyema in pediatric patients: repeated ultrasound-guided needle thoracocentesis vs chest tube drainage. *Chest* 2002;121:836-40.
- [15] Alexiou C, Goyal A, Firmin RK, et al. Is open thoracotomy still a good treatment option for the management of empyema in children? *Ann Thorac Surg* 2003;76:1854-8.
- [16] Grewal H, Jackson RJ, Wagner CW, et al. Early video-assisted thoracic surgery in the management of empyema. *Pediatrics* 1999;103:e63.
- [17] Satish B, Bunker M, Seddon P. Management of thoracic empyema in childhood: does the pleural thickening matter? *Arch Dis Child* 2003;88:918-21.
- [18] Carey JA, Hamilton JR, Spencer DA, et al. Empyema thoracis: a role for open thoracotomy and decortication. *Arch Dis Child* 1998;79:510-3.
- [19] Margenthaler JA, Weber TR, Keller MS. Predictors of surgical outcome for complicated pneumonia in children: impact of bacterial virulence. *World J Surg* 2004;28:87-91.
- [20] Gates RL, Caniano DA, Hayes JR, et al. Does VATS provide optimal treatment of empyema in children? A systematic review. *J Pediatr Surg* 2004;39:381-6.
- [21] Kalfa N, Allal H, Montes-Tapia F, et al. Ideal timing of thoracoscopic decortication and drainage for empyema in children. *Surg Endosc* 2004;18:472-7.
- [22] Bremont F, Baunin C, Juchet A, et al. Clinical course and treatment of pleural empyema in children. *Arch Pediatr* 1996;3:335-41.
- [23] Rodriguez JA, Hill CB, Loe Jr WA, et al. Video-assisted thoracoscopic surgery for children with stage II empyema. *Am Surg* 2000;66:569-72.
- [24] Meier AH, Smith B, Raghavan A, et al. Rational treatment of empyema in children. *Arch Surg* 2000;135:907-12.
- [25] Schultz KD, Fan LL, Pinsky J, et al. The changing face of pleural empyemas in children: epidemiology and management. *Pediatrics* 2004;113:1735-40.
- [26] Donnelly LF, Klosterman LA. CT appearance of parapneumonic effusions in children: findings are not specific for empyema. *AJR Am J Roentgenol* 1997;169:179-82.
- [27] Park CS, Chung WM, Lim MK, et al. Transcatheter instillation of urokinase into loculated pleural effusion: analysis of treatment effect. *AJR Am J Roentgenol* 1996;167:649-52.
- [28] Ramnath RR, Heller RM, Ben-Ami T, et al. Implications of early sonographic evaluation of parapneumonic effusions in children with pneumonia. *Pediatrics* 1998;101:68-71.
- [29] Thurlbeck WM. Postnatal human lung growth. *Thorax* 1982;37:564-71.
- [30] Zeltner TB, Burri PH. The postnatal development and growth of the human lung. II. Morphology. *Respir Physiol* 1987;67:269-82.

Commentaires de l'article.

Une augmentation de l'incidence de l'empyème a été rapportée depuis 1995, mais l'étiologie est encore inconnue. Pour assurer l'homogénéité du groupe d'étude, tous les patients ont eu une échographie comme examen d'imagerie de référence et la thoracoscopie a été le seul mode de traitement chirurgical. L'évolution post-opératoire n'a pas été influencée par l'année de la chirurgie, et donc, l'effet de la courbe d'apprentissage des chirurgiens pouvait être exclu comme un biais. Cette étude n'a pas été une étude comparative randomisée de différentes options thérapeutiques, en particulier, de la thoracotomie et de la thoracoscopie. Mais une compréhension des facteurs pronostiques était néanmoins essentielle pour choisir la meilleure attitude thérapeutique. Contrairement aux rapports précédents, nous avons montré que la décision chirurgicale ne devait pas être basée sur des données cliniques et bactériologiques seules. La présentation clinique n'était pas un facteur déterminant de l'issue pathologique. Sauf pour la détresse respiratoire majeure, qui est un événement rare dans l'empyème pleural pouvant nécessiter un drainage d'urgence. La gravité potentielle de l'empyème n'avait pas de corrélation avec l'état clinique à l'admission dans notre série. La présente étude a démontré que la chirurgie effectuée dans les 4 jours suivant le diagnostic représentait le meilleur signe prédictif de bons résultats postopératoires. La chirurgie précoce facilite la libération de l'espace pleural, permet une décortication complète, même dans le cul-de-sac pleural, et réduit considérablement la période fébrile postopératoire et la longueur d'hospitalisation. En revanche, lorsqu'elle est effectuée après 4 jours, la thoracoscopie rencontre des difficultés techniques plus fréquentes et semble être moins efficace. Le risque de lésions du parenchyme est plus élevé, et plus de complications sont survenues dans notre série, comme la fistule broncho-pleurale, la pleurésie purulente récidivante ou une atélectasie persistante. Certains auteurs ont souligné les avantages économiques d'une

procédure anticipée qui entraîne une hospitalisation plus courte avec moins de procédures supplémentaires et un traitement sous antibiotiques plus court. Néanmoins, une thoracoscopie d'emblée reste discutée. Une limite de 2 jours a été effectuée par Schultz *et al* (1). Mais proposée de façon systématique, une thoracoscopie 2 jours après le diagnostic pourrait exposer à trop d'indications. Une limite de 4 jours semble plus acceptable parce qu'elle ne conduirait pas à la chirurgie systématique et donnerait assez de temps pour que le traitement médical initial avec drainage pleural puisse être efficace.

Étonnamment, notre étude n'a pas été confirmée par les conclusions des publications provenant des États-Unis comme un facteur pronostique significatif de résultats postopératoires (2). Tomodensitométrie et échographie pleurale ont été proposées pour évaluer le stade de l'empyème et fournir des arguments pour les indications chirurgicales. Mais la tomodensitométrie n'est pas assez précise pour diagnostiquer le stade de l'empyème. L'échographie semblerait plus fiable pour évaluer la nature du liquide pleural et a été choisie comme examen de référence pour tous les patients. Mais d'après ces études, l'échographie peut également surestimer l'évolution de la maladie et la décision chirurgicale peut être retardée. Pour ces raisons, les conclusions de ces études ne sont pas en mesure de prédire l'issue de nos patients, la durée d'hospitalisation ou le risque de complications. Elles mettent quand même en évidence le délai entre le diagnostic et la chirurgie comme le principal facteur pronostique du résultat post-opératoire de l'empyème. La limite de 4 jours est soutenue par des considérations physiopathologiques et correspond à l'évolution naturelle de l'organisation pleurale. Pourtant, l'efficacité du traitement non chirurgical ne doit pas être minimisée, et un bref essai préliminaire d'un traitement médical avec un drain thoracique dans un empyème non organisé pourrait réduire les indications chirurgicales excessives.

En Conclusion, le traitement précoce par thoracoscopie de la pneumopathie nécrosante peut être une option. Il accélère le rétablissement en comparaison du traitement médical seul et évite l'étendue de la résection pulmonaire faite tardivement. Bien que nous ne rapportions que 3 cas, la thoracoscopie semble être prometteuse dans cette nouvelle indication chez les jeunes enfants. Mais d'autres séries sont nécessaires pour le confirmer.

Références

1. Schultz KD, Fan LL, Pinsky J, et al. The changing face of pleural empyemas in children: epidemiology and management. *Pediatrics* 2004;113:1735 - 40.
2. Donnelly LF, Klosterman LA. CT appearance of parapneumonic effusions in children: findings are not specific for empyema. *AJR Am J Roentgenol* 1997;169:179 - 82.

Tamponnade péricardique & Thoracoscopie

La tamponnade péricardique ou la pré- tamponnade est une urgence médicale à haut risque de mort, qui nécessite une intervention immédiate. Cliniquement, il est caractérisé par une faible pression artérielle, une dilatation veineuse cervicale, des bruits du cœur atténués et un pouls paradoxal. Quand une quantité importante de liquide péricardique s'accumule, une tamponnade se développe nécessitant un drainage en urgence de celui-ci. Classiquement, ces patients étaient traités par thoracotomie gauche et péricardiotomie ou par une sternotomie médiane. L'arrivée des techniques mini-invasives a permis leur prise en charge efficace à la seule condition d'une bonne stabilité hémodynamique du patient. Nous avons été amenés à traiter ce type de pathologie chez un patient et nous l'avons publié dans le journal espagnol de chirurgie pédiatrique en 2012 ; il a fait l'objet de communications scientifiques internationales et nationales avec comité de lecture en tant que dernier auteur.

Tratamiento toracoscópico en taponamiento pericárdico

E. Pérez-Etchepare, A. Al Makki, F. Varlet, M. López

*Servicio Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Nuestra Señora de la Candelaria. Santa Cruz de Tenerife.
Service Chirurgie Pédiatrique. Centre Hospitalier Universitaire, Saint Etienne. Francia.*

RESUMEN

El taponamiento pericárdico constituye una verdadera emergencia médica poco frecuente en la edad pediátrica. Mostramos un paciente de 16 años de edad que presentó una neumonía localizada en lóbulo superior izquierdo, complicada con un absceso pulmonar y derrame pleural homolateral asociado a un derrame pericárdico. Se inició tratamiento endovenoso con antibióticos de amplio espectro, drenaje pulmonar izquierdo y pericardiocentesis.

A las 24 horas del postoperatorio presentó colapso circulatorio con aumento importante del derrame pericárdico. Se efectuó una tomografía computarizada de tórax y un ecocardiograma, mostrando un incremento del derrame pericárdico muy importante sin cambios en su patología pulmonar. Se realizó una ventana pericárdica por toracoscopía derecha, con mejoría clínica evidente y el ecocardiograma a las 24 horas del postoperatorio fue normal.

El abordaje toracoscópico en casos de taponamiento pericárdico es una alternativa útil, beneficiando al paciente de las ventajas de los abordajes mínimamente invasivos.

PALABRAS CLAVE: Taponamiento pericárdico; Toracoscopía.

THORACOSCOPIC TREATMENT IN PERICARDIAL TAMPONADE

ABSTRACT

Pericardial tamponade is a rare medical emergency in children. We describe a 16 years old patient, who presented with pneumonia localized in upper left lobe complicated with lung abscess and ipsilateral pleural effusion, associated with pericardial effusion. The initial treatment was: broad-spectrum antibiotics, left thoracic drainage and pericardiocentesis

After 24 hours postoperative, developed circulatory collapse with significant increase in pericardial effusion. The preoperative studies were thoracic CT-scann and echocardiography, showing an increase of pericardial effusion with no major changes in lung pathology. We per-

formed a pericardial window by right thoracoscopic. After this, quickly improved clinically and the echocardiography 24 hours postoperatively was normal.

The thoracoscopic approach in cases of pericardial tamponade is an useful alternative, benefiting the patient of minimally invasive approaches.

KEY WORDS: Pericardial tamponade; Thoracoscopy.

INTRODUCCIÓN

El taponamiento pericárdico es una emergencia médica con riesgo alto de muerte, que requiere una inmediata intervención. Clínicamente se caracteriza por presentar hipotensión arterial, dilatación venosa cervical, ruidos cardiacos hipofonéticos y presencia de pulso paradójico⁽¹⁾.

Cuando una importante cantidad de volumen de derrame pericárdico se acumula, el taponamiento se desarrolla rápidamente, necesitando drenaje urgente del mismo⁽¹⁾.

Típicamente, estos pacientes han sido tratados mediante pericardiotomía por toracotomía izquierda o esternotomía media⁽²⁾. El avance de los métodos mínimamente invasivos han permitido a estos pacientes beneficiarse con igual efectividad y mínima invasividad.

CASO CLÍNICO

Presentamos un paciente varón de 16 años de edad, con diagnóstico previo de parálisis cerebral, que presentó una neumonía superior izquierda complicada con absceso pulmonar, derrame pleural homolateral moderado y derrame pericárdico moderado.

Se inició tratamiento con antibióticos de amplio espectro, drenaje pleural izquierdo y pericardiocentesis guiada con ecografía. Durante las primeras 12 horas se evacuaron 300 ml de líquido purulento.

La pericardiocentesis drenó unos 50 ml de líquido serohemático. En las 24 horas posteriores, el paciente presentó

Correspondencia: Dr. Eduardo Pérez-Etchepare. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Nuestra Señora de la Candelaria. Santa Cruz de Tenerife.

E-mail: perezetchepare@gmail.com

Presentado en 20 Réunion du GECl. Tours. Francia, 2011

Recibido: Enero 2012

Aceptado: Enero 2013

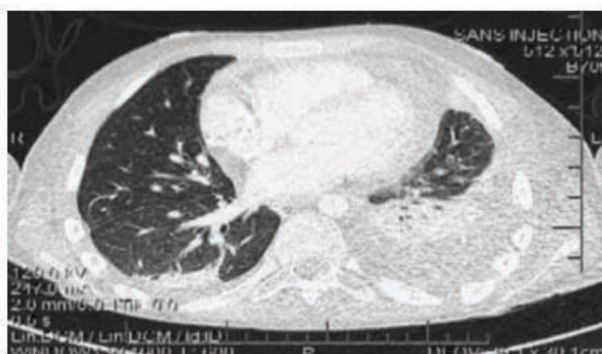


Figura 1. TAC de tórax preoperatoria: neumonía superior izquierda complicada con absceso pulmonar, asociada a derrame pleural homolateral moderado y derrame pericárdico moderado.

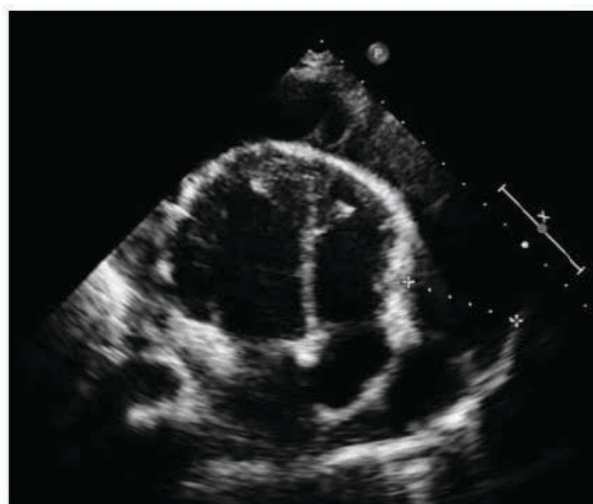


Figura 2. Ecocardiografía prequirúrgica: derrame pericárdico.

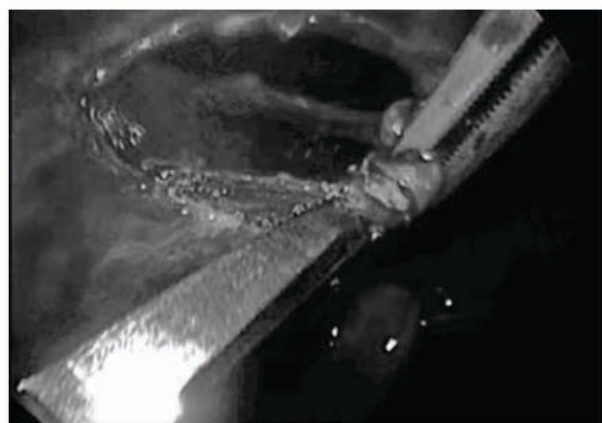


Figura 3. Apertura pericardio toroscópico.

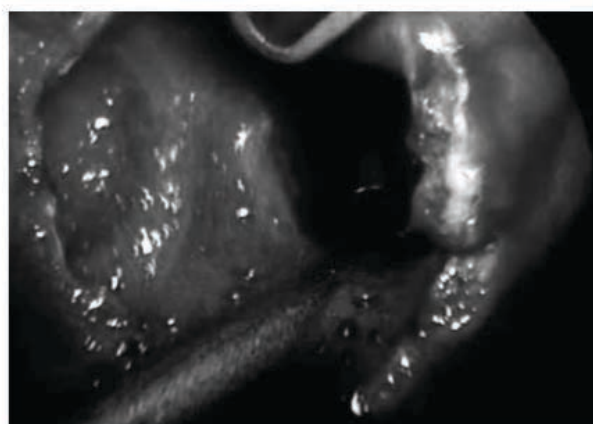


Figura 4. Ventana pericárdica. Lavado cavidad pericárdica.

un colapso circulatorio agudo con importante aumento del derrame pericárdico constatado por ecocardiograma.

Dado el empeoramiento del cuadro clínico, se realizó una tomografía computarizada de tórax que mostró un importante derrame pericárdico sin cambios en la patología pulmonar (Fig. 1). Se completó la evaluación con una ecocardiografía que mostraba una acumulación de líquido pericárdico de aproximadamente 4 cm de separación máxima entre el pericardio y el miocardio, predominando a nivel del ventrículo derecho (Fig. 2).

En la intervención quirúrgica se colocó al paciente en decúbito supino, con intubación selectiva del bronquio izquierdo. Se abordó por toracoscopia derecha usando 3 trocares de 5 mm, situando uno en séptimo espacio intercostal y línea media axilar para la óptica de 30°. Los otros dos trocares se colocaron en línea axilar anterior, en tercer y séptimo espacio intercostal, respectivamente. La insuflación de CO₂ utilizada fue de 2-4 mmHg.

Inicialmente, el nervio frénico fue localizado para evitar maniobras que pudieran lesionarlo. Bajo visión toroscópica realizamos una pericardiocentesis a nivel del ventrículo derecho, justo donde veíamos máxima acumulación de líquido.

Comenzamos en la misma zona de punción del pericardio a realizar la ventana pericárdica, utilizando tijeras y disector con coagulación monopolar (Fig. 3). El avance fue lento, dificultado por el movimiento constante del corazón por sus latidos. Cuando el pericardio fue abierto, rápidamente observamos salida de un líquido serohemático. En este momento, la presión arterial media registró una mejoría rápida, elevándose en 40 mmHg.

Se amplió la apertura del pericardio a unos 3 cm cuadrados aproximadamente, lo que permitió lavar convenientemente el espacio pericárdico con abundante solución fisiológica (Fig. 4). Finalmente, se dejó un drenaje torácico de 16 Fr., exteriorizado por el orificio inferior de los trócares.

Durante las primeras 24 horas del postoperatorio no se observaron complicaciones. El débito del drenaje pleural derecho fue de escaso líquido serohemático. El débito del drenaje pleural izquierdo fue de 30 ml de líquido seroso. El paciente se encontraba estable hemodinámicamente y el ecocardiograma postoperatorio era normal (Fig. 5). Por

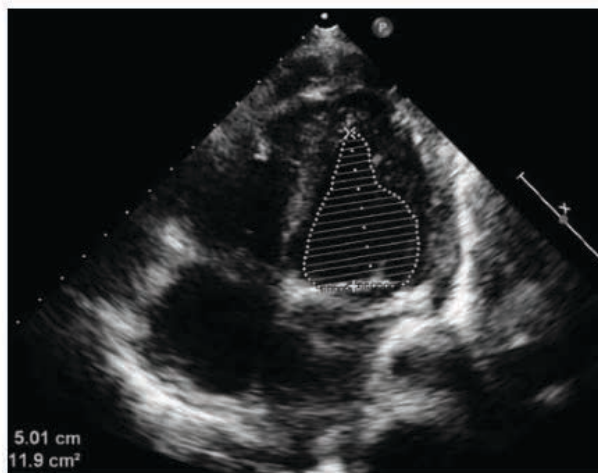


Figura 5. Ecocardiograma postoperatorio: normal.

estas razones se decidió retirar ambos drenajes pleurales. A las 72 horas postoperatorias, el paciente fue trasladado a sala de hospitalización para continuar con su tratamiento antibiótico intravenoso, completando finalmente 10 días antes del alta.

DISCUSIÓN

Clásicamente, las pericardiectomías han sido realizadas por toracotomía o esternotomía media. Sin embargo, el traumatismo muscular y los cambios postoperatorios en la función respiratoria prolongan el tiempo de recuperación. El abordaje toracoscópico fue inicialmente realizado en animales de estudio. Aquellos estudios mostraron que el abordaje toracoscópico ofrece importantes ventajas sobre la cirugía abierta, incluyendo menos dolor postoperatorio, menos complicaciones de tejido blando y mejor resultado estético⁽²⁻⁴⁾.

Se decidió intervenir quirúrgicamente a nuestro paciente por vía toracoscópica, buscando las ventajas anteriormente mencionadas. Para elegir el lado de abordaje optamos por el lado derecho, teniendo en cuenta la enfermedad pulmonar del lado izquierdo.

Creemos que un paso inicial y fundamental de la cirugía es visualizar el nervio frénico para evitar posibles lesiones. La zona elegida del pericardio para realizar la ventana pericárdica fue determinada previamente según el hallazgo ecocardiográfico, donde se visualizaba mayor acumulación de líquido y confirmada durante la cirugía con la pericardiocentesis previa a iniciar la apertura del pericardio. De esta manera se puede elegir una adecuada zona para la realización de la ventana pericárdica, minimizando la posibilidad de complicaciones.

CONCLUSIÓN

El abordaje toracoscópico de pacientes con diagnóstico de taponamiento pericárdico es un método útil que combina alta efectividad y beneficia al paciente de las ventajas de los métodos mínimamente invasivos.

BIBLIOGRAFÍA

1. Crain E, Gershel J. Pericardial Tamponade. Clinical Manual of Emergency Pediatrics. 5th edition. Cambridge University; 2010.
2. Liem N, Tuan T, Dung L. Thoracoscopic pericardiectomy for purulent pericarditis: experience with 21 cases. J Laparoendosc Adv Surg Tech A. 2006; 16: 518-21.
3. Walsh P, Remedios A, Ferguson J, Walker D. Thoracoscopic versus open partial pericardectomy in dogs: comparison of postoperative pain and morbidity. Vet Surg. 1999; 28: 472-9.
4. Dupre G, Corlouer J, Bouvy B. Thoracoscopic peri-cardectomy performed without pulmonary exclusion in 9 dogs. Vet Surg. 2001; 30: 21-7.

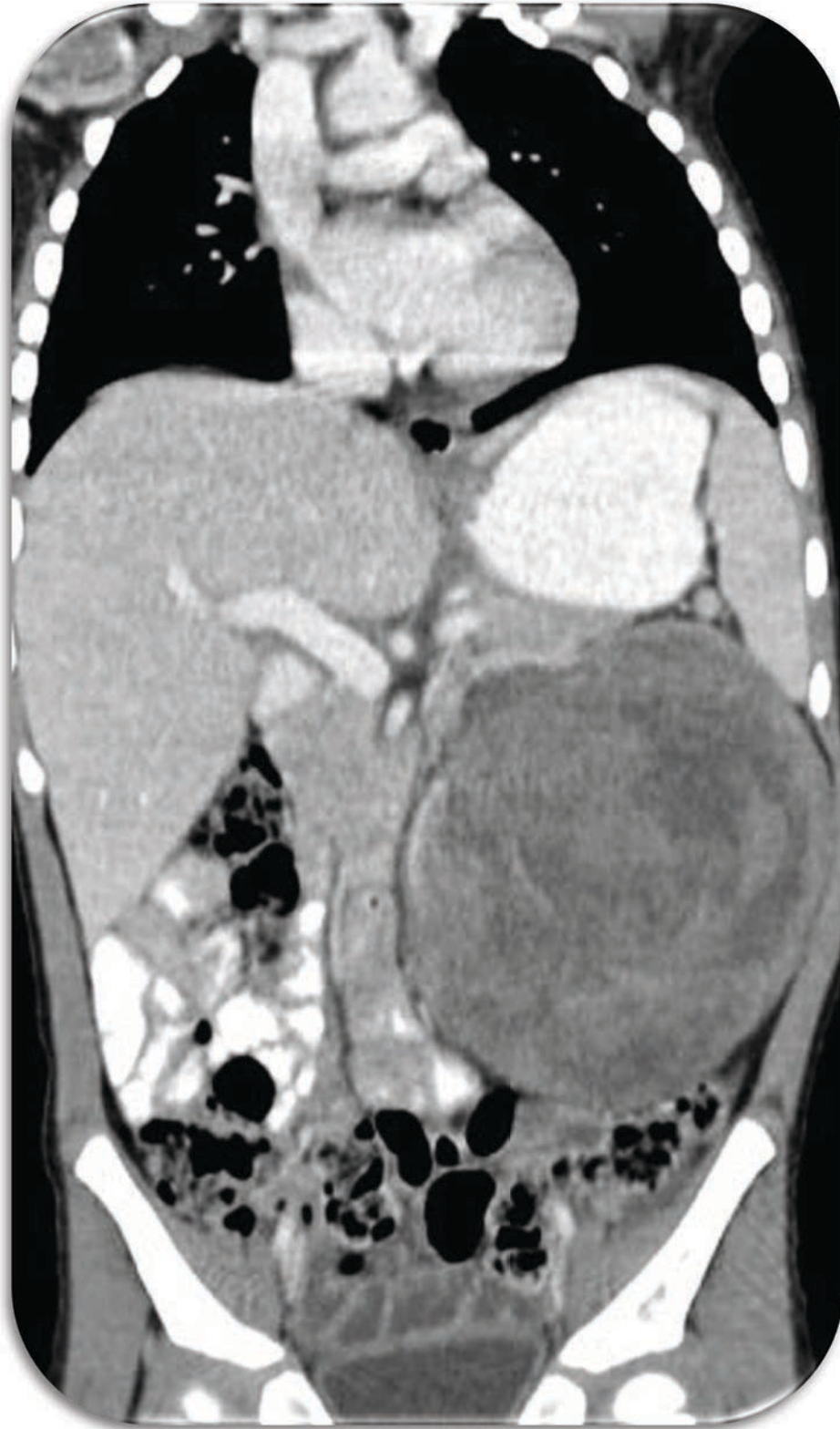
Commentaires de l'article,

Classiquement, la péricardiectomie pour tamponnade était réalisée par thoracotomie ou sternotomie médiane. L'approche thoracoscopique a été initialement réalisée chez les animaux (1). Ces études ont montré que l'approche thoracoscopique offre des avantages significatifs sur la chirurgie ouverte. Dans notre cas, nous avons choisi le côté droit compte tenu de la maladie du poumon gauche et du volume de l'épanchement plus important à droite. La bonne visualisation du nerf phrénique a permis de bien choisir la zone pour la fenêtre péricardique, réduisant ainsi le risque de complications. L'approche thoracoscopique des patients diagnostiqués avec une pré-tamponnade péricardique et une stabilité hémodynamique, est une méthode utile qui combine la haute efficacité et les avantages de la technique mini-invasive.

Références

1. Walsh P, Remedios A, Ferguson J, Walker D. Thoracoscopic versus open partial pericardectomy in dogs: comparison of postoperative pain and morbidity. *Vet Surg.* 1999; 28: 472-9.

Chirurgie Oncologique



Tumeur de Wilms & Coelioscopie

Le néphroblastome ou tumeur de Wilms est la tumeur rénale la plus fréquente chez l'enfant; elle reste rare, touchant un enfant pour 1,2 million d'habitants soit environ 80 cas par an en France. Le néphroblastome est une tumeur solide dont le pronostic s'est beaucoup amélioré grâce à l'utilisation du traitement associant chimiothérapie, chirurgie, et parfois radiothérapie, avec une survie globale supérieure à 90 %. Les progrès et les bons résultats conduisent à élaborer des stratégies de « désescalade » thérapeutique dont l'objectif est de réduire la toxicité des traitements sans compromettre le résultat oncologique. Dans ce contexte, la communauté chirurgicale pédiatrique se devait de mener une réflexion sur les moyens de diminuer « le poids » de la chirurgie dans la prise en charge de ces enfants, parmi lesquels le recours à des techniques chirurgicales moins invasives comme la coelioscopie.

Le traitement chirurgical reconnu est la néphrectomie totale élargie par laparotomie. En chirurgie pédiatrique oncologique, la coelioscopie est utilisée depuis une quinzaine d'années et représente une bonne voie d'abord pour réaliser des biopsies ou faire l'exérèse de certaines tumeurs, notamment des neuroblastomes de petite taille. Duarte a rapporté en premier deux cas de néphroblastome traités par néphrectomie élargie sous coelioscopie en 2004 et dans le même temps nous réalisons notre premier cas chez une jeune fille de 11 ans porteuse d'un carcinome juvénile du rein avant de traiter plusieurs néphroblastomes. Le nombre de publications sur ce sujet reste encore restreint; une partie des chirurgiens pédiatres redoute une augmentation des complications oncologiques, en particulier du nombre de ruptures tumorales peropératoires, qui serait alors responsable d'un nombre considérable de radiothérapie complémentaire dont on connaît notamment les risques de séquelles sur la

croissance vertébrale chez l'enfant.

Sur ce sujet, l'équipe de Saint Etienne sous la direction du Pr. François Varlet est devenue pionnière au niveau mondial, et plusieurs publications ont été effectuées : une première en 2009 sur l'expérience stéphanoise ; une deuxième en 2014 réunissant l'expérience des différents centres au niveau national et représentant la série la plus importante publiée dans la littérature ; et une troisième publication rapportée dans les mémoires de l'Académie Nationale de Chirurgie en 2013. Le but de tous ces travaux a été de montrer la faisabilité de la néphrectomie totale élargie sous cœlioscopie chez l'enfant et de faire le point sur les complications chirurgicales et oncologiques du traitement des néphroblastomes.

La notoriété du service et la qualité de ces travaux sur les tumeurs de Wilms a entraîné de nombreuses invitations dans différentes sociétés savantes au niveau national et international de Pédiatrie, d'Oncologie, et de groupes internationaux de Cœlioscopie. Des critères d'inclusion ont été proposés afin de sélectionner les enfants pouvant bénéficier des techniques mini-invasives et d'éviter de prendre des risques importants de rupture tumorale per-opératoire.

Ces études ont été publiées dans le Journal of Surgical Endoscopic Percutaneous Technique en 2009, dans les mémoires de l'Académie Nationale de Chirurgie en 2013, et dans le Journal of Pediatric Urology en 2014. Ces publications ont fait l'objet des communications avec comité de lecture en tant qu'auteur, et dans des congrès scientifiques internationales et nationaux et des tables rondes à fin d'évaluer les apports et limites de l'innovation en chirurgie oncologique.

Laparoscopic Radical Nephrectomy for Unilateral Renal Cancer in Children

François Varlet, PhD,* Jean Louis Stephan, PhD,† Emmanuelle Guye, MD,* René Allary, MD,‡
Claire Berger, MD,† and Manuel Lopez, MD*

Purpose: At the present time, the standard approach for renal cancer in children is open surgery, and the role of laparoscopic approach remains to be defined. We report our preliminary experience in the treatment by laparoscopic radical nephrectomy (LRN) for unilateral renal cancer in children.

Methods: Five children, whose mean age was 4 years old, were operated for unilateral renal malignant tumors by laparoscopic approach in our unit from October 2005 to June 2007. Four cases were suspected of Wilms tumors and one of them presented bilateral lung metastases. They were preoperatively treated with chemotherapy according to the International Society of Pediatric Oncology 2001 protocol: vincristine and actinomycin D for 4 weeks. The fifth case was a 10-year-old child, treated 8 years before with chemotherapy for a cerebellar vermis medulloblastoma history. A percutaneous biopsy was performed preoperatively and the histology showed a juvenile renal-cell carcinoma. All cases subsequently underwent LRN. Four trocars were used in each case and the tumors were placed in a bag before being extracted intact without morcellation through a low suprapubic incision.

Results: All tumors and lymph node samples were removed completely by laparoscopy without rupture. No conversion to laparotomy was necessary and there was neither intraoperative bleeding nor complications. The mean operative time was 90 minutes (60 to 117 min). Postoperatively, 1 child presented an intestinal perforation and suture closure was performed by laparoscopy on the third postoperative day; the discharge was after 10 days, and the others were discharged after 2 or 3 days. In all cases, the resection was microscopically complete. The histology was 3 unilateral Wilms tumor, 1 clear-cell sarcoma and 1 juvenile renal-cell carcinoma with $t(X;17)$. No lymph node was positive for the tumors. None of these patients presented evidence of tumoral recurrences, port-site implantation or short-term complications at a mean of 18 months of follow-up (range: 12 to 32 mo).

Conclusions: LRN for renal cancer in children is feasible after preoperative chemotherapy, with the same oncologic strategies as open surgery. A long follow-up and more cases are necessary to evaluate and compare the results of laparoscopic approach with the open procedures.

Key Words: children, renal cancer, minimally invasive surgery (MIS), laparoscopy

(*Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2009;19:148–152)

Received for publication March 7, 2008; accepted January 9, 2009.
From the Departments of *Pediatric Surgery; †Pediatric Anaesthesiology; and ‡Pediatric Oncology, Centre Hospitalier Universitaire, Saint Etienne, France.

Reprints: Manuel Lopez, MD, Service de Chirurgie Pédiatrique, Hôpital Nord, Saint Etienne, Cedex 2 42055, France (e-mail: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr).

Copyright © 2009 by Lippincott Williams & Wilkins

Minimally invasive surgery (MIS) can be used for diagnosis by biopsies and treatment by resections in various malignant solid tumors in children.¹ There has been no study reporting a formal comparison between MIS and conventional open surgery in pediatric solid tumors, probably owing mainly to the very small number of patients in each subgroup and variability of the relevant parameters to be studied according to the indications.

Concerning the renal tumors in children, the Wilms tumor (WT) is the most common renal malignancy. Approximately 90% of children with WT can be cured with the combination of chemotherapy, surgery, and radiotherapy. The surgical standard of renal cancer in children is open surgery and the role of the laparoscopic approach remains to be defined.

In adult literature, the laparoscopic radical nephrectomy (LRN) has been shown to be less morbid than traditional open radical nephrectomy, and confers long-term oncologic effectiveness equivalent to traditional open radical nephrectomy.²

The purpose of this study is to report our experience of LRN for unilateral renal cancer in children after chemotherapy, to describe the laparoscopic technique, postoperative evolution, and the results for each patient and to evaluate the feasibility of this technique.

MATERIALS AND METHODS

The criteria for selection in our initial experience for LRN in unilateral renal tumors were based on unilateral renal tumors, size after chemotherapy without crossing the midline, and absence of renal or cava thrombus.

From October 2005 to June 2007 5 consecutive children with unilateral renal cancer underwent LRN procedure. The patient population consisted of 2 males and 3 females, with a mean age of 4 years (range: 11 mo to 10 y) and a mean weight of 18 kg (range: 8 to 38 kg). Three patients had a tumor in the right kidney and 2 in the left kidney (Table 1). The neoplasms were suspected by clinical examination, and the preoperative staging tests were: chest x-ray, abdominal ultrasonography, and computed tomography (CT) scan. The evaluation of the contralateral kidney was obtained by imaging.

Four cases were suspected of WT, and one of them presented bilateral lung metastases; they were preoperatively treated according to the International Society of Pediatric Oncology (SIOP) 2001 protocol comprising vincristine and actinomycin D for 4 weeks. After chemotherapy, the patients were reevaluated with abdominal and thoracic CT to assess the reduction in tumoral dimensions in 3 cases, and disappearance of metastasis in 1 case. Only one of them presented an increase of tumor

TABLE 1. Characteristics of the Patients

| Case | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 |
|--|-------------------------------|-----------------|------------------------|------------------------|-----------------|
| Age (y) | 10 | 7 | 2 | 1 | 1 |
| Sex | F | F | M | M | F |
| Weight (kg) | 38 | 22 | 12 | 8 | 8 |
| Side of tumor | Right | Left | Left | Right | Right |
| Size of tumors before chemotherapy (mm) | 48 × 45 × 30 | 103 × 86 × 73 | 47 × 44 × 43 | 37 × 35 × 35 | 85 × 72 × 65 |
| Size of tumor after chemotherapy before surgery (mm) | — | 50 × 47 × 34 | 50 × 43 × 43 | 45 × 35 × 35 | 50 × 42 × 40 |
| Metastases | — | + | — | — | — |
| Histology | Juvenile renal-cell carcinoma | WT intermediate | Cystic WT intermediate | Clear-cell sarcoma | WT intermediate |
| Blood loss (mL) | 0 | 0 | 0 | 0 | 0 |
| Complication | — | — | — | Intestinal perforation | — |
| Operative time (min) | 117 | 60 | 120 | 60 | 97 |
| Stay (d) | 2 | 3 | 2 | 10 | 2 |
| Sampling lymph nodes (no.) | 2 | 3 | 4 | 3 | 3 |

F indicates female; M, male; WT, Wilms tumor.

size, and this case was suspected to be a different tumor than WT. After chemotherapy, the median tumor dimension on CT was 49 × 43 × 37 mm. The fifth case was a 10-year-old child, treated 8 years before with chemotherapy for a cerebella vermis medulloblastoma history. This case was suspected for a second tumor, and a percutaneous biopsy was performed by 18 Fr needle and the specimen showed a juvenile renal-cell carcinoma, needing no preoperative chemotherapy (Fig. 1).

After informed consent was obtained from the parents, all cases subsequently underwent LRN

Laparoscopic Technique

Under general anesthesia, all patients underwent a transperitoneal approach. The patient was positioned at 60 degrees lateral decubitus with the interest side up. The first port was a 5 mm or 7 mm-port for telescope, placed by a trans-umbilical approach with an open technique. The abdominal insufflation with CO₂ was 10 to 12 mm Hg. Three other 5 mm-ports were placed under laparoscopic vision subcostally in the anterior axillary's line, another was placed in the iliac fossa and the last one in the hypochondria (Fig. 2A). The procedure started by complete inspection of the abdominal cavity. The nephrectomy was initiated by opening the peritoneum on the outside of the colon and releasing it to expose the retroperitoneal structures. The anterior surface of the aorta and vena cava was cleared of overlying lymphatic and adventitial tissue up to the level of the renal vein. The involved renal artery and vein were coagulated only with Ligasure (Tyco healthcare, 78990 elancourt, France) in sequential fashion, and the surrounding soft tissue attachments of the kidney were divided. The ureter was isolated down to the level of bladder and sectioned. The perirenal fat was removed, and the periaortic lymph nodes were included. Adequate sampling of regional lymph nodes and hilar nodes was obtained, with no neoplastic cell spillage. The tumor was placed in a bag and was extracted intact without morcellation, through a low suprapubic incision, large enough to avoid a tumoral rupture.

RESULTS

Laparoscopy was performed for treatment purposes in 5 cases and was successful in all 5 cases. All tumors and

lymph node samples were removed completely by LRN without rupture. The samplings of lymph node were obtained after kidney removal, with the median between 3 and 4 lymph nodes in all cases. No conversion to laparotomy was necessary and there were neither intra-operative bleeding nor complications. The mean operative time was 90 minutes (60 to 117 min). Oral intake was restarted 8 hours after surgery, except in one case. In the postoperative period, this child presented an intestinal perforation and was sutured by laparoscopy on the third postoperative day. We reviewed the video tape but did not find the traumatic cause for this perforation; the lesion occurred probably at the moment of the closure of trocar holes, and the discharge in this case was after 10 days. The mean hospital stay in the other 4 patients was 2 days (2 to 3 d). The histology was a unilateral WT in 3 cases (stages I, II, and IV) and a clear cell sarcoma in 1 case, and for this patient the treatment was completed by chemotherapy and radiotherapy as recommended by SIOP 2001 protocol. The histology in the nodes sampling were negatives in all cases. The last case was a juvenile renal-cell carcinoma with *t(X;17)*. None of these patients presented evidence of tumoral recurrences, port-site implantation or short-term complications. The median follow-up was 18 months (range: 12 to 32 mo). The cosmetic result was satisfactory (Fig. 2B).

DISCUSSION

The standard surgical approach for renal tumors is open conventional surgery, especially for malignant tumors, and requires in most cases long and deep incisions with a long recovery period. There has been a legitimate concern regarding the use of laparoscopic techniques for malignant diseases.

Potential advantages of MIS techniques include decreased parietal trauma, cosmetic benefit, less bowel adhesions, less postoperative discomfort, less pain, less analgesics requirement, less postoperative ileus, and shorter length of hospital stay. The decision to perform this technique usually depends on the experience of the surgical team.

In adult literature LRN has become the standard of care for stage T1 renal cancer since its initial description by



FIGURE 1. Preoperative computed tomography scan in each patient. A, Juvenile renal-cell carcinoma. B, Cystic Wilms tumor. C, Wilms tumor after chemotherapy. D and E, Wilms tumor before and after chemotherapy. F, Clear-cell sarcoma.

Clayman et al in 1991.³ Multiple institutions have verified the efficacy and safety of the procedure since its inception.^{2,4} Furthermore, compared with open radical nephrectomy; the laparoscopic approach has shown to be superior in postoperative recovery, owing to less intraoperative bleeding, less painful postoperative course, more rapid hospital discharge, and minimal scars, with equal oncologic efficacy.^{5,6} MIS procedures are well recognized as successful even for aggressive malignant renal tumors such as renal carcinomas.⁷ However, its efficacy and safety for larger tumors has yet to be established. In 1999, Abbou et al⁶ confirmed that the LRN was only efficacious for tumors up to 5 cm, with a risk of cancer spillage for larger tumors, although several series have included the procedures on tumors larger than 7 cm.^{2,8} The risk of tumoral dissemination, especially when performing biopsies, could increase tumor stage, depending on the type of tumor. Some tumors as WT can be treated successfully, with 90% of cases being cured but carrying a major risk of seeding when ruptured or biopsied.

The multidisciplinary management of WT, the most common renal malignancy in children, can be cured with the combination of chemotherapy, surgery, and radiotherapy. With such good results, concern about treatment morbidity is an important issue and has resulted in striking survival improvement from 30% in the 1930s to more than 85% at present, and has become a paradigm of successful cancer therapy.⁹

Surgery is the mainstay of therapy in WT, and the extent of resection, that is, the ability to perform a complete resection without microscopic residue or any spillage, is a major prognostic factor to avoid a regional relapse. In case of WT, the SIOP protocols have always recommended preoperative chemotherapy because it is able to reduce tumor size, to induce a pseudocapsula, to decrease the incidence of rupture, and to allow a safe manipulation without rupture, especially in WT.¹⁰ Within the SIOP protocol, tumor biopsy is not recommended because of possible tumor spread after needle biopsy, and studies have reported recurrences in the abdominal wall after this needle biopsy.

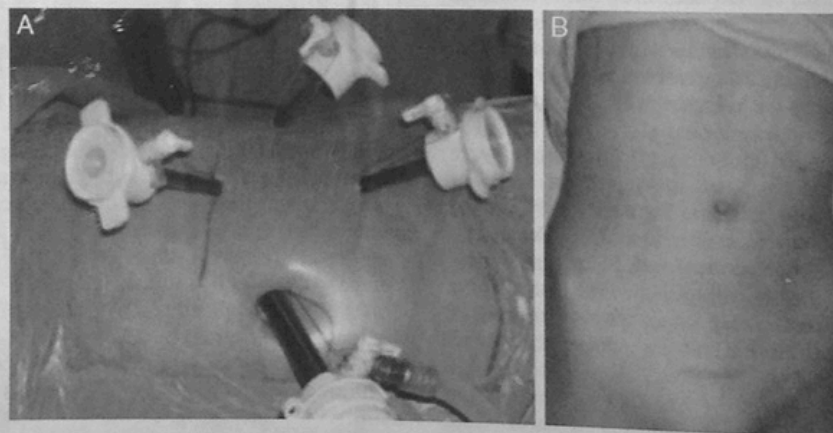


FIGURE 2. A, Trocar position for a left nephrectomy with drawing of the suprapubic incision and possible laparotomy. B, Cosmetic result at 2 postoperative months.

For the same reason, when a biopsy is indicated for another renal tumor, it should always be performed percutaneously with a fine needle via an extra peritoneal route to avoid peritoneal seeding. Therefore, the laparoscopy has no place in diagnosis.

Additionally, the issue of partial nephrectomy is controversially discussed but is a reasonable alternative to LRN if strict guidelines such as excellent tumor response to preoperative chemotherapy and easy resectability far away from the tumor margins through healthy kidney tissue are followed. Partial nephrectomy prevents the patient from having to have dialysis in cases of contralateral nephrectomy resulting from metachronous WT or subsequent renal trauma.¹²

In adult literature partial nephrectomy has been established as a standard of care for T (1a) renal tumors. Laparoscopic partial nephrectomy has been described as more difficult to perform than open partial nephrectomy; despite increased operative and ischemia times, laparoscopic partial nephrectomy patients demonstrated quicker recovery and fewer postoperative complications.¹³

The value of laparoscopic procedures in pediatric urology has been well established¹⁴; however, the role of this procedure in pediatric surgical oncology remains a challenge and has to be defined. The data on LRN for WT in English literature are scarce. A previous report of MIS for unilateral WT in children was described by Duarte in 2004¹⁵ and 2006¹⁶ for unilateral WT by laparoscopy in 8 cases with good results. They showed that LRN is feasible after preoperative chemotherapy, including for rather large tumors. Renal tumors with a median diameter of 10 cm were extracted through a suprapubic incision. The follow-up is short, but satisfactory. Local control was achieved, as only a 1/8 tumor had microscopic residual disease and required flank radiotherapy. In other malignant renal tumors removed by laparoscopy, only one case report was found in a pediatric population; which was an Ewing's sarcoma of the kidney. The patient underwent a right-hand assisted LRN without local recurrence or any metastatic disease after 1 year follow-up.¹⁷ These indications are debatable considering the risk and the prognosis of local or regional relapse when it occurs. A prospective registration of performed cases seems mandatory to allow evaluation of the technique and its indications.¹⁸

Intestinal obstruction is one of the most common postoperative complications after nephrectomy for WT in open surgery. Postoperative small bowel obstruction occurred in 131 of 1910 children (6.9%) enrolled in the third National Wilms' Tumor Study, although the overall incidence of small bowel obstruction after nephrectomy for WT is comparable with that after other major abdominal operations in children. It can be responsible for a significant morbidity; there were 4 children among the 1910 patients with infectious complications owing to the small bowel obstruction, responsible for their death.¹⁹

In the literature, bowel injury is a rare but serious complication of laparoscopic surgery and the incidence is 0.22%. The small bowel is most frequently injured, followed by the colon, but in at least 66.8% of bowel injuries the diagnosis is made during procedure or within 24 hours thereafter. A trocar or Veress needle cause the most bowel injuries (41%), followed by a coagulator (25, 6%).²⁰ Among our patients, 1 child presented a small bowel perforation after the procedure and was suture by laparoscopy on the third postoperative day. The video tape was

reviewed and did not show a laparoscopic cause of the bowel injury. We suspect an injury during the closure of trocar holes. Our experience with laparoscopic procedure began in 1990, and to date we have performed over 3000 procedures. Only 2 bowel injury complication occurred. In 2007 Tian et al²¹ reported the major complications among 4307 operative gynecologic laparoscopies: 34 complications occurred in 31 patients requiring repair procedures, including 7 inadvertent bowel injuries. Binenbaum and Goldfarb in 2006²² reported 3613 consecutive patients who had laparoscopic abdominal surgery over 6 years, and 20 patients had inadvertent enterotomies, and 4 patients of them (19%) with unrecognized inadvertent enterotomies were diagnosed. Inadvertent enterotomy in laparoscopic abdominal surgery is especially dangerous if unrecognized during the primary operation. The incidence can be significantly reduced with careful individualized risk assessment. Only surgeons who are trained in advanced laparoscopy should attempt complicated cases, and must always be wary of possible bowel injury.

In conclusion, LRN in children for renal cancer is feasible after preoperative chemotherapy by experiment surgeons in oncology and laparoscopic procedures, with the same oncologic strategies as open surgery, giving the advantage that the tumor needs less mobilization before vessel coagulation, and leads to less blood loss. The laparoscopic approach not only improves the convalescence, pain, hospital stay, and cosmetic outcome in these patients, but also allows planned postoperative chemotherapy or radiation therapy to proceed at an earlier date than open procedure.

The criteria for selection to allow performed LRN in unilateral renal tumors are necessary. We propose that such criteria could be on the basis of unilateral renal tumors, size of tumors postchemotherapy without crossing the midline, and absence of the thrombus in the renal or cava vein. The tumors beyond the midline after chemotherapy, thrombus of the renal and caval vein, and primary tumors not treated with preoperative chemotherapy could be contraindications, and the open surgical procedure is still the standard care.

The size of the tumor may also be a contraindication, but depending on the size and age of the child, if a large tumor can be extracted by a suprapubic incision without rupture, the size is not a problem; this incision has to be large enough to avoid this complication. It seems reasonable that a low suprapubic incision for removal of the tumor is not only more cosmetic than flank incision but probably better tolerated by patients.

However, multicenter prospective studies, a long follow-up, and more cases are necessary to evaluate and compare the results of the laparoscopic approach with open surgery.

REFERENCES

- Holcomb GW, Tomita SS, Haze GM. Minimally invasive surgery in children with cancer. *Cancer*. 1995;76:121-128.
- Ports AJ, Yan Y, Landsman J, et al. Long-term follow-up after laparoscopic radical nephrectomy. *J Urol*. 2002;167:1257-1262.
- Clayman RV, Kaposi LR, Super NJ, et al. Laparoscopic nephrectomy: initial case report. *J Urol*. 1991;146:278-282.
- Barrette PH, Fente DD, Arranger LA. Laparoscopic radical nephrectomy with morcellation for renal cell carcinoma: the Saskatoon experience. *Urology*. 1998;52:23-28.

5. Dunn MD, Ports AJ, Halvah AL, et al. Laparoscopic versus open radical nephrectomy: a 9-year experience. *J Urol*. 2000;164:1153-1159.
6. Abbou CC, Cisco A, Gasman D, et al. Retroperitoneal laparoscopic versus open radical nephrectomy. *J Urol*. 1991;161:1776-1780.
7. McDougall EM, Clayman RV, Elusory O. Laparoscopic nephroureterectomy for upper tract transitional cell cancer. *J Urol*. 1995;154:975-979.
8. Chan DY, Cadeddu JA, Jarrett TW, et al. Laparoscopic radical nephrectomy: cancer control for renal cell carcinoma. *J Urol*. 2001;166:2095-2100.
9. Kalapurakal JA, Dome JS, Perlman EJ, et al. Management of Wilms' tumour: current practice and future goals. *Lancet Oncol*. 2004;5:37-46.
10. Graf N, Tournade MF, de Kraker J. The role of preoperative chemotherapy in the management of Wilms' tumours. The SIOP studies. International Society of Pediatric Oncology. *Urol Clin North Am*. 2000;27:443-454.
11. Lee IS, Nguyen S, Shanberg AM. Needle tract seeding after percutaneous biopsy of Wilms' tumour. *J Urol*. 1995;153:1074-1076.
12. Linni K, Urban C, Lackner H, et al. Nephron-sparing procedures in 11 patients with Wilms' tumor. *Pediatr Surg Int*. 2003;19:457-462.
13. Gong EM, Orvieto MA, Zom KC, et al. Comparison of laparoscopic and open partial nephrectomy in clinical T(1a) renal tumors. *J Endourol*. 2008. [Epub ahead of print].
14. Steyaert H, Valla JS. Minimally invasive urologic surgery in children: an overview of what can be done. *Eur J Pediatr Surg*. 2005;15:307-313.
15. Duarte RJ, Denes T, Cristofani LM, et al. Further experience with laparoscopic nephrectomy for Wilm's tumours after chemotherapy. *BJU Int*. 2006;98:155-159.
16. Duarte RJ, Denes T, Cristofani LM, et al. Laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumours after chemotherapy: initial experience. *J Urol*. 2004;172:1438-1440.
17. Perer E, Shanberg AM, Matsunaga G, et al. Laparoscopic removal of extraosseous Ewing's sarcoma of the kidney in a pediatric patient. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2006;16:74-76.
18. Varlet F, Reinberg O, Becmeur F, et al. Laparoscopie et Cancer chez l'enfant. *J Coelochir*. 2001;37:27-32.
19. Ritchey ML, Kelalis PP, Etzioni R, et al. Small bowel obstruction after nephrectomy for Wilms' tumor. A report of the National Wilms' Tumor Study-3. *Ann Surg*. 1993;218:654-659.
20. Van der Voort M, Heijnsdijk EA, Gouma DJ. Bowel injury as a complication of laparoscopy. *Br J Surg*. 2004;91:1253-1258.
21. Tian YF, Lin YS, Lu CL. Major complications of operative gynecologic laparoscopy in southern Taiwan: a follow-up study. *J Minim Invasive Gynecol*. 2007;14:284-292.
22. Binenbaum SJ, Goldfarb MA. Inadvertent enterotomy in minimally invasive abdominal surgery. *JSLs*. 2006;10:336-340.



Apports et limites de l'innovation en chirurgie oncologique (SFCE, SFCEP)

Table ronde

Néphrectomie par cœlioscopie en oncologie pédiatrique

F. Varlet^{a,*}, T. Petit^b, M.-D. Leclair^c, H. Lardy^d, S. Geiss^e, F. Becmeur^f, P. Ravasse^b, J. Rod^b, G. de Lambert^d, K. Braik^d, F. Lavrand^g, F. Lardellier-Reynaud^a, M. Lopez^a

^aService de chirurgie pédiatrique, hôpital Nord, CHU, 42055 Saint-Étienne Cedex 2, France

^bCHU Caen, avenue de la Côte-de-Nacre, CS 30001, 14033 Caen Cedex 9, France

^cCHU Nantes, 7, quai Moncoussu, 44093 Nantes Cedex 1, France

^dCHU Tours, 37044 Tours Cedex 9, France

^eCH Colmar, 39, avenue de la Liberté, 68024 Colmar Cedex, France

^fCHU Strasbourg, 1, place de l'Hôpital, 67000 Strasbourg, France

^gCHU Bordeaux, 12, rue Dubernat, 33404 Bordeaux Cedex, France

Le néphroblastome ou tumeur de Wilms est la tumeur rénale la plus fréquente chez l'enfant mais elle reste rare, touchant un enfant pour 1,2 million d'habitants, soit environ 80 cas par an en France. Le néphroblastome est une tumeur solide dont le pronostic s'est beaucoup amélioré grâce à l'utilisation du traitement associant chimiothérapie, chirurgie, et parfois radiothérapie, avec une survie globale supérieure à 90 %. Les progrès et les bons résultats conduisent à élaborer des stratégies de « désescalade » thérapeutique dont l'objectif est de réduire la toxicité des traitements sans compromettre le résultat oncologique. Dans ce contexte, la communauté chirurgicale pédiatrique mène une réflexion sur les moyens de diminuer le poids de la chirurgie dans la prise en charge de ces enfants, parmi lesquels le recours à des techniques chirurgicales moins invasives comme la cœlioscopie ou laparoscopie.

D'avril 2006 à janvier 2014, une néphrectomie totale élargie sous cœlioscopie a pu être effectuée pour un cancer du rein de petite taille chez 20 enfants dans 7 centres de chirurgie pédiatrique, représentant environ 20 % des enfants opérés de néphroblastome dans ces centres durant la même période. Il s'agissait de 9 filles et 11 garçons avec un âge moyen de 33,1 mois (1 mois/10 ans et 10 mois). La tumeur était localisée 7 fois au niveau du pôle supérieur du rein, 6 fois au niveau du pôle inférieur, 1 fois aux 2 pôles et 6 fois elle était centrale ou envahissait le sinus du rein. Avant chimiothérapie, la taille de la tumeur était supérieure à 5 cm dans 14 cas ; après chimiothérapie, la plupart étaient inférieures à 5 cm et seules 4 tumeurs mesuraient entre 5 et 8 cm. Au cours de l'intervention, aucune complication n'est survenue et notamment aucune rupture tumorale. Deux conversions en laparotomie ont été nécessaires pour des difficultés de dissection du pédicule rénal, dont le néphroblastome le plus volumineux, allant jusqu'à la ligne médiane. Les suites immédiates ont été simples chez 19 enfants et 1 a présenté

une perforation intestinale postopératoire. La durée de séjour a été de 3,2 jours. Les antalgiques de niveau 3 n'étaient plus nécessaires 24 heures après la cœlioscopie. L'examen anatomopathologique a montré 18 néphroblastomes, dont 16 de risque intermédiaire et 2 de haut risque, 1 sarcome à cellules claires et 1 carcinome juvénile TEF-3. Un seul enfant a eu une récurrence locale 9 mois après le traitement sous cœlioscopie (tumeur de stade I intermédiaire) ; vidéo et examen anatomopathologique ont été relus, confirmant l'absence de toute rupture tumorale ; il va bien 19 mois après reprise du traitement. L'enfant porteur du carcinome juvénile TFE-3 est décédé 4 ans après l'intervention de métastases pulmonaires et cérébrales, sans récurrence locale. Pour les 18 autres enfants, avec un recul moyen de 50,1 mois, aucun n'a présenté de complications telles récurrence locale, métastase sur orifice de trocart, diffusion péritonéale ou encore occlusion sur bride. Les séquelles cicatricielles sont minimales.

Une néphrectomie totale élargie peut être effectuée sous cœlioscopie dans de bonnes conditions quand le pédicule rénal peut être abordé aisément sans toucher la tumeur. L'unique néphroblastome étendu jusqu'à la ligne médiane nous a obligé à convertir en laparotomie, par sécurité ; Duarte a réalisé l'exérèse de tumeurs faisant 9 ou 10 cm de diamètre, et dépassant certainement la ligne médiane, mais il nous semble préférable, dans un premier temps, de retenir comme indication de cœlioscopie les néphroblastomes dont le bord interne ne dépasse pas le bord externe des corps vertébraux sur l'examen tomographique pré-opératoire (Fig. 1). De même, l'extraction dans un sac de la pièce opératoire par une incision sus-pubienne suffisamment large permet d'éviter toute rupture tumorale lors de l'extraction de la pièce ; l'incision sus-pubienne est peu visible ultérieurement.

Le *picking* ganglionnaire est recommandé par la plupart des auteurs pour avoir une évaluation de l'extension tumorale, mais celui-ci est parfois remis en question et son utilité fait débat. Cependant, il nous semble raisonnable que le *picking* ganglionnaire soit effectué systématiquement en prélevant environ 5 ganglions au-dessus du niveau de l'artère rénale, d'autant que

Correspondance
e-mail : francois.varlet@chu-st-etienne.fr

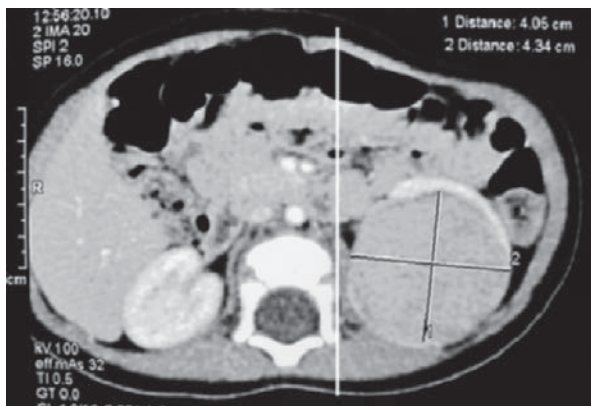


Figure 1. La tumeur ne doit pas dépasser le bord externe des corps vertébraux pour permettre un abord facile du pédicule rénal.

ce geste est possible aisément sous cœlioscopie chez tous les enfants.

La rupture tumorale en cours de cœlioscopie est redoutée par bon nombre de chirurgiens et de chimiothérapeutes, car elle entraînerait obligatoirement une radiothérapie complémentaire avec la morbidité qu'on lui connaît. Avec le traitement conventionnel par laparotomie, ce risque existe aussi et est évalué à 3,2 % dans le protocole SIOP-93-01 avec chimiothérapie pré-opératoire (598 enfants) alors qu'il est de 11 % dans le protocole nord-américain NWT5-4 (2 408 enfants) où l'intervention est effectuée sans chimiothérapie pré-opératoire. Aucun cas de rupture tumorale n'a été rapporté sous cœlioscopie pour le moment ; la magnification de l'image et les nouveaux instruments de coagulation-section permettent une dissection en toute sécurité et évitent de nombreux gestes de retrait et d'introduction des instruments dans la cavité abdominale, diminuant d'autant le risque de rupture.

Parmi nos patients, 1 a présenté une récurrence locale 9 mois après la néphrectomie sous cœlioscopie alors qu'aucune rupture n'a été mise en évidence après relecture des lames d'anatomie pathologique. Ce risque de récurrence locale existe aussi après néphrectomie par laparotomie et il est estimé à 2,8 % dans le protocole SIOP 93-01 (757 patients) et à 4 % dans le protocole NWT5-4 (2 482 patients). Chez l'adulte, même s'il ne s'agit pas des mêmes tumeurs, le taux de récurrence locale après néphrec-

tomie élargie sous cœlioscopie pour cancer n'est pas plus élevé qu'après laparotomie et sur une série multicentrique il était de 6,3 % sur 988 néphrectomies par laparotomie pour 4,4 % sur 377 néphrectomies sous cœlioscopie. Ce risque de récurrence locale existe donc quel que soit le type de voie d'abord, même sans rupture tumorale per-opératoire. À ce propos, nous souhaitons enregistrer de façon prospective tous les néphroblastomes opérés sous cœlioscopie et toutes les complications survenues pendant ou après l'intervention afin de les comparer à celles survenues après laparotomie.

Un des buts de la cœlioscopie est de diminuer la fréquence de survenue des occlusions sur bride. Après néphrectomie élargie par laparotomie, le risque d'occlusion sur bride se situe entre 2,5 et 4 %. Aucune occlusion sur bride n'a été rapportée après cœlioscopie pour le moment, mais le recul reste insuffisant pour conclure. Un des autres avantages de la cœlioscopie est de permettre des suites opératoires immédiates plus confortables, une durée de séjour hospitalier plus courte et des séquelles cicatricielles moindres, mais cela reste difficile à évaluer objectivement. Cependant, une publication récente sur le ressenti à long terme des adultes opérés d'un cancer dans l'enfance montre que la taille importante des cicatrices est un des griefs les plus souvent cités.

En conclusion, la néphrectomie totale sous cœlioscopie est possible dans de bonnes conditions de sécurité pour des néphroblastomes de petite taille, sans augmenter les risques de rupture tumorale ou d'autres complications oncologiques. Le chirurgien doit être habitué aux interventions complexes sous cœlioscopie avant d'envisager traiter un néphroblastome par cette voie d'abord. Dans un premier temps, il semble raisonnable de réserver la cœlioscopie aux néphroblastomes dont le bord interne ne franchit pas une ligne passant par le bord externe des corps vertébraux. Le but est d'améliorer le confort postopératoire et l'aspect des cicatrices, et de diminuer le taux d'occlusion postopératoire.

Références

Les références complètes sont disponibles dans l'article :

- [1] Varlet F, Petit T, Leclair MD, et al. Laparoscopic treatment of renal cancer in children: A multicentric study and review of oncologic and surgical complications. *J Pediatr Urol* 2013 Nov 25. pii: S1477-5131(13)00319-7. doi:10.1016/j.jpuro.2013.11.005 [Epub ahead of print].



ELSEVIER

Journal of
Pediatric
urology

Laparoscopic treatment of renal cancer in children: A multicentric study and review of oncologic and surgical complications



François Varlet ^{a,*}, Thierry Petit ^b, Marc-David Leclair ^c,
Hubert Lardy ^d, Stephan Geiss ^e, François Becmeur ^f,
Philippe Ravasse ^b, Julien Rod ^b, Guénolée de Lambert ^d,
Karim Braik ^d, Florence Lardellier-Reynaud ^a, Manuel Lopez ^a

^a Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier Universitaire, Hopital Nord, Saint-Etienne, France

^b Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier Universitaire, Caen, France

^c Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier Universitaire, Hopital Mere enfant, Nantes, France

^d Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier Universitaire, Hopital Clocheville, Tours Cedex, France

^e Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier, Centre de la mere et de l'enfant Le Parc, Colmar, France

^f Department of Pediatric Surgery, Centre Hospitalier Universitaire, Hopital HautePierre, Strasbourg, France

Received 9 January 2013; accepted 4 November 2013

Available online 25 November 2013

KEYWORDS

Wilms' tumor;
Renal cancer;
Child;
Laparoscopy;
Complications

Abstract *Objective:* The aim was to report a multicentric study with a longer follow-up to evaluate the laparoscopic radical nephrectomy in children with renal cancer.

Material and methods: This was a retrospective multicentric study, from October 2005 to January 2012, of children who underwent a laparoscopic radical nephrectomy for small renal malignant tumors.

Results: Seventeen children were included in this study. Sixteen underwent chemotherapy before surgery according the SIOP (Société Internationale d'Oncologie Pédiatrique) protocol and one was treated by surgery only for a carcinoma. All except one could be treated by laparoscopy; the biggest tumoral size was 8 cm. The median hospital stay was 3 days (2–10). The pathologic examination showed 15 Wilms' tumors, one clear cell sarcoma and one TFE3 renal cell carcinoma. With a median follow-up of 42 months (range 12 and 77 months) after

* Corresponding author. Service de Chirurgie Pédiatrique, CHU Hopital Nord, 42055 Saint-Etienne Cedex 2, France. Tel.: +33 477 828 037; fax: +33 477 828 465.

E-mail address: francois.varlet@chu-st-etienne.fr (F. Varlet).

laparoscopic radical nephrectomy, 15 children had no oncological complications (port site or local recurrence, pulmonary metastasis) and one had a local recurrence without intraoperative tumoral rupture. The child with TFE3 renal cell carcinoma died 4 years after surgery from brain and lung metastases without local recurrence. No small bowel obstruction occurred.

Conclusions: Radical nephrectomy in children for Wilms' tumor or other renal cancer can be safely performed laparoscopically and our indications can be summarized, for trained laparoscopic surgeons, by small tumors under about 8 cm diameter, especially without crossing the lateral edge of the vertebra on the CT scan at the time of surgery.

© 2013 Journal of Pediatric Urology Company. Published by Elsevier Ltd. All rights reserved.

Introduction

In pediatric surgical oncology, laparoscopy has been used for 15 years [1–3] and has been considered as a safe approach for biopsies and surgical excision of some tumors, for example neuroblastoma [4]. Duarte et al. [5,6] were the first to report on laparoscopic nephrectomy for a series of Wilms' tumors in 2006 and 2009; at the same time, we had performed five laparoscopic radical nephrectomies for renal cancer in children [7]. Since then, other cases have been reported in the literature, but often for isolated cases [8,9]. This laparoscopic approach remains poorly developed because of the legitimate fear of oncologic complications, such as tumoral rupture, local recurrence, peritoneal metastasis, port site metastasis, and subsequent necessity to increase the burden of adjuvant therapy.

The purpose of this work was to report on a multicentric study with a longer follow-up to evaluate the laparoscopic radical nephrectomy in children with renal cancer, and to review the literature about surgical and oncologic complications for laparoscopic and open surgery.

Material and methods

We performed a retrospective multicentric study of children having undergone laparoscopic radical nephrectomy for a malignant renal tumor in the pediatric surgery institutions of the French Society of Pediatric Oncology (Société Française des Cancers de l'Enfant) between October 2005 and January 2012. All children received adjuvant treatment according to current renal tumor SIOP protocol guidelines.

The criteria of selection were unilateral small malignant tumors at the time of surgery, with or without neoadjuvant chemotherapy, whose medial edge did not cross the lateral edge of the vertebra, allowing an easy approach to the renal pedicle (Fig. 1). None of these tumors had preoperative suspicion of extrarenal extension, vena cava thrombosis, preoperative rupture, or large lymph node involvement around the vena cava and the aorta.

Laparoscopic radical nephrectomy was performed in a lateral 45° position and was a robot-assisted procedure in one case. The colon was released down, and the retroperitoneum was opened to dissect first the renal vein and artery, without any mobilization of the kidney. On the right side, the level of artery ligation was carried out behind the vena cava. When possible, the artery was ligated close the

aorta. After ligation of the pedicle, the entire kidney and its fascia were released from contact with the psoas muscle fibers and as far as possible from the kidney. The adrenal gland was removed at the same time in cases of upper pole tumor. The ureter was divided below the iliac vessels, close to the bladder. The kidney was extracted in a bag through a suprapubic incision, large enough to avoid a tumoral rupture. At the end of the procedure, lymph node picking was performed, between the aorta and the vena cava, and along the aorta or the vena cava, above the level of superior mesenteric artery if possible.

We reviewed the data of the patients for age, gender, symptoms, size of the tumor before and after chemotherapy, surgical procedure, hospitalization, complications, pathology, and follow-up, including the five patients reported in 2009 [7].

Results

Seventeen children (7 girls/10 boys) were included in this study, with a median age of 26 months (5 months–11 years). There were nine left and eight right tumors. They came from six pediatric surgical departments (9 from Saint-Etienne, 3 from Caen, 2 from Nantes, 2 from Strasbourg-Colmar, and 1 from Tours). During the study period, 67 other children underwent a standard open transperitoneal incision for renal cancer (79.8%). The initial symptoms were abdominal pain (5), incidental ultrasonography (4), hematuria (3), abdominal mass (3), acute pyelonephritis (1), and limp (1). Two had a syndromic Wilms' tumor (1 nephroblastomatosis and 1 Beckwith–Wiedeman syndrome), and two children had pulmonary metastasis at diagnosis (stage IV). One 11-year-old child, with a history of medulloblastoma treated at 2 years of age, was diagnosed to have a TFE3 renal cell carcinoma after a fine needle biopsy, and underwent surgery without primary chemotherapy. The remaining 16 children received 4–6 weeks of chemotherapy before surgery according to the Wilms' tumor SIOP protocol. Before chemotherapy, the size of the tumor was less than 50 mm in seven cases and more than 51 mm in 10 cases. After chemotherapy, only three tumors were more than 51 mm and 14 were less than 50 mm. The tumor did not cross the lateral edge of the vertebra in 16 but crossed it in one case (the biggest one was 8 cm in diameter), the medial edge of the tumor being on the midline. Tumors were located as follows: seven in the upper pole, three in the lower pole, and seven in the medial part of the kidney.

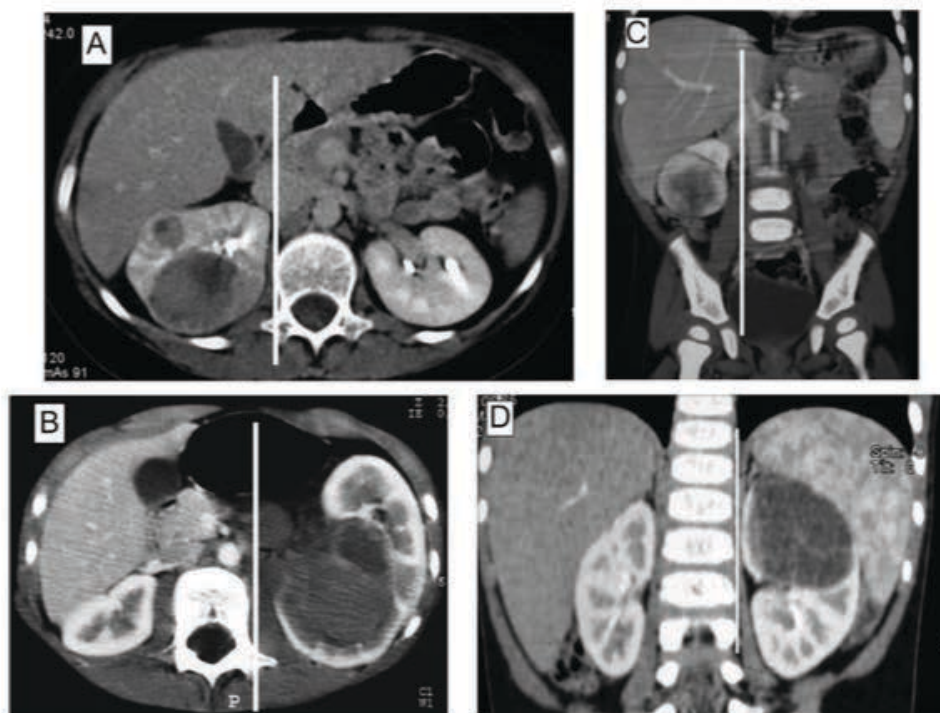


Figure 1 The medial edge of the tumor does not cross the lateral edge of the vertebra (white line). (A) TFE3 renal cell carcinoma. (B) Wilms' tumor after chemotherapy. (C) Clear cell sarcoma. (D) Cystic Wilms' tumor.

During the procedure, there were no operative complications in all children; the intervention was reported as more difficult in one because of a small bowel dilatation. Two conversions were necessary for difficult dissection of the renal artery, especially for the biggest tumor (8 cm) crossing the lateral edge of the vertebra. Lymph node sampling close to the aorta was performed in 12 children; the mean number of lymph nodes sampled was 3.4 by patient. No tumoral rupture occurred and the median operative time was 124 min (range 70–210 min). The immediate follow-up was uneventful for 16 children; however, the child who had small bowel dilatation during the procedure presented postoperatively with an ileal perforation (which was treated laparoscopically). The median length of hospital stay was 3 days (2–10 days).

Histopathologic analysis revealed 15 Wilms' tumors, one clear cell sarcoma, and one TFE3 renal cell carcinoma. Among the Wilms' tumors, 14 were intermediate-risk tumors and one a high-risk tumor, according to SIOP pathology risk staging. Local staging was stage I in eight patients, stage II in six, and stage III in one. This stage III right nephroblastoma was not related to spillage or incomplete resection, but to the presence of a vascular tumoral thrombus on the margins of the renal vein division. The thrombus was seen on the first computed tomography (CT) scan and disappeared preoperatively. This child with lung metastases has been treated according to stage IV guidelines, received adjuvant chemotherapy but no abdominal radiotherapy because of a total necrotic thrombus, and was free of disease at 66 months postoperatively.

With a median follow-up of 42 months (12–77 months), 15 out of 17 children were in complete remission without

evidence of disease. None of them had oncological complications (port site or retroperitoneal recurrence, secondary pulmonary metastasis) and no small bowel obstruction occurred. One stage I intermediate-risk left upper pole nephroblastoma (histology and stage reviewed and confirmed by national reference pathology panel) relapsed locally 9 months after surgery in the kidney area, and was treated by second-line chemotherapy and open surgery; he was in second complete remission at 6 months. The child with the TFE3 renal cell carcinoma had a local needle biopsy site recurrence 13 months after the biopsy, treated by a parietectomy, but she died 4 years and 2 months after laparoscopic nephrectomy because of pulmonary and cerebral metastases; she had no evidence of port site or retroperitoneal or parietal recurrence.

Discussion

Open radical nephrectomy through a transverse transperitoneal incision and regional lymph node sampling is considered as the standard of treatment for most malignant renal tumors in children. This procedure was yet reminded in recent reviews [10,11]. For several years, especially in Europe and South America, nephron-sparing surgery has been proposed for selected small tumors after chemotherapy [12,13]; the first reports of laparoscopic radical nephrectomies were published between 2006 and 2011 [5–9]. However, there remain several uncertainties, especially regarding the oncologic risks of incomplete surgical resection, tumoral rupture, tumoral spillage, and port site metastasis.

A complete surgical procedure can be performed under laparoscopy when the tumor is small, allowing a first approach to the renal vessels without mobilization of the kidney. In our experience, all the procedures could be completed when the tumor did not cross the lateral edge of the vertebra on the CT scan. The only case with tumoral extension reaching the midline could not be removed easily and we preferred a conversion to laparotomy to avoid risk of tumoral rupture. It may have been possible to add a fourth or fifth trocar to facilitate the procedure, but at the price of a longer operative time and an unsafe procedure in our opinion. Nevertheless Duarte et al. [6] have reported on large tumor resection without any complications. Following the selection criteria that we have chosen, it appears that every surgical step of pediatric radical nephrectomy can be completed. The entire kidney and the fascia can be safely removed close to the psoas muscle fibers, the vena cava, and the aorta. As intraoperative tumoral rupture is obviously associated with an adverse outcome, damaging the tumor during extraction may similarly be viewed negatively, as it hampers adequate histology analysis and carries the risk of understaging the tumor. We have shown that the specimen can be extracted easily in a bag, through a suprapubic incision of appropriate size, to avoid any risk of tumoral damage or rupture.

The lymph node samples can be picked up along the aorta above the level of the mesenteric artery and this sampling is very important for accurate staging [14], and decreases the risk of undertreating the child. There has been controversy regarding the impact on survival of the number of lymph nodes examined in Wilms' tumor. Among 1340 Wilms' tumors reported by Zhuge et al. [15] with lymph node data available following surgery, the 5-year survival was significantly lower for patients with no lymph nodes sampled (87%) or one to five lymph nodes sampled (91%), versus 6–10 lymph nodes (93%) or more than 10 lymph nodes (95%). But Kieran et al. [14] demonstrated recently that the number of lymph nodes sampled did not predict 5-year event-free survival variations from 3409 patients; the effect of lymph node positivity was greater only for patients with anaplastic tumors. Nevertheless, if this study confirmed the great importance of sampling at least some lymph nodes, allowing an accurate staging, extensive lymph node dissection seems unnecessary as no patient had positive distant lymph nodes in the setting of negative hilar lymph nodes. Thus, radical nephrectomy with lymph node sampling can be performed under laparoscopy as in open surgery.

A laparoscopic tumoral rupture is feared by many surgeons, but it has been shown to occur during open radical nephrectomy in 2.8% of cases in the SIOP-9 protocol after preoperative chemotherapy [16] to 11% in the National Wilms Tumor Study-4 protocol [17] without preoperative chemotherapy (Table 1). Duarte did not report any tumoral rupture in their 15 laparoscopic pediatric series [6]. Likewise in our preliminary experience, we observed no tumoral rupture or spillage. If the surgeon has appropriate training in both endosurgery (nephrectomy, pyeloplasty, or other complex abdominal and thoracic procedures) and surgical oncology, we believe the risk of rupture is similar to open radical nephrectomy in carefully selected cases of renal tumor. Imaging magnification and modern coagulating

Table 1 Surgical and oncologic complications.

| Protocol [ref] | SIOP-9 [16] | NWTS-4 [17] | SIOP 93-01/ GPOH [18] | NWTS-3 [27] |
|--------------------------------|----------------|----------------|--------------------------|----------------|
| Patients | 598 | 2482 | 633 | 1910 |
| Tumoral rupture (%) | 2.8 | 11 | 3.2 | — |
| Local recurrence (%) | — | 4.3 | 2.7 | — |
| Small bowel obstruction (%) | 2.5 | — | — | 5.4 |

devices allow safe dissection and little movement of the instruments in the abdominal cavity, avoiding any damage to the tumor.

In the present series, we observed one case of local relapse at 9 months postoperatively. The video recording of the procedure and the histology have been thoroughly reviewed: they excluded any suspicion of intraoperative spillage, and confirmed a stage I intermediate-risk tumor. Children treated by classical surgical protocols can also have a local recurrence of Wilms' tumor. The rate was 2.7% in the SIOP 93-01 protocol [18] and 4.3% in the NWTS-4 protocol [17]. In this last series, the survival rate of children at 2 years after local recurrence was only 43%, with a worse prognosis when the initial stage was high. Laparoscopic radical nephrectomies were relapse free in Duarte's series with a follow-up of 7–61 months. In adults, laparoscopic radical nephrectomy has not been associated with an increased risk of local recurrence, with comparable rates of 6.3% in 988 open total nephrectomies, versus 4.4% in 377 laparoscopic nephrectomies in a review of the literature [19]. In a monocentric study, four patients developed local recurrence from 304 laparoscopic nephrectomies, that is only 1.3% [20].

Another important point to balance the discussion is the potential risk of local recurrence after nephron-sparing nephrectomy for unilateral Wilms' tumor (Table 2). Haecker et al. [12] reported a rate of 8.1% (3 from 37 children with 2/3 deaths), but their population was heterogeneous with some undergoing primary partial nephrectomies and others being treated with partial nephrectomies after chemotherapy. Recently, Cost et al. [13] reviewed 82 cases of partial nephrectomy in unilateral Wilms' tumor, of whom the Haecker' patients [12]. Among 82 cases, there were three cases of local recurrence and three cases of combined systemic and local recurrence, that is a 7.3% local recurrences rate. The interpretation was difficult because of retrospective studies, small descriptive series, and case reports [13]. Therefore, local recurrences are not uncommon and can occur after both open and laparoscopic surgery, performing total or partial nephrectomies. The lack of prospective partial nephrectomy

Table 2 Local recurrences after partial open nephrectomy.

| Haecker [12] | Cost [13] |
|--------------|-------------|
| 37 patients | 82 patients |
| 8.1% | 7.3% |

studies includes a lot of bias and it is difficult to reach a conclusion about this procedure, but it seems to us that the results are worse than radical nephrectomy. When local recurrence occurs, the prognosis is poor, especially at higher stages. Transperitoneal local control remains important in kidney cancer surgery and this was respected during laparoscopic surgery as in the others procedures, except for one case treated by retroperitoneoscopic partial nephrectomy [21]. Peritoneal diffusion was described with peritoneal metastasis after laparoscopic nephron-sparing surgery for Wilms' tumor, but the indication of partial nephrectomy did not respect the usual protocols with a laparoscopic partial nephrectomy in a 10 cm upper pole tumor [22].

Port site metastasis is another complication described in the literature after laparoscopic oncologic surgery. Numerous cases have been reported in adults, but the rate decreased dramatically with the introduction of guidelines for oncologic laparoscopy: no tumoral rupture, extraction of surgical specimens in impermeable retrieval bags, abundant lavage of the peritoneal cavity and trocar sites, CO₂ exsufflation by the trocars, and excision of the edges of trocar site if doubt. In adult laparoscopic radical nephrectomy, six port site metastases from 377 patients were reported, that is 1.6%, but the specimen was extracted without a bag in five cases and tearing of the bag occurred in the sixth case [19]. Tanaka et al. [20] reported no port site metastasis from 304 cases. In pediatric literature, port site metastases are well known with osteosarcomas after thoracoscopic resection of pulmonary metastases [23]. In addition to the case of peritoneal metastases and port site metastasis reported by Chui and Lee [22], a case of port site metastasis was described after a laparoscopic biopsy of a Burkitt lymphoma [24]. However, to the best of our knowledge, no case has yet been reported of embryonic pediatric malignant tumors such as Wilms' tumor or neuroblastomas, even in large series of endosurgical procedures for pediatric malignancies [25,26].

One of the goals of laparoscopy is to decrease the rate of adhesive small bowel obstruction, and it is the main motivation for numerous surgeons who perform endosurgery. In open surgery, small bowel obstructions are frequently observed: Ritchey et al. [27] reported 104 cases from 1910 children (5.4%) with a mean follow-up of 5.1 years after Wilms' tumor resection. In four cases, the small bowel obstruction resulted in peritonitis, and sepsis contributed to death. In the SIOP-9 protocol [16], an adhesive small bowel obstruction occurred in 15 out of 598 children (2.5%) and a postoperative intussusception occurred in seven (1.1%). Today, no adhesive small bowel obstructions or intussusceptions have been described after laparoscopic resection of renal tumors, although the number of children is too small and the follow-up too limited to draw any definitive conclusion. Even if it is difficult to properly evaluate [28], the other benefits of laparoscopy likely include a more comfortable postoperative course, quick discharge at day 2 or 3 and a better cosmetic result on the abdominal wall, with three or four small scars on the abdomen and one suprapubic scar instead of a large abdominal scar. This last point was discussed in a recent report providing prevalence data relating to scarring, disfigurement, and persistent hair loss in adult survivors of

childhood cancer; they can affect psychological function and quality of life, especially chest or abdominal scars [29]. Minimal invasive surgery should also result in more rapid recovery of patients and immune function [26].

Finally, the benefit–risk balance for laparoscopic radical nephrectomy for Wilms' tumor when feasible seems favorable: the theoretical risks of tumoral rupture, peritoneal diffusion, and port site metastasis, not uncommon in open surgery, remain present with laparoscopy, but do not seem to be significantly increased in carefully selected indications. The benefits are more comfortable postoperative course, decreased hospital stay, improved hospital cost saving, better cosmetic results, and probably a decrease in the incidence of small bowel obstructions.

The indications of laparoscopic radical nephrectomy in children can be summarized, for trained laparoscopic surgeons, as small tumors that do not cross the lateral edge of the vertebra at the time of surgery (Fig. 1). It is difficult to give the maximal size limit of the tumor because it depends on the weight of the child, but we never treat by laparoscopy tumors more than 8 cm in diameter. Thus, the indications will be probably more frequent in the SIOP protocol with preoperative chemotherapy than without chemotherapy [8]. For small tumors and in cases of bilateral Wilms' tumor, a laparoscopic radical nephrectomy can also be performed on the side requiring a total nephrectomy, if two surgical steps are decided, the first one to get the histology before the partial nephrectomy on the other side (Fig. 2). When large lymph node involvement on the initial CT scan is observed, the laparoscopic approach can be indicated, as postoperative radiotherapy is likely to be required. Contraindications include caval or renal thrombosis at time of surgery, adhesions to other organs and initial tumoral rupture to avoid peritoneal spillage, and diffusion by the pneumoperitoneum, even if peritoneal metastases could be removed under laparoscopy, as in one case disease-free at 19 months after surgery [9]. A difficult question remains concerning the choice between laparoscopic radical nephrectomy and partial open nephrectomy for small polar tumors, that is the choice between the risk

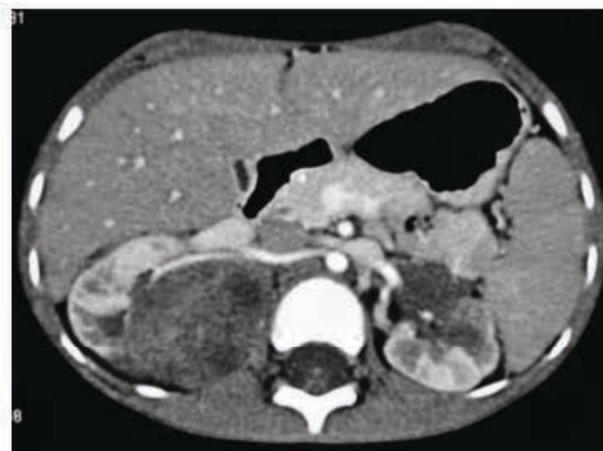


Figure 2 Bilateral Wilms' tumor before and after chemotherapy. The left kidney requiring a total nephrectomy could be removed by laparoscopy.

of possible renal failure in the long term, about 1% with radical nephrectomy in non-syndromic patients [13], versus the risk of local recurrence with partial nephrectomy, increased from 3% with radical nephrectomy up to 7–8% in unilateral Wilms' tumor with a poor prognosis in spite of intensive chemotherapy [15–17]. Today we believe laparoscopic radical nephrectomy is safer and carries a lower risk of adverse oncological outcome than open partial nephrectomy in selected indications, although large comparative series will be necessary to confirm.

Conclusion

Laparoscopic radical nephrectomy in children with Wilms' tumor or other renal cancer can be safely performed by trained laparoscopic surgeons in cases of small tumors, but prospective studies and controls are absolutely necessary to avoid unnecessary complications. The main motivations are to diminish the risk of small bowel obstruction and to improve cosmetic results on the abdominal wall in cases of small tumors, thus contributing to a decrease in the sequelae of Wilms' tumor treatment.

Conflict of interest

None.

Funding

None.

References

- [1] Holcomb GW, Tomita SS, Haze GM. Minimally invasive surgery in children with cancer. *Cancer* 1995;76:121–8.
- [2] Varlet F, Reinberg O, Becmeur F, GECL. Laparoscopie et cancer chez l'enfant. *J Coelochir* 2001;37:27–32.
- [3] Leclair MD, Sarnacki S, Varlet F, Heloury Y. Minimally invasive surgery in cancer children. *Bull Cancer* 2007;94:1087–90.
- [4] Leclair MD, de Lagausie P, Becmeur F, Varlet F, Thomas C, Valla JS, et al. Laparoscopic resection of abdominal neuroblastoma. *Ann Surg Oncol* 2008;15:117–24.
- [5] Duarte RJ, Denes FT, Cristofani LM, Odone-Filho V, Srougi M. Further experience with laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumors after chemotherapy. *BJU Int* 2006;98:155–9.
- [6] Duarte RJ, Denes FT, Cristofani LM, Srougi M. Laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumor. *Expert Rev Anticancer Ther* 2009;9:753–61.
- [7] Varlet F, Stephan JL, Guye E, Allary R, Berger C, Lopez M. Laparoscopic radical nephrectomy for unilateral renal cancer in children. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2009;19:148–52.
- [8] Barber TD, Wickiser JE, Wilcox DT, Baker LA. Pre-chemotherapy laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumor. *J Pediatr Urol* 2009;5:416–9.
- [9] Javid PJ, Lendvay TS, Acierno S, Gow KW. Laparoscopic nephroureterectomy for Wilms' tumor: oncologic considerations. *J Pediatr Surg* 2011;46:978–82.
- [10] Nakamura L, Ritchey M. Current management of Wilms' tumor. *Curr Urol Rep* 2010;11:58–65.
- [11] Davidoff AM. Wilms tumor. *Adv Pediatr* 2012;59:247–67.
- [12] Haecker FM, von Schweinitz D, Harms D, Buerger D, Graf N. Partial nephrectomy for unilateral Wilms' tumor: results of study SIOP 93–01/GPOH. *J Urol* 2003;170:939–44.
- [13] Cost NG, Lubahn JD, Granberg CF, Schlomer BJ, Wickiser JE, Rakheja D, et al. Oncologic outcomes of partial versus radical nephrectomy for unilateral Wilms tumor. *Pediatr Blood Cancer* 2012;58:898–904.
- [14] Kieran K, Anderson JR, Dome JS, Ehrlich PF, Ritchey ML, Shamberger RC, et al. Lymph node involvement in Wilms tumor: results from National Wilms Tumor Studies 4 and 5. *J Pediatr Surg* 2012;47:700–6.
- [15] Zhuge Y, Cheung MC, Yang R, Koniaris LG, Neville HL, Sola JE. Improved survival with lymph node sampling in Wilms tumor. *J Surg Res* 2011;167:e199–203.
- [16] Godzinski J, Tournade MF, deKraker J, Lemerle J, Voute PA, Weirich A, et al. Rarity of surgical complications after post-chemotherapy nephrectomy for nephroblastoma. Experience of the International Society of Paediatric Oncology – trial and study "SIOP-9". *Eur J Pediatr Surg* 1998;8:83–6.
- [17] Shamberger RC, Guthrie KA, Ritchey ML, Haase GM, Takashima J, Beckwith JB, et al. Surgery-related factors and local recurrence of Wilms tumor in National Wilms Tumor Study 4. *Ann Surg* 1999;229:292–7.
- [18] Fuchs J, Kienecker K, Furtwängler R, Warmann SW, Bürger D, Thürhoff JW, et al. Surgical aspects in the treatment of patients with unilateral Wilms tumor. A report from the SIOP 93-01/German society of pediatric oncology and hematology. *Ann Surg* 2009;249:666–71.
- [19] Rassweiler JJ, Schulze M, Marrero R, Frede T, Redorta JP, Bassi P. Laparoscopic nephroureterectomy for upper urinary tract transitional cell carcinoma: is it better than open surgery? *Eur Urol* 2004;46:690–7.
- [20] Tanaka K, Hara I, Takenaka A, Kawabata G, Fujisawa M. Incidence of local and port-site recurrence of urologic cancer after laparoscopic surgery. *Urology* 2008;71:728–34.
- [21] Piche N, Barrieras D. Minimally invasive nephron-sparing surgery for unilateral Wilms' tumor. *J Pediatr Surg* 2012;47:E1–4.
- [22] Chui CH, Lee AC. Peritoneal metastases after laparoscopic nephron-sparing surgery for localized Wilms tumor. *J Pediatr Surg* 2011;46:E19–21.
- [23] Sartorelli KH, Partrick D, Meagher Jr DP. Port-site recurrence after thoracoscopic resection of pulmonary metastasis owing to osteogenic sarcoma. *J Pediatr Surg* 1996;31:1443–4.
- [24] Metzelder M, Ure B. Port-site metastasis after laparoscopic biopsy of a posttransplant Burkitt lymphoma in a child. *Eur J Pediatr Surg* 2009;19:126–7.
- [25] Iwanaka T, Arai M, Yamamoto H, Fukuzawa M, Kubota A, Kouchi K, et al. No incidence of port-site recurrence after endosurgical procedure for pediatric malignancies. *Pediatr Surg Int* 2003;19:200–3.
- [26] Cribbs RK, Wulkan ML, Heiss KF, Gow KW. Minimally invasive surgery and childhood cancer. *Surg Oncol* 2007;16:221–8.
- [27] Ritchey ML, Kelalis PP, Etzioni R, Breslow N, Shochat S, Haase GM. Small bowel obstruction after nephrectomy for Wilms tumor. A report of the National Wilms' Tumor Study-3. *Ann Surg* 1993;218:654–9.
- [28] Kim C, McKay K, Docimo SG. Laparoscopic nephrectomy in children: systematic review of transperitoneal and retroperitoneal approaches. *Urology* 2009;73:280–4.
- [29] Kinahan KE, Sharp LK, Seidel K, Didwania A, Lacouture ME, Stovall M, et al. Scarring, disfigurement and quality of life in long-term survivors of childhood cancer: a report from childhood cancer survivor study. *J Clin Oncol* 2012;30:2466–74.

Néphroblastome et cœlioscopie : une herésie ?

Nephroblastoma and Laparoscopic Surgery: a Heresy?

F Varlet [1], T Petit [2], MD Leclair [3], H Lardy [4], S Geiss [5], F Becmeur [6], P Ravasse [2], J Rod [2], G de Lambert [4], K Braik [4], F Lardellier-Reynaud [1], F Lavrant [7], M Lopez [1]

1. Service de chirurgie pédiatrique, Centre Hospitalier Universitaire, Hôpital Nord, 42055 Saint-Etienne Cedex 2.
2. Service de chirurgie pédiatrique, Centre Hospitalier Universitaire, Avenue de la Côte de Nacre, 14033 Caen Cedex.
3. Service de chirurgie pédiatrique, CHU, Hôpital Mère-Enfant, Quai Moncoussu, 44035 Nantes Cedex 01.
4. Service de chirurgie pédiatrique, CHU, Hôpital Clocheville, 49 boulevard Béranger, 37044 Tours Cedex.
5. Service de chirurgie pédiatrique, CH, Centre de la Mère et de l'Enfant Le Parc, 46 rue du Stauffen, 68024 Colmar Cedex.
6. Service de chirurgie pédiatrique, CHU, Hôpital Hautepierre, Avenue Molière, 67098 Strasbourg Cedex.
7. Service de chirurgie pédiatrique, CHU, Hôpital Pellegrin, Place Amélie Raba Léon, 33076 Bordeaux Cedex.

Mots clés

- ◆ Néphroblastome
- ◆ Tumeur de Wilms
- ◆ Cœlioscopie
- ◆ Enfant
- ◆ Complications

Résumé

Objectif. Le but de ce travail était de rapporter l'intérêt du traitement cœlioscopique des néphroblastomes chez l'enfant à l'aide d'une étude multicentrique française.

Matériel et méthode. Cette étude multicentrique s'est déroulée d'avril 2006 à février 2013 ; étaient inclus les enfants opérés d'un néphroblastome par cœlioscopie pour petite tumeur avec accès facile au pédicule rénal. Tous ont eu une chimiothérapie préopératoire selon le protocole SIOP 2001 (vincristine et actinomycine D) ; les critères d'opérabilité étaient étudiés sur l'examen tomodensitométrique juste avant l'intervention. Si le pédicule rénal était accessible aisément, l'enfant était inclus. La cœlioscopie était contre-indiquée en cas de thrombose tumorale cave, d'extension extra-rénale, de rupture tumorale initiale, de néphroblastome bilatéral ou encore de métastases ganglionnaires visibles sur le scanner.

Résultats. Dix-huit enfants ont été inclus, provenant de sept centres de chirurgie pédiatrique, avec une moyenne d'âge de 28,1 mois (5 mois - 7 ans 4 mois). Tous sauf un ont pu avoir une néphrectomie élargie sous cœlioscopie ; une conversion a été nécessaire une fois pour la tumeur la plus volumineuse, de huit centimètre de diamètre, dont le bord interne était au niveau de la ligne médiane, contrairement aux autres dont le bord interne ne dépassait pas une ligne passant par le bord externe des corps vertébraux. Aucune rupture tumorale n'est survenue pendant l'intervention ; un enfant a présenté une complication post-opératoire immédiate (péritonite par perforation iléale traitée sous cœlioscopie). La durée moyenne de séjour était de 2,8 jours (2-10). L'examen anatomopathologique a montré 17 néphroblastomes et un sarcome à cellules claires. Avec un recul moyen de 43,6 mois après la cœlioscopie, un seul enfant a eu une récurrence tumorale locale alors que l'histologie a confirmé l'absence de toute rupture de la tumeur. Pour les 17 autres, aucune complication oncologique ou chirurgicale n'est apparue : récurrence locale, métastase sur orifice de trocart, diffusion péritonéale ou occlusion sur bride notamment.

Conclusion. La néphrectomie élargie sous cœlioscopie est possible chez l'enfant en présence d'un néphroblastome de petite taille. Il faut réserver cette approche pour des tumeurs ne dépassant pas le bord externe des corps vertébraux et permettant un accès facile du pédicule rénal. Une étude prospective est nécessaire pour mieux évaluer ce traitement chirurgical. L'amélioration du confort post-opératoire de ces patients et de l'aspect des cicatrices, et la diminution du nombre d'occlusions sur bride devrait contribuer à réduire les séquelles du traitement des néphroblastomes.

Keywords

- ◆ Wilms' tumor
- ◆ Laparoscopy
- ◆ Child
- ◆ Complications

Abstract

Objective. The aim of this work was to report a multicentric study with a long follow-up to evaluate the laparoscopic radical nephrectomy in children with renal cancer.

Material and methods. This was a multicentric study from April 2006 to February 2013 about children who underwent a laparoscopic radical nephrectomy for Wilms' tumor. The criteria of selection were unilateral small tumors after chemotherapy according the SIOP 2001 protocol, which the medial edge did not cross the lateral edge of the vertebra to allow an easy approach of the renal pedicle; more, the tumor had no extra renal extension, no vena cava thrombosis, no tumoral rupture before treatment and no large lymph nodes metastasis around the great vessels. We reviewed the data of the patients on age, gender, symptoms, size of the tumor before and after chemotherapy, surgical procedure, hospitalization, complications, pathology, and follow-up.

Results. Eighteen children were included in this study, from 7 pediatric surgical departments. All except 1 could be treated by laparoscopy because in 1 case the indication was out of the criteria with a tumor crossing the lateral edge of the vertebra. No tumoral rupture occurred and the postoperative course was uneventful except 1 with ileal perforation treated by laparoscopy. The mean hospital stay was 2,8 days (2-10). The pathologic examination showed 17 Wilms' tumors and 1 clear cell sarcoma. With a mean follow-up of 43.6 months after laparoscopic radical nephrectomy, 17 children had no oncologic complications (local recurrence, port-site metastasis or secondary pulmonary metastasis) and 1 had a local recurrence without intraoperative tumoral rupture. No

Correspondance :

Professeur François Varlet, Service de chirurgie pédiatrique
CHU, Hôpital Nord, 42055 Saint-Etienne Cedex 2.
Tél : 04 77 82 80 37 - Fax : 04 77 82 84 65 - E-mail : francois.varlet@chu-st-etienne.fr

Pas de conflit d'intérêt
No conflict of interest

small bowel obstruction occurred.

Conclusion. The laparoscopic radical nephrectomy in children for Wilms' tumor or other renal cancer can be safely performed in case of small tumor and in the hand of trained laparoscopic surgeons, but prospective studies and controls are absolutely necessary. The main motivations are to diminish the risk of small bowel obstruction and to improve the cosmetic results on the abdominal wall, thus contributing to diminish the sequels of Wilms' tumor treatment.

Le néphroblastome ou tumeur de Wilms est la tumeur rénale la plus fréquente chez l'enfant ; elle reste rare, touchant un enfant pour 1,2 million d'habitants soit environ 80 cas par an en France (1). Le néphroblastome est une tumeur solide dont le pronostic s'est beaucoup amélioré grâce à l'utilisation du traitement associant chimiothérapie, chirurgie, et parfois radiothérapie, avec une survie globale supérieure à 90 %. Les progrès et les bons résultats conduisent à élaborer des stratégies de « désescalade » thérapeutique dont l'objectif est de réduire la toxicité des traitements sans compromettre le résultat oncologique. Dans ce contexte, la communauté chirurgicale pédiatrique se devait de mener une réflexion sur les moyens de diminuer « le poids » de la chirurgie dans la prise en charge de ces enfants, parmi lesquels le recours à des techniques chirurgicales moins invasives comme la cœlioscopie.

Le traitement chirurgical reconnu est la néphrectomie totale élargie par laparotomie. En chirurgie pédiatrique oncologique, la cœlioscopie est utilisée depuis une quinzaine d'années (2-4) et représente une bonne voie d'abord pour réaliser des biopsies ou faire l'exérèse de certaines tumeurs, notamment des neuroblastomes de petite taille (5). Duarte a rapporté en premier deux cas de néphroblastome traités par néphrectomie élargie sous cœlioscopie en 2004 et dans le même temps nous réalisons notre premier cas chez une jeune fille de 11 ans porteuse d'un carcinome juvénile du rein avant de traiter plusieurs néphroblastomes (6-8). Le nombre de publications sur ce sujet reste encore restreint ; une partie des chirurgiens pédiatres redoute une augmentation des complications oncologiques, en particulier du nombre de ruptures tumorales peropératoires, qui serait alors responsable d'un nombre accru de radiothérapie complémentaire dont on connaît notamment les risques de séquelles sur la croissance vertébrale chez l'enfant.

Le but de ce travail était de montrer la faisabilité de la néphrectomie totale élargie sous cœlioscopie à partir d'une étude multicentrique française et de faire le point sur les complications chirurgicales et oncologiques du traitement des néphroblastomes.

Matériel et méthodes

Les enfants porteurs d'un cancer du rein et traités sous cœlioscopie ont été inclus dans cette étude d'avril 2006 à février 2013 ; il s'agissait d'une étude multicentrique rétrospective. Les critères d'inclusion étaient les suivants : néphroblastome traité par chimiothérapie première selon le protocole SIOP 2001 (vincristine et actinomycine D) et tumeur de petite taille pour faciliter l'abord du pédicule rénal, ce critère étant évalué après chimiothérapie. Les enfants étaient exclus en cas de tumeur volumineuse avec accès difficile au pédicule rénal, de thrombose tumorale cave associée, de néphroblastome bilatéral, de métastases ganglionnaires à l'imagerie, de diffusion péritonéale ou de rupture tumorale au diagnostic. Les parents étaient prévenus de cette nouvelle voie d'abord et pouvaient refuser la cœlioscopie.

L'enfant était installé en décubitus latéral à 45° et la future incision sus-pubienne destinée à l'extraction du rein était dessinée. Une optique de 5 mm-30° était introduite par l'ombilic sous contrôle de la vue et trois trocars de 3 mm étaient mis en place :

- un dans la région épigastrique ;

- un en fosse iliaque ;
- un au niveau du flanc.

L'intervention débutait par l'ouverture du fascia de Toldt et du rétropéritoine en regard du pédicule rénal. Le trocart iliaque était remplacé par un trocart de 5 mm pour introduire un instrument de coagulation-section permettant de sectionner le pédicule rénal ; un clip était le plus souvent ajouté pour assurer l'hémostase ; du côté droit, l'artère était sectionnée en arrière de la veine cave, pas forcément au ras de l'aorte. Ensuite toute la loge rénale était enlevée à l'aide de cet instrument de coagulation-section au ras de l'aorte ou de la veine cave, sans jamais voir le rein, puis au ras du psoas et en emportant la surrenale en cas de tumeur du pôle supérieur. L'uretère était sectionné et ligaturé sous le niveau des vaisseaux iliaques. Une fois la pièce opératoire libre, l'incision sus-pubienne était effectuée et, avant ouverture du péritoine, un trocart de 15 mm était mis en place pour introduire un sac et mettre la pièce à l'intérieur. Le péritoine était alors largement ouvert afin d'extraire le rein et sa loge, avec une incision sus-pubienne suffisamment large pour éviter toute rupture tumorale lors de cette étape. Un picking ganglionnaire interaortico-cave et/ou préaortique était effectué au-dessus du niveau du pédicule rénal et l'intervention se terminait par un drainage de la fosse lombaire.

Les dossiers des enfants suspects de néphroblastome ont été revus en étudiant particulièrement la taille de la tumeur avant et après chimiothérapie, la technique chirurgicale, l'hospitalisation, les complications, le résultat anatomopathologique et le recul. Le nombre total de néphroblastomes dans chaque centre a été calculé par année à partir du moment où le premier néphroblastome a été opéré sous cœlioscopie et non sur toute la durée de l'étude, les centres n'ayant pas commencé en même temps.

Résultats

D'avril 2006 à mars 2013, une néphrectomie totale élargie sous cœlioscopie a pu être effectuée pour suspicion de néphroblastome chez 18 enfants dans sept centres de chirurgie pédiatrique (1 à Bordeaux, 3 à Caen, 1 à Colmar, 2 à Nantes, 10 à Saint-Etienne, 2 à Strasbourg et 1 à Tours, ce dernier ayant eu une néphrectomie robot-assistée). Il s'agissait de huit filles et dix garçons avec un âge moyen de 28,1 mois (5 mois à 7 ans 4 mois). Au cours de la période d'étude, 87 patients ont été pris en charge pour néphroblastome dans les différents centres, ce qui représente 20,6 % d'enfants opérés sous cœlioscopie. Le mode de découverte a été le suivant : masse abdominale (5), douleur abdominale (4), hématurie (3), découverte fortuite à l'occasion d'une autre pathologie (3), surveillance échographique pour une néphroblastomatose et un syndrome de Wiedeman-Beckwith (2) et boiterie (1). Deux enfants avaient des métastases pulmonaires au diagnostic. La tumeur était localisée sept fois au niveau du pôle supérieur du rein, trois fois au niveau du pôle inférieur et sept fois elle était centrale ou envahissant le sinus du rein. Avant chimiothérapie, la taille de la tumeur était supérieure à 5 cm dans 12 cas et inférieure dans six cas. Après chimiothérapie, seules trois tumeurs mesuraient entre 5 et 8 cm.

Au cours de l'intervention, aucune complication n'est survenue, notamment aucune rupture tumorale. Deux conversions en laparotomie ont été nécessaires pour des difficultés de dissection du pédicule rénal, dont le néphroblastome le plus

volumineux, allant jusqu'à la ligne médiane, les autres ne dépassant pas le bord externe des corps vertébraux sur l'examen tomодensitométrique. Pour cet enfant, il aurait fallu refouler le rein de manière importante et prendre un risque certain de rupture tumorale, ce qui a poussé à convertir en laparotomie. Pour l'autre conversion, c'est la dissection de l'artère qui a posé quelques difficultés d'exposition et l'opérateur a préféré arrêter la cœlioscopie, par sécurité. Pour les 16 autres interventions, le pédicule a pu être disséqué facilement, sans jamais mobiliser le rein ni la tumeur. Le picking ganglionnaire a été effectué chez 14 enfants avec une moyenne de 3,5 ganglions par patient. La durée de l'intervention était de 132 minutes en moyenne (70 à 240). Les suites immédiates ont été simples chez 17 enfants et un a présenté une perforation intestinale post-opératoire ; l'intestin grêle était dilaté en cours de cœlioscopie et la relecture de la vidéo n'a pas permis de retrouver le traumatisme intestinal ; il est possible qu'il ait été lésé lors de la fermeture d'un orifice de trocart. La durée de séjour à l'hôpital a été de 2,8 jours. Les antalgiques de niveau trois n'étaient plus nécessaires 24 heures après la cœlioscopie et l'enfant se mobilisait facilement dès le lendemain de l'intervention.

L'examen anatomo-pathologique a montré 17 néphroblastomes, dont 16 de risque intermédiaire et deux de haut risque, et un sarcome à cellules claires. L'absence de toute rupture tumorale a été confirmée sur le plan histologique. Le stade local était de stade I dans 10 cas, de stade II dans sept cas et de stade III dans un cas ; pour ce dernier, une thrombose tumorale nécrosée a été retrouvée au niveau de la tranche de section de la veine rénale alors qu'elle avait disparue sur l'examen tomодensitométrique préopératoire ; cet enfant présentant des métastases pulmonaires, une chimiothérapie adjuvante était indiquée et il n'a pas eu de radiothérapie complémentaire compte-tenu de l'aspect totalement nécrotique du thrombus ; il n'a pas eu de récidive locale avec un recul de 66 mois. Un seul enfant a eu une récidive locale 9 mois après le traitement sous cœlioscopie ; vidéo et examen anatomo-pathologique ont été relus, confirmant l'absence de toute rupture tumorale ; une chimiothérapie complémentaire est en cours et l'enfant va bien avec un an de recul. Pour les 17 autres enfants, avec un recul moyen de 43,6 mois aucun n'a présenté de complications oncologiques ou chirurgicales telles une récidive locale, une métastase sur orifice de trocart, une diffusion péritonéale ou encore une occlusion sur bride.

Figures 1a,b,c,d. Tumeurs dont le bord interne ne franchit pas une ligne passant par le bord externe des corps vertébraux.



Figure 1a. Pédicule rénal facilement accessible.

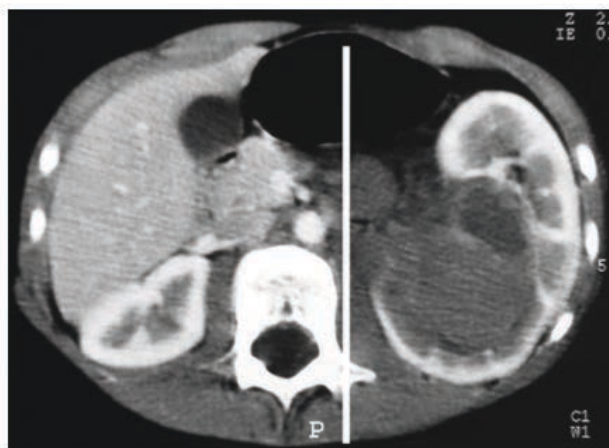


Figure 1b. Néphroblastome après chimiothérapie.

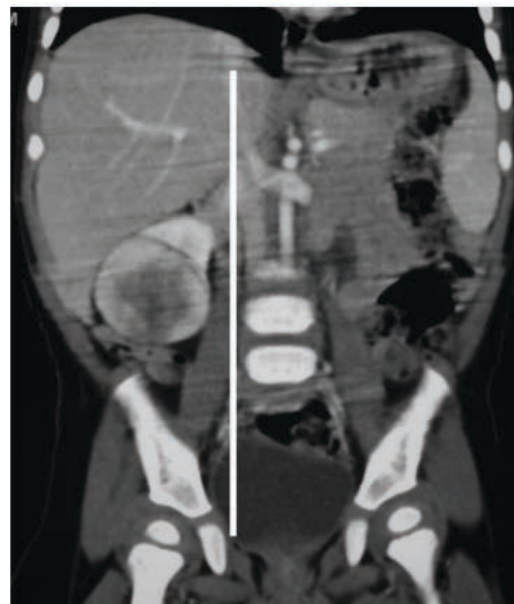


Figure 1c. Sarcome à cellules claires.

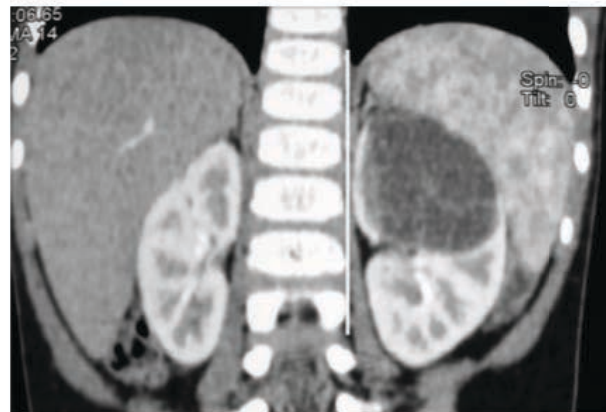


Figure 1d. Néphroblastome kystique.

Discussion

Les néphroblastomes et autres cancers du rein chez l'enfant doivent classiquement être opérés par néphrectomie totale élargie transpéritonéale (9,10), mais depuis quelques années et surtout en Europe et en Amérique du Sud, des néphrectomies partielles conservatrices ont été proposées dans certains cas de petites tumeurs ainsi que des néphrectomies totales sous cœlioscopie (7-8,11-15). Cependant de nombreuses incertitudes persistent à propos de ces nouvelles techniques sur la qualité de l'exérèse, et les risques de rupture tumorale, de diffusion péritonéale ou encore d'éventuelle métastase sur orifice de trocart.

Une néphrectomie totale élargie peut être effectuée sous cœlioscopie dans de bonnes conditions quand la tumeur est de petite taille et le pédicule rénal peut être abordé aisément sans toucher la tumeur. L'unique néphroblastome étendu jusqu'à la ligne médiane nous a obligé à convertir en laparotomie, par sécurité ; il aurait probablement été possible de continuer sous cœlioscopie en ajoutant un ou deux trocars et en prolongeant l'intervention de façon significative comme l'a montré Duarte dans une publication plus récente où il a réalisé l'exérèse de tumeurs faisant 9 ou 10 cm de diamètre, et dépassant certainement la ligne médiane (7). Mais il nous semble préférable, dans un premier temps, de retenir comme indication de cœlioscopie les petits néphroblastomes dont le bord interne ne dépasse pas le bord externe des corps vertébraux sur l'examen tomodensitométrique préopératoire (fig.1 a,b,c,d). Ainsi le pédicule rénal est facilement exposé et disséable, et il est possible de réaliser une intervention « no touch » vis-à-vis de la tumeur, permettant de limiter considérablement les risques de rupture tumorale. De même, l'extraction de la pièce opératoire par une incision sus-pubienne suffisamment large nous paraît être sage pour éviter toute rupture tumorale, plutôt que d'agrandir éventuellement un orifice de trocart qu'on aurait tendance à ne pas faire trop large ; de plus l'incision sus-pubienne n'est plus visible ultérieurement et il est montré depuis longtemps qu'elle est mieux supportée qu'une incision en plein abdomen. Le picking ganglionnaire est recommandé par la plupart des auteurs pour avoir une évaluation de l'extension tumorale, mais celui-ci est parfois remis en question et son utilité fait débat. À partir de 1 340 tumeurs de Wilms, Zhuge a montré que la survie à cinq ans était significativement plus faible, de l'ordre de 87 %, quand aucun prélèvement ganglionnaire n'était effectué, alors qu'elle était de 91 % quand le picking comprenait entre un et cinq ganglions, et de 95 % quand plus de 10 ganglions étaient prélevés, permettant selon l'auteur une meilleure classification et un traitement plus adapté (16). À l'inverse, et à propos de 3 409 patients, Kieran a récemment démontré que la survie à cinq ans n'était pas modifiée quel que soit le nombre de ganglions prélevés et le picking ne devenait intéressant que pour les formes anaplasiques (17). D'autres ont essayé de démontrer qu'une bonne réponse de la tumeur à la chimiothérapie pourrait prédire l'absence ou la présence de métastases ganglionnaires, mais l'étude de 1 450 cas n'a pas permis de confirmer cette hypothèse (18). Finalement il nous semble raisonnable que le picking ganglionnaire soit effectué systématiquement en prélevant environ cinq ganglions au-dessus du niveau de l'artère rénale, d'autant que ce geste est possible aisément sous cœlioscopie chez tous les enfants.

La rupture tumorale en cours de cœlioscopie est redoutée par bon nombre de chirurgiens et de chimiothérapeutes, car elle entraînerait obligatoirement une radiothérapie complémentaire avec ses risques de morbidité. Avec le traitement conventionnel par laparotomie, ce risque existe aussi et est évalué à 3,2 % dans le protocole SIOP-93-01 avec chimiothérapie préopératoire à propos de 598 enfants alors qu'il est de 11 % dans le protocole nord-américain NWT-4 à propos de 2 408 enfants où l'intervention est effectuée sans chimiothérapie

préopératoire (19-21). Duarte ne rapporte aucune rupture tumorale parmi ses 15 cas sous cœlioscopie (7) et nous n'avons à déplorer aucun cas dans notre série, de même que dans tous les autres cas rapportés dans la littérature jusqu'à maintenant (11,12,25). Il est certain que le nombre d'enfants opérés sous cœlioscopie reste très faible, de 39 cas au total avec 25 cas publiés et 14 cas supplémentaires dans cette série. Il nous semble qu'un chirurgien habitué à faire des néphrectomies totales ou partielles, des cures de jonction pyélo-urétérale et des surrénalectomies sous cœlioscopie, par exemple, n'a pas plus de risque d'entraîner une rupture du néphroblastome qu'en laparotomie, d'autant qu'on ne touche pas à la tumeur au cours de l'intervention quand elle est de petite taille. Par ailleurs la magnification de l'image et les nouveaux instruments de coagulation-section permettent une dissection en toute sécurité et évitent de nombreux gestes de retrait et d'introduction des instruments dans la cavité abdominale, diminuant d'autant le risque de rupture.

Parmi nos patients, un a présenté une récurrence locale neuf mois après la néphrectomie sous cœlioscopie alors qu'aucune rupture n'a été mise en évidence après relecture des lames d'anatomie pathologique. Ce risque de récurrence locale existe après néphrectomie par laparotomie et il est estimé à 2,8 % dans le protocole SIOP 93-01 sur 757 patients (20) et à 4 % dans le protocole NWT-4 sur 2 482 patients (21). Dans cette dernière publication datant de 1999, il est précisé que la survie à deux ans en cas de récurrence locale est de 43 % seulement ; nous n'avons pas trouvé de publication plus récente sur ce sujet. Aucune récurrence locale n'a été rapportée par Duarte sur ses 15 cas sous cœlioscopie avec un recul de 7 à 61 mois. Chez l'adulte, le taux de récurrence locale après néphrectomie élargie sous cœlioscopie n'est pas plus élevé qu'après laparotomie et sur une série multicentrique il était de 6,3 % sur 988 néphrectomies par laparotomie pour 4,4 % sur 377 néphrectomies sous cœlioscopie (23) ; dans une étude monocentrique japonaise récente, quatre patients ont développé une récurrence locale sur 304 néphrectomies sous cœlioscopie, soit un taux de 1,3 % seulement (24). La récurrence locale que nous avons observée dans notre série fait donc probablement partie du risque habituel pour ce type de tumeur et ne semble pas liée à la voie d'abord cœlioscopique. Un autre point important de discussion est le risque de récurrence locale après néphrectomie partielle par laparotomie pour les mêmes indications de néphroblastome de petite taille unilatéral non syndromique. On peut noter un taux de récurrence locale plus important en cas de néphrectomie partielle par laparotomie entre 7,3 et 8,1 %, soit environ trois fois plus (15). Seul Cozzi rapporte un taux de 0 % dans les stades I, mais il est impossible de savoir avant l'intervention s'il s'agit d'un stade I ou d'un stade II ; on ne peut donc pas en tenir compte (14). Wilde et al ont rapporté en 2012 une série de 97 néphrectomies partielles pour néphroblastome de petite taille non syndromique et 11 examens anatomopathologiques ont montré des marges positives (11,3 %) avec nécessité d'une totalisation de la néphrectomie pour certains et/ou une radiothérapie ; certains ont eu une récurrence locale (25). Ceci nous paraît lourd de conséquences pour éviter 0,7 à 1 % d'insuffisance rénale à long terme (14,15) ; à l'avenir, les progrès de l'imagerie permettront sans doute une meilleure sélection des candidats à la néphrectomie partielle. L'interprétation de ces données sur l'ensemble des récurrences locales reste difficile compte-tenu de la faible importance des séries publiées dans la littérature et de l'absence de série prospective avec des chiffres conséquents ; elles sont donc possibles après chirurgie totale ou partielle et après laparotomie ou cœlioscopie. Le contrôle local transpéritonéal reste un point important de toute chirurgie du cancer du rein chez l'enfant, même si un cas traité par rétropéritonéoscopie a été récemment publié (26).

La survenue d'une métastase sur un orifice de trocart est une autre complication possible après chirurgie oncologique sous

cœlioscopie. Elle a été fréquemment décrite chez l'adulte mais son taux a diminué de façon très significative après l'apparition de règles oncologiques précises : éviter la rupture tumorale, utiliser un sac étanche pour extraire la tumeur, lavage abondant de la cavité péritonéale, exsufflation au travers des trocars et excision d'un orifice en cas de doute. Sur des séries récentes de néphrectomies élargies sous cœlioscopie chez l'adulte, six métastases sur orifice de trocart ont été rapportées sur 377 patients, mais dans cinq cas le rein a été extrait sans sac et une fois le sac était déchiré (23) ; Tanaka n'en a rapporté aucun cas à propos de 304 patients (24). Cette complication reste rare chez l'enfant et a été décrite essentiellement après thoracoscopie pour exérèse de métastases pulmonaires d'ostéosarcome (27). Un cas de métastase sur orifice de trocart a également été publié après biopsie d'un lymphome de Burkitt (28). Nous n'avons pas eu ce type de complication dans notre série et à notre connaissance aucun autre cas n'a été rapporté dans la littérature, même dans des séries pédiatriques plus importantes pour des tumeurs autres que le néphroblastome (29,30).

Un des buts de la cœlioscopie est de diminuer la fréquence de survenue des occlusions sur bride. Après néphrectomie élargie par laparotomie, le nombre d'occlusion sur bride rapporté était de 104 sur 1 910 tumeurs de Wilms (5,4 %) avec un recul de 5,1 ans en moyenne ; dans quatre cas d'occlusion compliquée, péritonite et septicémie ont abouti au décès de l'enfant (31). Dans la série SIOP-9 (19), 15 enfants ont présenté une occlusion sur bride sur 598, soit un taux de 2,5 % et sept ont eu une invagination intestinale aiguë (1,1 %). Aucune occlusion sur bride n'a été rapportée après cœlioscopie pour le moment, mais le recul reste insuffisant pour conclure. Un des autres avantages de la cœlioscopie est de permettre des suites opératoires immédiates plus confortables, une durée de séjour hospitalier plus courte et des séquelles cicatricielles moindres, mais ceci reste difficile à évaluer objectivement. Cependant, une publication récente sur le ressenti à long terme des adultes opérés d'un cancer dans l'enfance montre que la taille importante des cicatrices est un des griefs les plus souvent cités (32).

Finalement la balance bénéfico-risque semble en faveur de la cœlioscopie pour le traitement des néphroblastomes de petite taille. Les risques de rupture tumorale, de récidive locale, de métastase sur orifice de trocart ou encore de diffusion péritonéale apparaissent faibles et très théoriques, même s'ils ne sont pas nuls comme en laparotomie. Le chirurgien doit avoir une bonne expérience en chirurgie cœlioscopique. Les bénéfices semblent intéressants et demandent à être confirmés par des séries plus importantes. Les indications de néphrectomie totale sous cœlioscopie peuvent être résumées ainsi : néphroblastome de petite taille dont le bord interne ne dépasse pas le bord externe des corps vertébraux sur l'examen tomodensitométrique avant ou après chimiothérapie (fig.1 a,b,c,d) ; en cas de néphroblastome bilatéral, le rein ne pouvant pas être conservé peut être enlevé sous cœlioscopie en respectant les mêmes critères ; de même en cas de métastases ganglionnaires, une cœlioscopie peut s'envisager si l'exérèse totale apparaît possible. Une thrombose de la veine rénale ou de la veine cave, des adhérences aux organes de voisinage, des métastases péritonéales et une tumeur dépassant le bord externe des corps vertébraux restent des contre-indications à la cœlioscopie dans l'état actuel des connaissances et des possibilités chirurgicales pour agir en toute sécurité. Reste la question difficile entre néphrectomie partielle par laparotomie et néphrectomie totale sous cœlioscopie pour des petits néphroblastomes unilatéraux non syndromiques : la sécurité semble être la néphrectomie totale sous cœlioscopie compte-tenu des risques deux à trois fois plus élevés de récidive locale après néphrectomie partielle, mais des séries plus importantes restent nécessaires pour conclure. Une amélioration de l'étude radiologique de la vascularisation tumorale et du parenchyme rénal permettra peut-être de

mieux sélectionner les patients éligibles à la néphrectomie partielle dans quelques années.

Conclusion

La néphrectomie totale sous cœlioscopie n'est pas une hérésie et elle peut être effectuée pour des néphroblastomes de petite taille, sans augmenter les risques de rupture tumorale ou d'autres complications oncologiques, si le chirurgien est habitué aux interventions complexes sous cœlioscopie et s'il respecte les indications. Dans un premier temps, il semble raisonnable de réserver la cœlioscopie aux néphroblastomes dont le bord interne ne franchit pas une ligne passant par le bord externe des corps vertébraux. La motivation principale est d'améliorer le confort post-opératoire et de diminuer le taux d'occlusion sur bride et les séquelles cicatricielles.

Références

- Desandes E, Clavel J, Berger C et al. Cancer incidence among children in France, 1990-1999. *Pediatr Blood Cancer* 2004;43:749-57.
- Holcomb GW, Tomita SS, Haze GM. Minimally invasive surgery in children with cancer. *Cancer* 1995;76:121-8.
- Varlet F, Reinberg O, Becmeur F et al. Laparoscopie et cancer chez l'enfant. *J Coelochir* 2001;37:27-32.
- Leclair MD, Sarnacki S, Varlet F, Heloury Y. Minimally invasive surgery in cancer children. *Bull Cancer* 2007;94:1087-90.
- Leclair MD, de Lagausie P, Becmeur F et al. Laparoscopic resection of abdominal neuroblastoma. *Ann Surg Oncol* 2008;15:117-24.
- Duarte RJ, Denes FT, Cristofani LM, Giron AM, Filho VO, Arap S. Laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumors after chemotherapy : initial experience. *J Urol* 2004;172:1438-40.
- Duarte RJ, Denes FT, Cristofani LM, Strougi M. Laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumor. *Expert Rev Anticancer Ther* 2009;9:753-61.
- Varlet F, Stephan JL, Guye E, Allary R, Berger C, Lopez M. Laparoscopic radical nephrectomy for unilateral renal cancer in children. *Surg Laparosc Endosc Percutan Tech* 2009;19:148-52.
- Nakamura L, Ritchey M. Current management of Wilms' tumor. *Curr Urol Rep* 2010;11:58-65.
- Davidoff AM. Wilms tumor. *Adv Pediatr* 2012;59:247-67.
- Barber TD, Wickiser JE, Wilcox DT, Baker LA. Prechemotherapy laparoscopic nephrectomy for Wilms' tumor. *J Pediatr Urol* 2009;5:416-9.
- Javid PJ, Lendvay TS, Acierno S, Gow KW. Laparoscopic nephroureterectomy for Wilms' tumor : oncologic considerations. *J Pediatr Surg* 2011;46:978-82.
- Haecker FM, von Schweinitz D, Harms D, Buerger D, Graf N. Partial nephrectomy for unilateral Wilms' tumor: results of study SIOP 93-01/GPOH. *J Urol* 2003;170:939-44.
- Cozzi DA, Zani A. Nephron-sparing surgery in children with primary renal tumor: indications and results. *Sem Pediatr Surg* 2006;15:3-9.
- Cost NG, Lubahn JD, Granberg CF et al. Oncologic outcomes of partial versus radical nephrectomy for unilateral Wilms tumor. *Pediatr Blood Cancer* 2012;58:898-904.
- Zhuge Y, Cheung MC, Yang R, Koniari LG, Neville HL, Sola JE. Improved survival with lymph node sampling in Wilms tumor. *J Surg Res* 2011;167:199-203.
- Kieran K, Anderson JR, Dome JS et al. Lymph node involvement in Wilms tumor: results from National Wilms Tumor Studies 4 and 5. *J Pediatr Surg* 2012;47:700-6.
- Godzinski J, Van Tinteren H, de Kraker J et al. Nephroblastoma: does the decrease in tumor volume under preoperative chemotherapy predict the lymph nodes status at surgery? *Pediatr Blood Cancer* 2011;57:1266-9.
- Godzinski J, Tournade MF, deKraker J et al. Rarity of surgical complications after postchemotherapy nephrectomy for nephroblastoma. Experience of the International Society of Paediatric Oncology - trial and study "SIOP-9". *Eur J Pediatr Surg* 1998;8:83-6.
- Fuchs J, Kienecker K, Furtwängler R et al. Surgical aspects in the treatment of patients with unilateral Wilms tumor. A report from the SIOP 93-01/German Society of pediatric oncology and hematology. *Ann Surg* 2009;249:666-71.

21. Shamberger RC, Guthrie KA, Ritchey ML et al. Surgery-related factors and local recurrence of Wilms tumor in National Wilms Tumor Study 4. *Ann Surg* 1999;229:292-7.
22. Cost NG, Geller JI, DeFoor Jr WR, Wagner LM, Noh PH. A robotic-assisted laparoscopic approach for pediatric renal cell carcinoma allows for both nephron-sparing surgery and extended lymph node dissection. *J Pediatr Surg* 2012;47:1946-50.
23. Rassweiler JJ, Schulze M, Marrero R, Frede T, Redorta JP, Bassi P. Laparoscopic nephroureterectomy for upper urinary tract transitional cell carcinoma: is it better than open surgery? *Eur Urol* 2004;46:690-7.
24. Tanaka K, Hara I, Takenaka A, Kawabata G, Fujisawa M. Incidence of local and port-site recurrence of urologic cancer after laparoscopic surgery. *Urology* 2008;71:728-34.
25. Wilde JCH, Aronson DC, Godzinski J. Nephron sparing surgery for unilateral Wilms' tumours. The SIOP 2001 experience. IPSO-APSA meeting. San Antonio, May, 2012 on behalf of Renal Study Tumour Group - SIOP.
26. Piche N, Barriera D. Minimally invasive nephron-sparing surgery for unilateral Wilms' tumor. *J Pediatr Surg* 2012;47:1-4.
27. Sartorelli KH, Partrick D, Meagher DP Jr. Port-site recurrence after thoracoscopic resection of pulmonary metastasis owing to osteogenic sarcoma. *J Pediatr Surg* 1996;31:1443-4.
28. Metzelder M, Ure B. Port-site metastasis after laparoscopic biopsy of a posttransplant Burkitt lymphoma in a child. *Eur J Pediatr Surg* 2009;19:126-7.
29. Iwanaka T, Arai M, Yamamoto H et al. No incidence of port-site recurrence after endosurgical procedure for pediatric malignancies. *Pediatr Surg Int* 2003;19:200-3.
30. Cribbs RK, Wulkan ML, Heiss KF, Gow KW. Minimally invasive surgery and childhood cancer. *Surg Oncol* 2007;16:221-8.
31. Ritchey ML, Kelalis PP, Etzioni R, Breslow N, Shochat S, Haase GM. Small bowel obstruction after nephrectomy for Wilms tumor. A report of the National Wilms' Tumor Study-3. *Ann Surg* 1993;218:654-9.
32. Kinahan KE, Sharp LK, Seidel K et al. Scarring, disfigurement and quality of life in long-term survivors of childhood cancer: a report from childhood cancer survivor study. *J Clin Oncol* 2012;30:2466-74.

Commentaires des articles

Les néphroblastomes et autres cancers du rein chez l'enfant doivent classiquement être opérés par néphrectomie totale élargie transpéritonéale, mais depuis quelques années et surtout en Europe et en Amérique du Sud, des néphrectomies partielles conservatrices ont été proposées dans certains cas de petites tumeurs ainsi que des néphrectomies totales sous cœlioscopie. Cependant de nombreuses incertitudes persistent à propos de ces nouvelles techniques sur la qualité de l'exérèse, et les risques de rupture tumorale, de diffusion péritonéale ou encore d'éventuelle métastase sur orifice de trocart.

Une néphrectomie totale élargie peut être effectuée sous cœlioscopie dans de bonnes conditions quand la tumeur est de petite taille et le pédicule rénal peut être abordé aisément sans toucher la tumeur. L'unique néphroblastome étendu jusqu'à la ligne médiane nous a obligé à convertir en laparotomie, par sécurité; il aurait probablement été possible de continuer sous cœlioscopie en ajoutant un ou deux trocarts et en prolongeant l'intervention de façon significative comme l'a montré Duarte dans une publication plus récente où il a réalisé l'exérèse de tumeurs faisant 9 ou 10 cm de diamètre, et dépassant certainement la ligne médiane. Mais il nous semble préférable, dans un premier temps, de retenir comme indication de cœlioscopie les petits néphroblastomes dont le bord interne ne dépasse pas le bord externe des corps vertébraux sur l'examen tomodensitométrique préopératoire. Ainsi le pédicule rénal est facilement exposé et dissécable, et il est possible de réaliser une intervention « no touch » vis-à-vis de la tumeur, permettant de limiter considérablement les risques de rupture tumorale. De même, l'extraction de la pièce opératoire par une incision sus-pubienne suffisamment large nous paraît être sage pour éviter toute rupture tumorale, plutôt que d'agrandir éventuellement un orifice de trocart qu'on aurait

tendance à ne pas faire trop large; de plus l'incision sus-pubienne n'est plus visible ultérieurement et il est montré depuis longtemps qu'elle est mieux supportée qu'une incision en plein abdomen. Le picking ganglionnaire est recommandé par la plupart des auteurs pour avoir une évaluation de l'extension tumorale, mais celui-ci est parfois remis en question et son utilité fait débat. À partir de 1 340 tumeurs de Wilms, Zhuge a montré que la survie à cinq ans était significativement plus faible, de l'ordre de 87 %, quand aucun prélèvement ganglionnaire n'était effectué, alors qu'elle était de 91 % quand le picking comprenait entre un et cinq ganglions, et de 95 % quand plus de 10 ganglions étaient prélevés, permettant selon l'auteur une meilleure classification et un traitement plus adapté. A l'inverse, et à propos de 3 409 patients, Kieran a récemment démontré que la survie à cinq ans n'était pas modifiée quel que soit le nombre de ganglions prélevés et le picking ne devenait intéressant que pour les formes anaplasiques. D'autres ont essayé de démontrer qu'une bonne réponse de la tumeur à la chimiothérapie pourrait prédire l'absence ou la présence de métastases ganglionnaires, mais l'étude de 1450 cas n'a pas permis de confirmer cette hypothèse. Finalement il nous semble raisonnable que le picking ganglionnaire soit effectué systématiquement en prélevant environ cinq ganglions au-dessus du niveau de l'artère rénale, d'autant que ce geste est possible aisément sous cœlioscopie chez tous les enfants.

La rupture tumorale en cours de cœlioscopie est redoutée par bon nombre de chirurgiens et de chimiothérapeutes, car elle entraînerait obligatoirement une radiothérapie complémentaire avec ses risques de morbidité. Avec le traitement conventionnel par laparotomie, ce risque existe aussi et est évalué à 3,2 % dans le protocole SIOP-93-01 avec chimiothérapie préopératoire à propos de 598 enfants alors qu'il est de 11 % dans le protocole nord-américain NWTS-4 à propos de 2408 enfants où l'intervention est effectuée sans chimiothérapie préopératoire.

Duarte ne rapporte aucune rupture tumorale parmi ses 15 cas sous cœlioscopie et nous n'avons à déplorer aucun cas dans notre série, de même que dans tous les autres cas rapportés dans la littérature jusqu'à maintenant. Il est certain que le nombre d'enfants opérés sous cœlioscopie reste très faible, de 39 cas au total avec 25 cas publiés et 14 cas supplémentaires dans notre série. Il nous semble qu'un chirurgien habitué à faire des néphrectomies totales ou partielles, des cures de jonction pyélo-urétérale et des surrénalectomies sous cœlioscopie, par exemple, n'a pas plus de risque d'entraîner une rupture du néphroblastome qu'en laparotomie, d'autant qu'on ne touche pas à la tumeur au cours de l'intervention quand elle est de petite taille. Par ailleurs la magnification de l'image et les nouveaux instruments de coagulation-section permettent une dissection en toute sécurité et évitent de nombreux gestes de retrait et d'introduction des instruments dans la cavité abdominale, diminuant d'autant le risque de rupture.

Parmi nos patients, un a présenté une récurrence locale neuf mois après la néphrectomie sous cœlioscopie alors qu'aucune rupture n'a été mise en évidence après relecture des lames d'anatomie pathologique. Ce risque de récurrence locale existe après néphrectomie par laparotomie et il est estimé à 2,8 % dans le protocole SIOP 93-01 sur 757 patients et à 4 % dans le protocole NWT5-4 sur 2 482 patients. Dans cette dernière publication datant de 1999, il est précisé que la survie à deux ans en cas de récurrence locale est de 43 % seulement ; nous n'avons pas trouvé de publication plus récente sur ce sujet. Aucune récurrence locale n'a été rapportée par Duarte sur ses 15 cas sous cœlioscopie avec un recul de 7 à 61 mois. Chez l'adulte, le taux de récurrence locale après néphrectomie élargie sous cœlioscopie n'est pas plus élevé qu'après laparotomie et sur une série multicentrique il était de 6,3% sur 988 néphrectomies par laparotomie pour 4,4% sur 377 néphrectomies sous cœlioscopie; dans une étude monocentrique japonaise récente, quatre patients ont développé une récurrence locale sur 304

néphrectomies sous cœlioscopie, soit un taux de 1,3 % seulement. La récurrence locale que nous avons observée dans notre série fait donc probablement partie du risque habituel pour ce type de tumeur et ne semble pas liée à la voie d'abord cœlioscopique. Un autre point important de discussion est le risque de récurrence locale après néphrectomie partielle par laparotomie pour les mêmes indications de néphroblastome de petite taille unilatéral non syndromique. On peut noter un taux de récurrence locale plus important en cas de néphrectomie partielle par laparotomie entre 7,3 et 8,1 %, soit environ trois fois plus. Seul Cozzi rapporte un taux de 0 % dans les stades I, mais il est impossible de savoir avant l'intervention s'il s'agit d'un stade I ou d'un stade II; on ne peut donc pas en tenir compte (1). Wilde et al ont rapporté en 2012 une série de 97 néphrectomies partielles pour néphroblastome de petite taille non syndromique et 11 examens anatomopathologiques ont montré des marges positives (11,3 %) avec nécessité d'une totalisation de la néphrectomie pour certains et/ou une radiothérapie; certains ont eu une récurrence locale (2). Ceci nous paraît lourd de conséquences pour éviter 0,7 à 1 % d'insuffisance rénale à long terme (1,3); à l'avenir, les progrès de l'imagerie permettront sans doute une meilleure sélection des candidats à la néphrectomie partielle. L'interprétation de ces données sur l'ensemble des récurrences locales reste difficile compte-tenu de la faible importance des séries publiées dans la littérature et de l'absence de série prospective avec des chiffres conséquents; elles sont donc possibles après chirurgie totale ou partielle et après laparotomie ou cœlioscopie. Le contrôle local transpéritonéal reste un point important de toute chirurgie du cancer du rein chez l'enfant, même si un cas traité par rétropéritonéoscopie a été récemment publié (4).

La survenue d'une métastase sur un orifice de trocart est une autre complication possible après chirurgie oncologique sous cœlioscopie. Elle a été fréquemment

décrite chez l'adulte mais son taux a diminué de façon très significative après l'apparition de règles oncologiques précises: éviter la rupture tumorale, utiliser un sac étanche pour extraire la tumeur, lavage abondant de la cavité péritonéale, exsufflation au travers des trocars et excision d'un orifice en cas de doute. Sur des séries récentes de néphrectomies élargies sous cœlioscopie chez l'adulte, six métastases sur orifice de trocart ont été rapportées sur 377 patients, mais dans cinq cas le rein a été extrait sans sac et une fois le sac était déchiré; Tanaka n'en a rapporté aucun cas à propos de 304 patients (5). Cette complication reste rare chez l'enfant et a été décrite essentiellement après thoracoscopie pour exérèse de métastases pulmonaires d'ostéosarcome. Un cas de métastase sur orifice de trocart a également été publié après biopsie d'un lymphome de Burkitt (6). Nous n'avons pas eu ce type de complication dans notre série et à notre connaissance aucun autre cas n'a été rapporté dans la littérature, même dans des séries pédiatriques plus importantes pour des tumeurs autres que le néphroblastome.

Un des buts de la cœlioscopie est de diminuer la fréquence de survenue des occlusions sur bride. Après néphrectomie élargie par laparotomie, le nombre d'occlusion sur bride rapporté était de 104 sur 1 910 tumeurs de Wilms (5,4 %) avec un recul de 5,1 ans en moyenne; dans quatre cas d'occlusion compliquée, péritonite et septicémie ont abouti au décès de l'enfant. Dans la série SIOP-9 (7), 15 enfants ont présenté une occlusion sur bride sur 598, soit un taux de 2,5 % et sept ont eu une invagination intestinale aiguë (1,1 %). Aucune occlusion sur bride n'a été rapportée après cœlioscopie pour le moment, mais le recul reste insuffisant pour conclure. Un des autres avantages de la cœlioscopie est de permettre des suites opératoires immédiates plus confortables, une durée de séjour hospitalier plus courte et des séquelles cicatricielles moindres, mais ceci reste difficile à évaluer objectivement. Cependant, une publication récente sur le ressenti à long terme des adultes opérés d'un cancer dans l'enfance montre que la

taille importante des cicatrices est un des griefs les plus souvent cités.

Finalement la balance bénéfice-risque semble en faveur de la cœlioscopie pour le traitement des néphroblastomes de petite taille. Les risques de rupture tumorale, de récurrence locale, de métastase sur orifice de trocart ou encore de diffusion péritonéale apparaissent faibles et très théoriques, même s'ils ne sont pas nuls comme en laparotomie. Le chirurgien doit avoir une bonne expérience en chirurgie cœlioscopique. Les bénéfices semblent intéressants et demandent à être confirmés par des séries plus importantes. Les indications de néphrectomie totale sous cœlioscopie peuvent être résumées ainsi : néphroblastome de petite taille dont le bord interne ne dépasse pas le bord externe des corps vertébraux sur l'examen tomодensitométrique avant ou après chimiothérapie; en cas de néphroblastome bilatéral, le rein ne pouvant pas être conservé peut être enlevé sous cœlioscopie en respectant les mêmes critères ; de même en cas de métastases ganglionnaires, une cœlioscopie peut s'envisager si l'exérèse totale apparaît possible. Une thrombose de la veine rénale ou de la veine cave, des adhérences aux organes de voisinage, des métastases péritonéales et une tumeur dépassant le bord externe des corps vertébraux restent des contre-indications à la cœlioscopie dans l'état actuel des connaissances et des possibilités chirurgicales pour agir en toute sécurité. Reste la question difficile entre néphrectomie partielle par laparotomie et néphrectomie totale sous cœlioscopie pour des petits néphroblastomes unilatéraux non syndromiques: la sécurité semble être la néphrectomie totale sous cœlioscopie compte-tenu des risques deux à trois fois plus élevés de récurrence locale après néphrectomie partielle, mais des séries plus importantes restent nécessaires pour conclure. Une amélioration de l'étude radiologique de la vascularisation tumorale et du parenchyme rénal permettra peut-être de mieux sélectionner les patients éligibles à la néphrectomie partielle dans quelques années.

En conclusion, La néphrectomie totale sous coelioscopie n'est pas une hérésie et elle peut être effectuée pour des néphroblastomes de petite taille, sans augmenter les risques de rupture tumorale ou d'autres complications oncologiques, si le chirurgien est habitué aux interventions complexes sous coelioscopie et s'il respecte les indications. Dans un premier temps, il semble raisonnable de réserver la coelioscopie aux néphroblastomes dont le bord interne ne franchit pas une ligne passant par le bord externe des corps vertébraux. La motivation principale est d'améliorer le confort post-opératoire et de diminuer le taux d'occlusion sur bride et les séquelles cicatricielles.

Références

1. Cozzi DA, Zani A. Nephron-sparing surgery in children with primary renal tumor: indications and results. *Sem Pediatr Surg* 2006;15:3-9.
2. Wilde JCH, Aronson DC, Godzinski J. Nephron sparing surgery for unilateral Wilms' tumours. The SIOP 2001 experience. IPSO-APSA meeting. San Antonio, May, 2012 on behalf of Renal Study Tumour Group – SIOP.
3. Cost NG, Lubahn JD, Granberg CF et al. Oncologic outcomes of partial versus radical nephrectomy for unilateral Wilms tumor. *Pediatr Blood Cancer* 2012;58:898-904.
4. Piche N, Barrieras D. Minimally invasive nephron-sparing surgery for unilateral Wilms' tumor. *J Pediatr Surg* 2012;47:1-4.
5. Tanaka K, Hara I, Takenaka A, Kawabata G, Fujisawa M. Incidence of local and port-site recurrence of urologic cancer after laparoscopic surgery. *Urology* 2008;71:728-34.
6. Metzelder M, Ure B. Port-site metastasis after laparoscopic biopsy of a posttransplant Burkitt lymphoma in a child. *Eur J Pediatr Surg* 2009;19:126-7.
7. Godzinski J, Tournade MF, deKraker J et al. Rarity of surgical complications after postchemotherapy nephrectomy for nephroblastoma. Experience of the International Society of Paediatric Oncology – trial and study “SIOP-9”. *Eur J Pediatr Surg* 1998;8:83- 6.

Tumeur de la surrénale & Rétropéritonéoscopie

Les tumeurs des glandes surrénales chez l'enfant sont rares, et souvent infiltrantes et malignes, d'où une expérience limitée de chaque équipe. Diverses approches pour les glandes surrénales sont possibles, en laparoscopie ou en rétropéritonéoscopie. Depuis le premier cas décrit par Gagner en 1992, la surrénalectomie sous cœlioscopie a gagné une large acceptation. Cependant, l'approche rétropéritonéoscopique peut permettre de traiter les tumeurs primitives de la glande surrénale, avec une excellente vue de la glande et la possibilité de différencier la tumeur et le parenchyme sain. Voilà pourquoi nous pensons que, pour certains patients soigneusement sélectionnés, l'exérèse sous rétropéritonéoscopie de la glande surrénale est sûre et efficace, considérant que laparotomie ne propose pas autant d'avantages. Nous avons rapporté précocement notre expérience de deux patients avec des masses surrénales primaires. Cet article a été une des références utilisées pour les guidelines de l'International Pediatric Endosurgery Group (IPEG) des masses surrénales traitées par cœlioscopie.

Ce travail a fait l'objet de communications avec comité de lecture en tant qu'auteur et lors de congrès scientifiques internationaux et nationaux, et des tables rondes afin d'évaluer les apports et les limites de l'innovation en chirurgie oncologique.

Case Report

Left Retroperitoneoscopic Adrenalectomy: About Two Cases

H. ALLAL, M. LOPEZ, N. KALFA, D. FORGUES, M.P. GUIBAL,
E. SABATIER-LAVAL, and R.B. GALIFER

ABSTRACT

Benign adrenal pathology is rare in children. The authors report on two cases of retroperitoneoscopic adrenalectomy. The first case was a 17-month-old girl weighing 2300 g with clinical hypercortisolism and a normal gland on ultrasonography. The suspected diagnosis was an adrenal hyperplasia. The second case was a 7-year-old girl with hyperaldosteronism and virilism and the diagnosis of a left 25-mm adrenal adenoma on ultrasonography. In both cases, retroperitoneoscopic adrenalectomy was performed in a right lateral position. We used four trocars. A 7- or 10-mm telescope was introduced by a minilumbotomy under the tip of the 12th rib. The retroperitoneal space was created with the telescope and by insufflating CO₂ gas at a pressure of 8 mm Hg. Three other 3- and 5-mm trocars were introduced: one above the iliac crest, one at the costospinal angle, and one under the 11th rib to retract the kidney. The dissection went behind the kidney toward the adrenal gland at the upper pole. The adrenalectomy was performed without difficulty, and the specimen was extracted in a bag from the optic port. The operative times were 35 and 45 minutes, and postoperative discharge was at 2 days. Left retroperitoneoscopic adrenalectomy is a safe approach for benign adrenal tumors. Patients have significantly less postoperative pain and discomfort and a shorter hospital stay.

INTRODUCTION

ADRENALECTOMY IS RARELY INDICATED IN CHILDREN. The retroperitoneoscopic approach offers a stable operative procedure for primary tumors of the adrenal gland. It allows an excellent view of adrenal gland tumors and the surrounding region, and the differentiation between adrenal neoplasia and a normal adrenal gland. Various approaches to the adrenal glands are possible. Since the first case was reported by Gagner in 1992, endoscopic adrenalectomy has gained wide acceptance for the extirpation of many adrenal masses.

Adrenal tumors in children are often infiltrative and malignant, and the experience of each team is limited. This is why we believe that for some carefully selected patients, laparoscopic removal of the adrenal gland is safe and effective, whereas open laparotomy does not offer as many advantages. We report our experience of two patients with primary adrenal masses.

PATIENTS AND METHODS

Patients

Two adrenal diseases were treated in two children. The first case was a 17-month-old girl weighing 2300 g who presented with hypercortisolism. Ultrasonography showed adrenal hyperplasia. The second patient was a 7-year-old girl with hyperaldosteronism and virilism. Ultrasonography showed a left-sided 25-mm adrenal tumor.

Operative technique

A flank approach with the patient in the lateral decubitus position was used in all cases (Fig. 1). A 1-cm incision was created in the midaxillary line below the 12th rib and deepened by blunt dissection to the retroperitoneal space. A 0-degree, 10-mm telescope was introduced, and insufflation was started between the capsule of the kidney and the perirenal fat with a pressure of 8 to 15 mm Hg. The working space was progressively created by moving the tip of telescope, used as a palpator, to free the retroperitoneal fibrous tissues behind the kidney, with great care taken not to injure the peritoneum. Under visual control on the screen, sufficient operating space can be obtained by pushing away the peritoneum and intra-abdominal organs.

After the posterior surface of the kidney was completely freed, two operating trocars (3 or 5 mm) were introduced: one posteriorly, in the costospinal angle, and one inferiorly, just above the iliac crest. With the help of two atraumatic instruments (a palpator or peanut), the anterior surface of the kidney was carefully freed. Only when the working space is large enough and the peritoneum pushed away sufficiently is it possible to introduce an instrument to allow retraction of the kidney toward the upper part of the operative field.

Once the adrenal gland was visualized, dissection of the inferomedial border of the gland helped localize the adrenal veins, and these were transected with two clips or coagulation with the harmonic scalpel. The superior adrenal vessels were dissected last for ligation with the clips or harmonic scalpel. After the

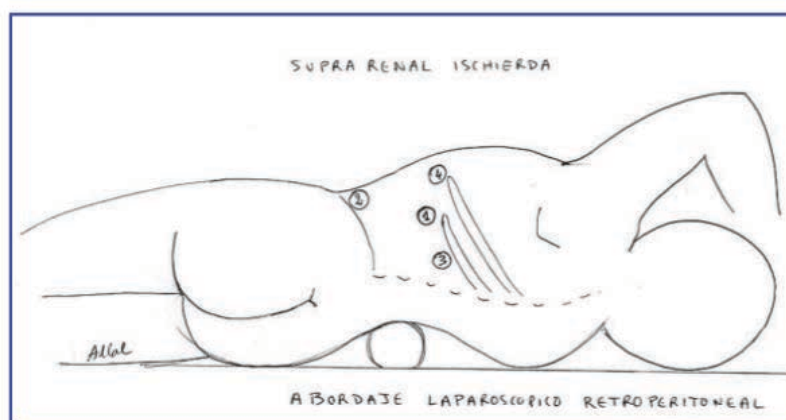


FIG. 1. Flank approach with patient in the right lateral decubitus position for left laparoscopic adrenalectomy.

LEFT RETROPERITONEOSCOPIC ADRENALECTOMY

left adrenalectomy (Fig. 2), a sterile plastic bag was used to remove the adrenal gland or tumor through the anterior port.

RESULTS

After retroperitoneal CO₂ insufflation, no significant change in the mean arterial pressure was observed at any time. The operating times were 35 and 45 minutes (mean, 40 minutes). No patient required a blood transfusion during or after the operation. The hospital stay for both patients was 2 days, and the mean follow-up for these patients was 14 months. No recurrence of the hypercortisolism has been detected.

DISCUSSION

This report describes the procedure and the results in two patients who underwent left adrenalectomy performed by a posterior retroperitoneoscopic approach. As shown by the postoperative course, complete tumor removal was successful in both cases.

Benign adrenal pathology is rare in children. The most important point in planning surgery is proper preoperative selection. The laparoscopic approach must be reserved for benign lesions and some selected cases of neuroblastoma.

The first criterion of benignancy, which is easily measured, is the size of the tumor. This usually correlates well with the nature of the tumor; the larger the tumor, the more malignant it is. Nakajima et al.¹ think that the laparoscopic resection of tumors 50 mm or smaller is technically feasible in children. The second criterion of benignancy is radiologic: by ultrasonography, computed tomography, or magnetic resonance imaging, some features correlate with benignancy: a clearcut border and noninvasive appearance. Scintigraphic scanning with metaiodobenzylguanidine (MIBG) is highly useful for tumors containing adrenergic vessels, but it is of no value in distinguishing benign from malignant lesions. If a neuroblastoma is suspected, high levels of homovanillic acid (HVA) and vanillylmandelic acid (VMA) correlate well with malignancy; however, normal levels are not totally reassuring.

In cases of pheochromocytoma, the levels of VMA and HVA are nearly always high, and tumors producing dopamine and vasoactive intestinal peptide are often malignant. In cases of secreting cortical tumor, the incidence of benignity is increased in tumors with pure cortisol production.

Pheochromocytoma is the primary indication for laparoscopic resection because these lesions are benign in 80% to 90% of cases. In cases of cortical adrenaloma, the rate of malignancy is higher.² The indication for a laparoscopic technique must strictly respect the radiologic criteria.

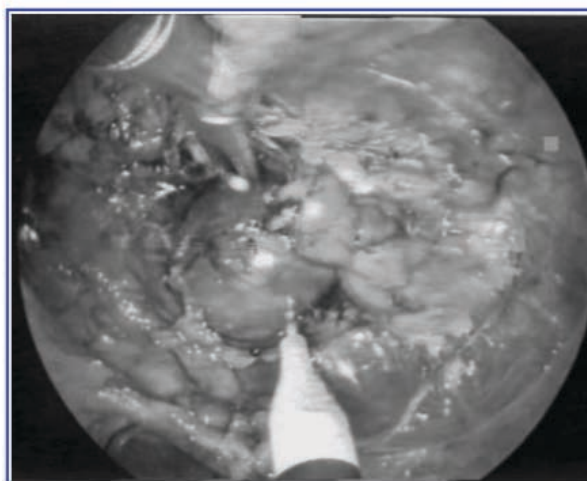


FIG. 2. Adrenal adenoma.

ALLAL ET AL.

In cases of neuroblastoma, an endoscopic adrenalectomy can be considered in a few selected cases, such as neuroblastomas identified by mass screening, as reported in Japan.^{1,3,4} Similarly, a tumor discovered incidentally by ultrasonography before or after birth might be a good indication.

Nakajima et al.¹ proposed endoscopic adrenalectomy for stage I or II tumors and for residual stage IV S tumors after chemotherapy. The advantages of a transperitoneal approach are that it is more direct and faster and allows the use of fewer trocars; however, it requires considerable skill and provides only a limited working space (which can be a disadvantage in cases of vascular injury and when the tumor must be placed in a bag). Regarding the feasibility of resection, the laparoscopic methods offer an excellent view of the adrenal gland and its surroundings, allow a clear differentiation between tumor and normal parenchyma, and make precise dissection possible. No problems are encountered in the division of adrenal gland tissue. Only minor bleeding is to be expected, and this can be controlled by coagulation and the application of clips. Whatever the tumor type, extraction must respect oncologic principles, particularly in cases of pheochromocytoma. The tumor should be mobilized with as little handling as possible to avoid catecholamine release. Only when the tumoral gland is freed can the surgeon use atraumatic grasping forceps to put it into a bag. Is it justifiable to remove only the tumor and leave the adrenal gland when the tumor appears to be well encapsulated or is in an extra-adrenal position? The main perioperative complication is hemorrhage. For small vessels, we recommend using the bipolar coagulator or harmonic scalpel.

The conversion rate will decrease with the learning curve. Unfortunately, because of the rarity of these indications in children, the experience of individual pediatric surgeons remains limited.

CONCLUSIONS

The potential advantages of endoscopic adrenalectomy in children are similar to those reported for other applications of laparoscopic surgery (small incision, decreased postoperative pain, quicker discharge). However, only a few selected cases are suited for pediatric endoscopic surgery: benign tumors or certain neuroblastomas that are small and well encapsulated, not invasive or infiltrative, and less than 6 cm in diameter. Neuroblastomas, the most common adrenal tumors in children, usually do not meet these criteria.

Laparoscopic adrenalectomy can be performed in exactly the same way as open surgery, via the retroperitoneal route, but with the benefits of a minimally invasive procedure in terms of patient comfort, a short hospital stay, and good cosmetic results.

Primary adrenal gland tumors can be resected safely and successfully by the posterior retroperitoneoscopic approach if a clear differentiation between neoplastic and normal parenchyma is possible.

REFERENCES

1. Nakajima K, Fukusa M, Komoto Y, et al. Laparoscopic resection of a mass-screened adrenal neuroblastoma in a 8-months-old infant. *Surg Laparosc Endosc* 1997;7:498-500.
2. Galifer RB, Couture A, Dyon JF, Chappuis JP, Valla JS. Les tumeurs solides de la surrenale chez l'enfant. *Chir Pediatr* 1989;30:209-214.
3. Yamamoto H, Yoshida M, Sera Y. Laparoscopic surgery for neuroblastoma identified by mass screening. *J Pediatr Surg* 1996;31:385-388.
4. Nakajima K, Wasa M, Soh H, Kusafuka T, Imura K, Okada A. Laparoscopic resection of adrenal tumors in children. *Pediatr Endosurg Innov Tech* 1999;3:73-77.

Address reprint requests to:
Dr. Manuel Lopez
 3 Place Emile Granier
 34160 Castries
 France

E-mail: Mlopez50@atinmail.com

This article has been cited by:

1. 2010. IPEG Guidelines for the Surgical Treatment of Adrenal Masses in Children. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques* 20:2, ix-xi. [[Citation](#)] [[Full Text HTML](#)] [[Full Text PDF](#)] [[Full Text PDF with Links](#)]

Commentaires de l'article

Le point le plus important dans ce type de chirurgie est la sélection préopératoire appropriée. L'approche mini-invasive doit être réservée à des lésions bénignes et à certains cas sélectionnés de neuroblastome. Le premier critère de bénignité, qui est facile à mesurer, est la taille de la tumeur qui est habituellement associée à la nature de la tumeur : plus la tumeur est grande, plus elle est probablement maligne. Nakajima *et al* pensent que la résection laparoscopique des tumeurs de 50 mm ou plus petite est techniquement faisable chez l'enfant (1). Le deuxième critère de bénignité est radiologique par échographie, tomodensitométrie, ou par résonance magnétique, en montrant un aspect non invasif. La Scintigraphie métaiodobenzylguanidine (MIBG) est très utile pour les tumeurs contenant des vaisseaux adrénergiques, mais il n'a pas de valeur pour distinguer les tumeurs bénignes des lésions malignes. Si un neuroblastome est suspect, les niveaux élevés d'acide homovanillique (HVA) et de l'acide vanillylmandélique (VMA) sont bien corrélés avec la malignité, cependant, les niveaux normaux ne sont pas totalement rassurants.

Dans le cas de phéochromocytome, les niveaux de VMA et HVA sont presque toujours élevés, et les tumeurs qui produisent la dopamine et le peptide intestinal vaso-actif (VIP) sont souvent malignes. Dans les cas de tumeurs corticales sécrétantes, l'incidence de bénignité est augmentée pour les tumeurs avec production de cortisol pur. Le phéochromocytome constitue la principale indication de résection laparoscopique car ces lésions sont bénignes dans 80 à 90% des cas.

Quel que soit le type de tumeur, l'extraction doit respecter les principes oncologiques, en particulier pour les tumeurs telles que le phéochromocytome. Il doit être mobilisé avec peu de manipulation pour éviter la libération de

catécholamines. Le choix de la voie d'abord dépend du côté de la tumeur, de sa taille et des rapports avec les gros vaisseaux. Une tumeur inférieure à 3-4 cm peut être abordée par rétropéritonéoscopie quel que soit le côté. Au-delà de cette taille, du côté droit, il faut privilégier la laparoscopie afin de visualiser correctement la veine surrénalienne moyenne droite, toujours très courte, et alors impossible à contrôler par rétropéritonéoscopie puisqu'on dissèque d'abord le bord externe de la tumeur et que le bord interne n'est visualisé qu'en fin de procédure, sans aucun contrôle de cette veine. Toute tumeur surrénalienne qui englobe le pédicule rénal ou les gros vaisseaux représente une contre-indication à la chirurgie mini-invasive, nécessitant leur contrôle à tout moment en cas d'hémorragie, ce qui n'est encore pas réalisable sous laparoscopie ou rétropéritonéoscopie (2).

Références

1. Nakajima K, Fukuzawa M, Fukui Y, Komoto Y, Usui N, Iiboshi Y, Nose K, Okada A. Laparoscopic resection of mass-screened adrenal neuroblastoma in an 8-month-old infant. *Surg Laparosc Endosc*. 1997 Dec;7(6):498-50
2. Leclair MD, de Lagausie P, Becmeur F, Varlet F, Thomas C, Valla JS, Petit T, Philippe-Chomette P, Mure PY, Sarnacki S, Michon J, Heloury Y. Laparoscopic resection of abdominal neuroblastoma. *Ann Surg Oncol*. 2008 Jan;15(1):117-24.

Chirurgie Urologique



Le syndrome de la jonction pyélo-urétérale sous Coelioscopie

Depuis de nombreuses décennies, la pyéloplastie par voie ouverte était le gold-standard dans le traitement de la sténose de la jonction pyélo-urétérale (JPU) chez les enfants et les adultes, avec un taux global de succès entre 90 et 100%. Depuis la première description de la cure de sténose de la JPU sous coelioscopie chez l'enfant en 1995 (1), différentes études ont été rapportées, avec un taux succès similaire à celui de la chirurgie ouverte, que ce soit sous laparoscopie ou sous rétropéritonéoscopie (2). Concernant la voie d'abord entre la rétropéritonéoscopie et la voie trans-péritonéale, plusieurs rapports ont démontré l'absence de différence entre ces deux voies d'abord en terme de résultats et le choix est fait en fonction de l'expérience du chirurgien. Cependant, dans certains cas particuliers, la voie trans-péritonéale est conseillée, notamment en présence d'un rein en fer en cheval, d'un rein ectopique pelvien, d'une sténose de l'anastomose ou en cas de vaisseaux polaires non vus. Nous préférons cette approche laparoscopique en raison d'un espace de travail plus grand facilitant la suture, en particulier chez les patients de moins d'un an. En effet l'anastomose de la JPU reste une intervention difficile et pour cette raison nous avons eu deux conversions en début d'expérience, avec un temps opératoire prolongé. Après réflexion, et à partir de 2007, nous avons imaginé de stabiliser le bassinet et l'uretère par des « points de suspension » à travers la paroi abdominale et de faire le premier point d'anastomose également de façon transpariétale. Cette stabilisation des différents éléments s'est avérée essentielle et nous a permis d'effectuer beaucoup plus facilement une anastomose de bonne qualité, avec une réduction significative de la durée opératoire, et l'absence de conversion, y compris chez l'enfant de moins de 1 an. L'utilisation de trocarts de 3 mm est une

recommandation lors de cette procédure, ainsi que la pose d'une sonde double J ou d'une blue-stent, ce qui permet de protéger l'anastomose et de réduire le risque de fistules.

Actuellement se pose la question de la chirurgie robotique dont plusieurs méta-analyses montrent des résultats équivalents concernant les fistules post-opératoires, le taux de succès, et la durée opératoire (3). Certains pensent que les résultats sont encore meilleurs avec le robot, mais ce n'est pas démontré d'une part, et tout le monde n'a pas de robot à sa disposition d'autre part...compte-tenu de son coût élevé.

Dans deux articles, nous avons rapporté une étude bicentrique, ainsi que notre expérience préliminaire de la cure cœlioscopique de la sténose de la JPU chez l'enfant, afin d'évaluer les résultats et les bénéfices de l'approche par voies trans-peritonéale.

Ces études ont été publiées dans le Journal of Surgical Endoscopic Percutaneous Technique et dans le Journal of Pediatric Urology en 2009 en tant que premier auteur. Ces publications ont fait l'objet de communications avec comité de lecture dans des congrès scientifiques internationaux et nationaux.

1. Traitement laparoscopique de la jonction pyélo-urétérale chez l'enfant
17th réunion du Groupe d'Etude de Coeliochirurgie Infantile. (GECI),
Nice, France, 12 Juin, 2008.
2. Laparoscopic pyeloplasty for repair of ureteropelvic junction obstruction in
children. IPEG's 17th Annual Congress for Endosurgery in Children,
Cannes, France, 13-17 Juin, 2008.
3. Laparoscopic Pyeloplasty For Repair of Ureteropelvic Junction
Obstruction In Children. 18th Annual Congress for Endosurgery in
Children. IPEG April 21-25,2009 Phoenix, Arizona.

4. The role of laparoscopic Pyeloplasty for primary repair of ureteropelvic junction obstruction in infants under 1 year of age. 21th Annual Meeting of GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile) Bellinzona, Suisse. October 14 -15, 2012. « Prix de la Meilleure Communication »

Laparoscopic Pyeloplasty for Repair of Pelviureteric Junction Obstruction in Children

Manuel Lopez, MD,¹ Emmanuelle Guye, MD,¹ Francois Becmeur, MD, PhD,²
 Francesco Molinaro, MD,² Raphael Moog, MD,² and Francois Varlet, PhD¹

Abstract

Purpose: The aim of this study was to report our initial experience with laparoscopic pyeloplasty (LP) in children with pelviureteric junction (PUJ) obstruction and describe the evolution and evaluate the results.

Materials and Methods: We retrospectively reviewed the records of 32 consecutive infants and children with unilateral ureteropelvic junction obstruction and deterioration of renal function on isotope renography, who underwent LP (19 on the right, 13 on the left) between May 2003 and January 2007. Twenty-three were males and 9 females. The mean age was 7.7 years old (range, 2 months to 17 years); the patient was placed in a three quarter lateral position and three ports were used. The PUJ was resected and the anastomosis was made by using absorbable sutures. A JJ stent was inserted by laparoscopy in most patients. Follow-up included clinical and ultrasound assessment, followed by isotopic renography at 6 months.

Results: LP was feasible in 29 of 32 patients (91%). The procedure could not be completed by laparoscopy in 3 patients; the main reason was difficulty in completing the anastomosis. Only 1 patient with a big redundant renal pelvis underwent a reduction. Stent insertion was successful in all, except 1 patient. An aberrant crossing vessel was found in 12 patients. We held up the aberrant crossing vessel and PUJ with two- or three-point—not absorbable—sutures, without the needed pyeloplasty in 2 of them. The other 10 underwent a LP enabled ureteric transposition. Three patients presented with postoperative complications: pyelonephritis in 2 patients and PUJ leakage in 1 who underwent nephrostomy with a further uneventful course. Mean operative time was 152 minutes (range, 120–270), and average hospital stay was 4.7 days (range, 1–8). In 1 patient, cystoscopy showed that the JJ stent was not in the bladder at the time of removal, and ureteroscopy was used to retrieve it. Mean follow-up was 22 months (range, 2–56). A total of 29 patients (91%) were asymptomatic after removal of the double JJ stent, showing a reduction of the degree of hydronephrosis in all patients, and had also improved PUJ drainage on isotope renography or sonography.

Conclusions: LP is effective and safe in children with minimal morbidity and gives excellent short-term results. The feasibility is also excellent in patients younger than 1 year. The transabdominal approach revealed good exposition without disadvantages for the patient.

Introduction

FOR SEVERAL DECADES, open pyeloplasty has been the mainstay of treatment for pelviureteric junction (PUJ) obstruction in children and adults, with reported overall success rates of between 90% and 100%.^{1,2} Several minimally invasive procedures have evolved during the past two decades. The growing experience with ablative and reconstructive urologic laparoscopic procedures has encouraged laparoscopic groups to attempt the laparoscopic approach to treat for PUJ obstruction. This combines the advantages of a

minimally invasive procedure with the safety and high success rates obtained with the open approach.³ In this paper, we report our initial experience with laparoscopic pyeloplasty (LP) in children with PUJ to describe the evolution and to evaluate the results for these patients.

Materials and Methods

A retrospective review of the records of 32 consecutive infants and children (23 males and 9 females) with unilateral PUJ obstruction and deterioration of renal function, who un-

¹Department of Pediatric Surgery, University Hospital of Saint Etienne, Saint Etienne, France.

²Department of Pediatric Surgery, University Hospital of Strasbourg, Strasbourg, France.

derwent LP between May 2003 and January 2007 was conducted at our tertiary institution. The mean age at surgery was 7.7 years (range, 2 months to 17 years). One of them had undergone open pyeloplasty before LP with secondary PUJ obstruction. Children were evaluated preoperatively with renal ultrasound and isotope renography to assess the degree of hydronephrosis and support the need for surgery. The Anderson-Hynes technique was performed by the transperitoneal approach. The patient was placed in a three quarter lateral position and three ports were used in all cases. The colon was displaced to expose the renal pelvis and ureter. The proximal ureter was identified, isolated, and dissected toward the PUJ. The renal pelvis was mobilized to achieve sufficient freedom for a tension-free anastomosis. The stay sutures were inserted through the abdominal wall and were placed in the ureter side and renal pelvis side. After transecting the pelvis 1 cm proximal to the PUJ, the ureter was spatulated below the stenotic. Another stay suture was inserted through the abdominal wall and was placed in each side to expose the PUJ before starting the anastomosis (Fig. 1). The posterior wall was anastomosed first by using a running 5-0 PDS suture. When the posterior wall was finished, a JJ stent was inserted by laparoscopy, and the anterior wall was then anastomosed in a similar fashion. The double JJ stent was removed 4 weeks after surgery. In 12 PUJ patients, a lower pole vessel was found. From those, the last 2 patients underwent a technique consisting of exposing the lower pole vessels via the transperitoneal approach. The lower pole vessels were dissected free of the PUJ and full mobility of the PUJ was confirmed. The lower pole vessels were then pexed in a cephalic position well away from the region of the PUJ by suturing the pelvis on either side of the vessels with two- or three-point—not absorbable—sutures without tension. Follow-up included clinical and ultrasound assessment after removing the JJ stent at 1 and 3 months postoperatively, and an isotope renography control was performed systematically at 6 months postoperatively.

Results

LP was feasible in 29 of 32 patients (91%). The procedure could not be completed by laparoscopy in 3 patients, the

main reason being difficulty in completing the anastomosis. In the other patients, the procedure was successful. Only 1 patient with a big redundant renal pelvis needed a reduction. Stent insertion was successful in all, except in 1 patient.

An aberrant crossing vessel was found in 12 patients, and none had been detected preoperatively. We held up the aberrant crossing vessel and PUJ by two- or three-point—not absorbable—sutures, without the needed pyeloplasty in 2. The other 10 underwent an LP-enabled ureteric transposition. At the time of surgery, 1 child had an inguinal hernia repaired coincidentally. The mean operative time was 152 minutes (range, 70–270), and 3 patients presented with postoperative complications: pyelonephritis in 2 patients and PUJ leakage in 1 who underwent a nephrostomy with a further uneventful course. The average hospital stay was 4.7 (range, 1–8) days. In 1 patient, the JJ stent was not into the bladder at the time of removal by cystoscopy, and a ureteroscopy was used to retrieve it.

Mean follow-up was 22 months (range, 2–56). A total of 29 patients were asymptomatic after removal of the double JJ stent. Decreased hydronephrosis and resolution of symptoms occurred in all patients and had also improved PUJ drainage on isotope renography or sonography. No patients had a secondary PUJ.

Discussion

The technique of laparoscopic pyeloplasty has been shown to be beneficial in the adult population in terms of decreased postoperative pain, shorter hospital stay, and quicker return to normal activity. These benefits are secondary to the less traumatic access of laparoscopy versus open surgical incision.⁴⁻⁶ At the beginning of this series, the operative time was longer, especially in younger patients. The difficulty that we found was in performing the anastomosis, especially in younger patients, where it was more challenging technically for pyeloplasty, and for this reason, we had 3 patients converted to open. However, today, the experience acquired and the use of the stay sutures through the abdominal wall, placed in the ureter side and renal pelvis side to stabilize the PUJ before starting the anastomosis, allowed us to easily perform an anastomosis and reduce the operative time. The mean operative time before and after the use of stay sutures

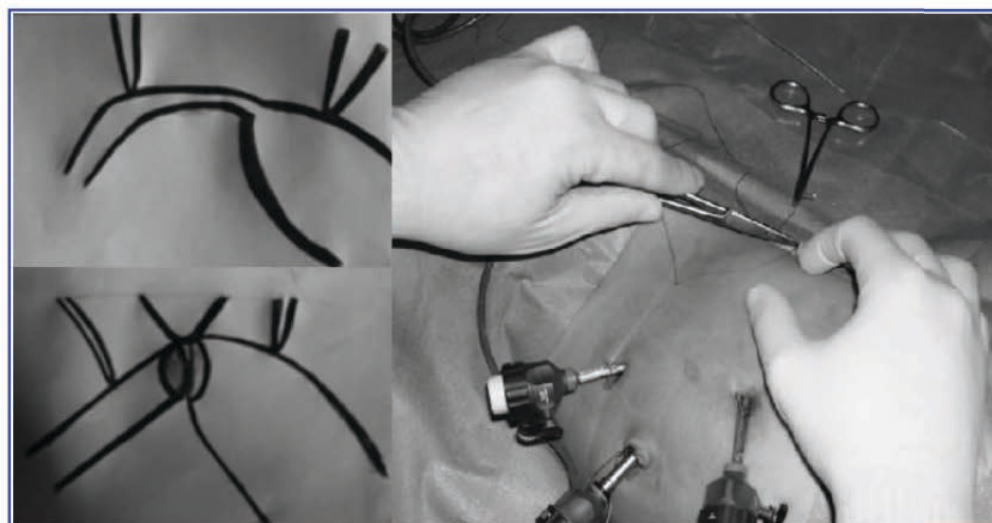


FIG. 1 PUJ exposition before starting the anastomosis

LAPAROSCOPIC PYELOPLASTY REPAIR OF PUJ OBSTRUCTION

was different, at 152 versus 90 minutes without a conversion (even in infants younger than 1 year).

The use of 3-mm trocars is recommended to perform this procedure,^{7,8} and a double-J catheter placed during an LP is recommended, since it prevents urinary leakage without the need of a drain.^{9,10} In our series, one JJ stent could not be placed due a JJ size problem. One patient required an operative intervention for PUJ leakage and underwent a nephrostomy, with a further uneventful course at the beginning of the series. Metzelder et al. described postoperative urine leakage in 3 of 46 children who underwent an LP, 2 of them requiring operative interventions.¹⁰ One of their patients had no intraoperative stent placed; in the others, the stent was dislodged and had to be replaced.¹⁰

In our series, laparoscopic dismembered pyeloplasty was not performed systematically. The Reismann series showed, on a functional basis, that excision of the pelvis is not necessary in an LP.¹¹ There was no secondary PUJ after stent removal in our series. Decreased hydronephrosis and resolution of symptoms occurred in all patients and had also improved PUJ drainage on isotope renography and sonography. Late recurrences, although uncommon, are also possible,¹² but long-term follow-up is necessary.

We reoperated on a secondary PUJ after an open pyeloplasty by the posterior approach. The LP was possible without major difficulties and allowed us to identify the lower polar vessel, which was not viewed during the first procedure. In the last 2 cases of an aberrant crossing vessel, the lower pole vessels were dissected free of the PUJ and full mobility of the PUJ was confirmed. The lower pole vessels were then pexed in a cephalic position well away from the region of the PUJ by suturing the pelvis on both sides of the vessels with two to three nonabsorbable sutures without tension. In the only 2 cases that we performed, we observed good drainage on the postoperative MAG3 renogram, and improvement in ultrasound appearance. However, a long-term follow-up is necessary. Godbole's series suggests that laparoscopic transposition of lower pole vessels may be a useful alternative to dismembered pyeloplasty in the management of symptomatic children, where lower pole vessels are deemed to be the sole etiology. They showed 12 of 13 cases after the laparoscopic transposition of lower vessels remaining symptom free with improved drainage, as confirmed by ultrasound and MAG3.¹³

Conclusions

In conclusion, LP is effective and safe in children with minimal morbidity and gives excellent short-term results. The transabdominal approach revealed good exposition without disadvantages for the patient. However, the LP is more difficult than the open pyeloplasty. The feasibility is also excellent in patients younger than 1 year. In cases of PUJ with lower polar vessel, a laparoscopic transposition of lower polar vessel without a pyeloplasty is an alternative, but a long follow-up is necessary.

Disclosure Statement

No competing financial interests exist.

References

1. Notley RG, Beaugie JM. The long-term follow-up of Anderson-Hynes pyeloplasty for hydronephrosis. *Br J Urol* 1973;145:464-467.
2. Persky L, Krause JR, Boulouch RL. Initial complications and late results in dismembered pyeloplasty. *J Urol* 1977;118:162-165.
3. Siqueira TM, Jr, Nadu A, Kuo RL, Paterson RF, Lingeman JE, Shalhav AL. Laparoscopic treatment for ureteropelvic junction obstruction. *Urology* 2002;60:973-978.
4. Moore RG, Averch TD, Schulam PG, Adams JB, II, Chen RN, Kavoussi LR. Laparoscopic pyeloplasty: Experience with the initial 30 cases. *J Urol* 1997;157:459-462.
5. Klinger HC, Remzi M, Janetschek G, Kratzik C, Marberger MJ. Comparison of open versus laparoscopic pyeloplasty techniques in treatment of uretero-pelvic junction obstruction. *Eur Urol* 2003;44:340-345.
6. Soulié M, Thoulouzan M, Seguin P, Mouly P, Vazzoler N, Pontonnier F, et al. Retroperitoneal laparoscopic versus open pyeloplasty with a minimal incision: Comparison of two surgical approaches. *Urology* 2001;57:443-447.
7. Kutikov A, Resnick M, Casale P. Laparoscopic pyeloplasty in the infant younger than 6 months—is it technically possible? *J Urol* 2006;175:1477-1479.
8. Cascio S, Tien A, Chee W, Tan HL. Laparoscopic dismembered pyeloplasty in children younger than 2 years. *J Urol* 2007;177:355-358.
9. Reddy M, Nerli RB, Bashetty R, Ravish IR. Laparoscopic dismembered pyeloplasty in children. *J Urol* 2005;174:700-702.
10. Metzelder ML, Schier F, Petersen C, Truss M, Ure BM. Laparoscopic transabdominal pyeloplasty in children is feasible irrespective of age. *J Urol* 2006;175:688-691.
11. Reismann M, Gratz KF, Metzelder M, Ure B, Glüer S. Excision of the Dilated Pelvis is not necessary in laparoscopic dismembered pyeloplasty. *Eur J Pediatr Surg* 2008;18:19-21.
12. Tan HL. Laparoscopic Anderson-Hynes dismembered pyeloplasty in children. *J Urol* 1999;162:1045-1047.
13. Godbole P, Mushtaq I, Wilcox DT, Duffy PG. Laparoscopic transposition of lower pole vessels—the “vascular hitch”: An alternative to dismembered pyeloplasty for pelviureteric junction obstruction in children. *J Pediatric Urol* 2006; 2:285-289.

Address reprint requests to:

Manuel Lopez, MD
 Department of Pediatric Surgery
 University Hospital of Saint Etienne
 Avenue Albert Raimond
 Saint Priest en Jarez
 42055 Saint Etienne Cedex 2
 France

E-mail: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr



ELSEVIER

Journal of
**Pediatric
urology**

REVIEW ARTICLE

Laparoscopic pyeloplasty for repair of pelvi-ureteric junction obstruction in children

M. Lopez*, E. Guye, F. Varlet

Department of Paediatric Surgery, University Hospital of Saint Etienne, Saint Etienne, France

Received 26 June 2008; accepted 21 August 2008

Available online 31 October 2008

KEYWORDS

Pediatric;
Ureteropelvic junction
obstruction;
Laparoscopic

Abstract Purpose: To report our initial experience with laparoscopic pyeloplasty (LP) in children with pelvi-ureteric junction (PUJ) obstruction, and to describe the evolution and evaluate the results for these patients.

Materials and methods: Between May 2005 and April 2008, we retrospectively reviewed the records of 28 consecutive infants and children (20 males, eight females; mean age 63 months, range 2–180 months) with unilateral PUJ obstruction, some with deterioration of renal function on isotope renography. They all underwent LP (18 on the right, 10 on the left). The patient was placed in a 3/4 lateral position with three ports. The PUJ was resected and the anastomosis made using absorbable sutures. A JJ stent was inserted by laparoscopy in the majority of patients. Follow-up included clinical and ultrasound assessment, and isotope renography at 6 months.

Results: LP was feasible in 26 of 28 patients (93%). The procedure could not be completed by laparoscopy in two patients, the main reason being difficulty in completing the anastomosis. Stent insertion was successful in 25 of the remaining 26 cases. In the one unsuccessful case, a perianastomotic drain was placed without complication in the postoperative period.

An aberrant crossing vessel was found in four patients. In two we held up the aberrant crossing vessel and PUJ by 2–3 non-absorbable sutures without tension, and without the need for pyeloplasty. In the other two cases we performed an LP-enabled ureteric transposition.

There were three postoperative complications: pyelonephritis in two patients and one patient required operative intervention for PUJ leakage, and underwent a nephrostomy with a further uneventful course. The mean operative time was 145 min (range 70–270 min), and mean hospital stay was 4 (1–8) days. In one patient the JJ time of removal by cystoscopy, and ureteroscopy was used to retrieve it.

Mean follow-up was 18 months (range 4–64 months). The 26 patients who underwent LP were asymptomatic after removal of the double JJ stent, showing reduction of the degree of hydronephrosis in all patients, and had also improved PUJ drainage on isotope renography or sonography.

* Corresponding author.

E-mail address: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr (M. Lopez).

Conclusions: LP is effective and safe in children with minimal morbidity and gives excellent short-term results. The feasibility is also excellent in patients younger than 1 year. The trans-abdominal approach revealed good exposition without disadvantage to the patient. However, the LP is more difficult and the operative time remains longer than open pyeloplasty.

© 2008 Journal of Pediatric Urology Company. Published by Elsevier Ltd. All rights reserved.

Introduction

For several decades, open pyeloplasty has been the mainstay of treatment for PUJ obstruction in children and adults, with reported overall success rates of between 90% and 100% [1,2]. Several minimally invasive procedures have evolved during the past two decades. Growing experience with ablative and reconstructive urologic laparoscopic procedures has encouraged laparoscopic groups to attempt the laparoscopic approach to treat PUJ obstruction, which would combine the advantages of a minimally invasive procedure with the safety and high success rates of the open approach [3]. We report our initial experience with laparoscopic pyeloplasty (LP) in children with PUJ, and describe the evolution and evaluate the results for these patients.

Materials and methods

A retrospective review was carried out of the records of 28 consecutive infants and children (20 males and eight females) with unilateral PUJ obstruction, some with deterioration of renal function. These patients underwent LP between May 2005 and April 2008 at our tertiary institution. The mean age at surgery was 63 months (range 2–180 months). Eleven patients were younger than 2 years. Eight of them were younger than 1 year and weighed less than 10 kg.

One of them had undergone open pyeloplasty before LP with secondary PUJ obstruction. Children were evaluated preoperatively with renal ultrasound and isotope renography to assess degree of hydronephrosis and support the need for surgery. No aberrant crossing vessel was detected preoperatively. However, four patients had been suspected by clinical symptoms, and had no deterioration of renal function.

Operative technique

The Anderson–Hynes technique was performed by transperitoneal approach. The patient was placed in a 3/4 lateral position (Fig. 1); three 3-mm ports were used in all cases. The colon was displaced to expose the renal pelvis

and ureter. The proximal ureter was identified, isolated and dissected toward the PUJ. The renal pelvis was mobilized to achieve sufficient freedom for a tension-free anastomosis. The stay sutures were inserted through the abdominal wall and were placed in ureter side and renal pelvis side. After transecting the pelvis 1-cm proximal to the PUJ, the ureter was spatulated below the stenosis. Another stay suture was inserted through the abdominal wall and was placed in each side to expose the PUJ before starting the anastomosis (Fig. 2). The posterior wall was anastomosed first using a running 5-0 PDS suture. When the posterior wall was finished, a JJ stent was placed percutaneously through the abdominal wall by Angiocath and inserted in the PUJ by laparoscopy. The anterior wall was then anastomosed in a similar fashion. The double JJ stent was removed 4 weeks after surgery. In the last two PUJ patients, when a crossing vessel was found, the technique consisted of exposing the lower pole vessels via the transperitoneal approach. The lower pole vessels were dissected free of the PUJ and full mobility of the PUJ was confirmed. The lower pole vessels were then pexed in a cephalic position well away from the region of the PUJ by suturing the pelvis on either side of the vessels with 2–3 non-absorbable sutures without tension. Follow-up included clinical and ultrasound assessment after removal of JJ stent at 1 month post-operative, 3 months, and isotope renography control was performed systematically at 6 months postoperative.

Results

LP was feasible in 26 of 28 patients (93%). The procedure could not be completed by laparoscopy in two patients at the beginning of the series, the main reason being difficulty in completing the anastomosis; in the other patients the procedure was successful. Stent insertion was successful in 25 of 26 cases. In one case the stent insertion was unsuccessful; therefore a perianastomotic drain was placed without complication in the postoperative period. Table 1 provides an ultrasonographic gradient system for hydronephrosis and percentage differential renal function pre- and postoperatively by isotope renography.

An aberrant crossing vessel was found in four patients, whereas none had been detected preoperatively. For the

Table 1 Scanned focussed ultrasound (SFU) gradient system for hydronephrosis and percentage differential renal function by isotope renography in 26/28 patients undergoing laparoscopic approach

| Patients | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 | 7 | 8 | 9 | 10 | 11 | 12 | 13 | 14 | 15 | 16 | 17 | 18 | 19 | 20 | 21 | 22 | 23 | 24 | 25 | 26 |
|-------------------------|-----|-----|-----|-----|----|----|-----|-----|----|-----|----|-----|----|-----|----|----|-----|-----|----|-----|----|-----|-----|----|-----|----|
| SFU gradient | III | III | III | III | IV | II | III | III | IV | III | IV | III | IV | III | II | IV | III | III | IV | III | II | III | III | II | III | IV |
| Preoperative renograph | 43 | 40 | 43 | 47 | 25 | 47 | 43 | 41 | 25 | 43 | 18 | 42 | 18 | 40 | 48 | 23 | 39 | 40 | 23 | 42 | 46 | 38 | 43 | 47 | 45 | 42 |
| Postoperative renograph | 43 | 43 | 44 | 47 | 37 | 47 | 43 | 45 | 27 | 45 | 22 | 43 | 20 | 42 | 48 | 24 | 40 | 40 | 25 | 43 | 47 | 39 | 45 | 49 | 45 | 43 |



Figure 1 Patient and trocar positions.

last two of these cases, we held up the aberrant crossing vessel and PUJ using 2–3 non-absorbable sutures, without the need for pyeloplasty; the operative times were 70 and 90 min. In the other two cases we performed an LP-enabled ureteric transposition. One of them had undergone pyeloplasty by open surgery before LP with secondary PUJ obstruction. At the time of surgery, one child had an inguinal hernia repaired coincidentally.

The mean operative time was 145 min (range 70–270 min). In the last 10 cases stay sutures were used; the mean operative time in these cases was 90 min. At the beginning of this series the operative time was longer, especially for younger patients, in whom pyeloplasty was more challenging technically. However, the experience acquired and the use of stay sutures allowed a significant reduction in operative time for all cases. The mean operative time before and after use of stay sutures was different (157 vs 90 min) in our series.

There were immediate postoperative complications in three children aged 5, 3 and 1 years. Pyelonephritis occurred in two patients on the 2nd postoperative day due to a urinary infection that was not detected during the preoperative period. In both cases antibiotherapy was necessary with excellent results. One patient required operative intervention for PUJ leakage at the beginning of

the series, and underwent nephrostomy with a further uneventful course.

The mean hospital stay was 4 (1–8) days. In one patient the JJ stent was not in the bladder at the time of removal by cystoscopy, and ureteroscopy was used to retrieve it.

Mean follow-up was 18 months (range 4–64 months). A total of 26 patients who underwent LP were asymptomatic after removal of the double JJ stent. Decreased hydronephrosis and resolution of symptoms occurred in all patients, who had also improved PUJ drainage on isotope renography or sonography. No patients developed pyelonephritis after pyeloplasty in long-term follow-up, nor recurrent or secondary PUJ obstruction.

Discussion

The spectrum of paediatric laparoscopy has undergone a dramatic evolution. Initially used as a diagnostic tool, laparoscopically complex and reconstructive procedures are now performed [4].

The technique of LP has been shown to be beneficial in the adult population in terms of decreased postoperative pain, shorter hospital stay, and quicker return to normal activity. These benefits are secondary to the less traumatic access of laparoscopy vs open surgical incision [5–7].

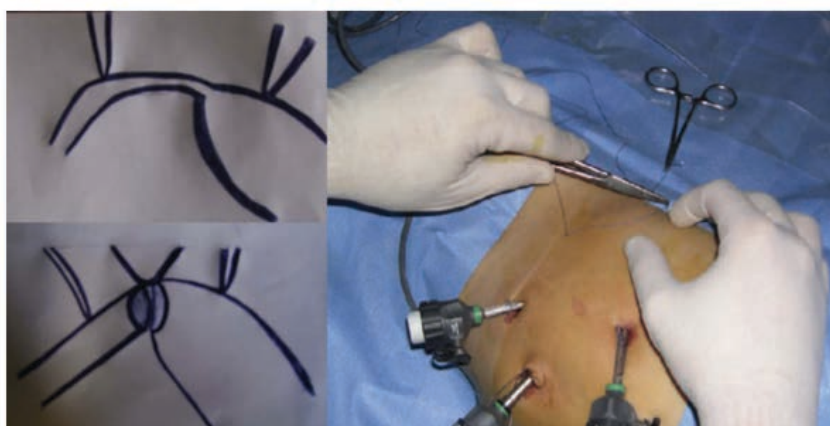


Figure 2 PUJ exposition before start of the anastomosis.

Since the first LP was described in a child in 1995, there have been several reports of pyeloplasty in older children and infants. Paediatric laparoscopy to treat PUJ obstruction has been reported to decrease hospital stay and analgesic requirement compared to open pyeloplasty, but it is not clear if all age groups benefit from this approach. Piaggio et al. showed that transperitoneal LP could be performed safely in all paediatric age groups with minimal morbidity and excellent short-term results, but in infants LP is more difficult and time consuming than open pyeloplasty [8].

Transperitoneal LP was utilized in all our paediatric cases; we prefer this approach because of the large working space for suturing especially in the younger patients. But in the literature no difference is reported between the retroperitoneoscopic and laparoscopic approaches; both procedures are considered today as feasible and safe in well-trained hands [9–11].

The difficulty in this technique that we found at the beginning of the series was in performing the anastomosis, and for this reason we had two conversions, with surgical time extended. However, experience was acquired and we started to use stay sutures through the abdominal wall placed ureter side and renal pelvis side to stabilize the PUJ before starting the anastomosis; this key point allowed us to easily perform an anastomosis in the last 10 cases, reducing the operative time to about 90 min without conversion including in the infants younger than 1 year.

The use of 3-mm trocars is recommended to perform this procedure [12,13], and double J catheter placement during LP is another recommendation, since it prevents urinary leakage and obviates the need for a perianastomotic drain [14,15]. In our series, in one case a JJ stent could not be placed due to a JJ size problem. One patient required operative intervention for PUJ leakage, and underwent nephrostomy with a further uneventful course at the beginning of series. Metzelder et al. described postoperative urine leakage in three of 46 children who underwent LP, two of them requiring operative interventions. One of their patients had no intraoperative stent placed, and in the others the stent was dislodged and had to be replaced [15].

LP with reduction of the pelvis was not performed in our series. Reismann et al. showed, on a functional basis, that excision of the pelvis is not necessary in LP [16].

In our series there was no secondary PUJ after stent removal. Decreased hydronephrosis and resolution of symptoms occurred in all patients who had also improved PUJ drainage on isotope renography or sonography. Late recurrences although uncommon are possible [17], and long-term follow-up is necessary.

We re-operated a secondary PUJ after failed open pyeloplasty by posterior approach; LP was feasible without major difficulties, with a good result and identification of the lower polar vessels that were not viewed in the first procedure. We agree with Basiri et al. [18] and Piaggio et al. [19] on the feasibility of redo LP in the paediatric population, with a success rate similar to that of open surgery in patients with previous open pyeloplasty or LP.

In the last two cases of an aberrant crossing vessel, the lower pole vessels were dissected free of the PUJ and full mobility of the PUJ was confirmed. The lower pole vessels were then pexed in a cephalic position well away from the

region of the PUJ by suturing the pelvis on both sides of the vessels with 2–3 non-absorbable sutures without tension. Two cases showed good drainage on postoperative MAG3 renogram and improvement in ultrasound appearance, but long-term follow-up is necessary. Godbole et al. suggested that laparoscopic transposition of lower pole vessels may be a useful alternative to dismembered pyeloplasty in the management of symptomatic children where lower pole vessels are deemed to be the sole aetiology. They showed 12/13 cases after laparoscopic transposition of lower vessels remaining symptom free with improvement on ultrasound and MAG3 [20].

In conclusion, LP is effective and safe in children with minimal morbidity and gives excellent short-term results. The transabdominal approach revealed good exposition without disadvantage to the patient. However, the LP is more difficult and the operative time remains longer than for open pyeloplasty. Feasibility of LP is also excellent in patients younger than 1 year and infants weighing less than 10 kg with outcomes comparable to that of open surgery [21,22], and in such cases may be considered a good option for surgeons making the transition to LP [23–25]. In cases of PUJ obstruction involving the lower polar vessels, laparoscopic transposition of lower polar vessels without pyeloplasty is an alternative but a long follow-up is necessary.

References

- [1] Notley RG, Beaugie JM. The long-term follow-up of Anderson–Hynes pyeloplasty for hydronephrosis. *Br J Urol* 1973;145:464–7.
- [2] Persky L, Krause JR, Boulouch RL. Initial complications and late results in dismembered pyeloplasty. *J Urol* 1977;118:162–5.
- [3] Siqueira Jr Tibrio M, Nadu Andrei, Kuo Ramsay L, Paterson Ryan F, Lingeman James E, Shalhav Arie L. Laparoscopic treatment for ureteropelvic junction obstruction. *Urology* 2002;60:973–8.
- [4] Smaldone MC, Polsky E, Ricchiuti DJ, Docimo SG. Advances in pediatric urologic laparoscopy. *Scientific World J* 2007;22:727–41.
- [5] Moore RG, Averch TD, Schulam PG, Adams II JB, Chen RN, Kavoussi LR. Laparoscopic pyeloplasty: experience with the initial 30 cases. *J Urol* 1997;157:459–62.
- [6] Klinger HC, Remzi M, Janetschek G, Kratzik C, Marberger MJ. Comparison of open versus laparoscopic pyeloplasty techniques in treatment of uretero-pelvic junction obstruction. *Eur Urol* 2003;44:340–5.
- [7] Soulié M, Thoulouzan M, Seguin P, Mouly P, Vazzoler N, Pontonnier F. Retroperitoneal laparoscopic versus open pyeloplasty with a minimal incision: comparison of two surgical approaches. *Urology* 2001;57:443–7.
- [8] Piaggio LA, Franc-Guimond J, Noh PH, Wehry M, Figueroa TE, Barthold J, et al. Transperitoneal laparoscopic pyeloplasty for primary repair of ureteropelvic junction obstruction in infants and children: comparison with open surgery. *J Urol* 2007;4:1579–83.
- [9] Singh H, Ganpule A, Malhotra V, Manohar T, Muthu V, Desai M. Transperitoneal laparoscopic pyeloplasty in children. *J Endourol* 2007;12:1461–6.
- [10] Valla JS. Retroperitoneoscopic surgery in children. *Semin Pediatr Surg* 2007;4:270–7.
- [11] Canon SJ, Jayanthi VR, Lowe GJ. Which is better—retroperitoneoscopic or laparoscopic dismembered pyeloplasty in children? *J Urol* 2007;4:1791–5.

- [12] Kutikov A, Resnick M, Casale P. Laparoscopic pyeloplasty in the infant younger than 6 months – is it technically possible? *J Urol* 2006;175:1477–9.
- [13] Cascio S, Tien A, Chee W, Tan HL. Laparoscopic dismembered pyeloplasty in children younger than 2 years. *J Urol* 2007;177:355–8.
- [14] Reddy M, Nerli RB, Bashetty R, Ravish IR. Laparoscopic dismembered pyeloplasty in children. *J Urol* 2005;174:700–2.
- [15] Metzelder ML, Schier F, Petersen C, Truss M, Ure BM. Laparoscopic transabdominal pyeloplasty in children is feasible irrespective of age. *J Urol* 2006;175:688–91.
- [16] Reismann M, Gratz KF, Metzelder M, Ure B, Glüer S. Excision of the dilated pelvis is not necessary in laparoscopic dismembered pyeloplasty. *Eur J Pediatr Surg* 2008;18:19–21.
- [17] Tan HL. Laparoscopic Anderson–Hynes dismembered pyeloplasty in children. *J Urol* 1999;162:1045–7.
- [18] Basiri A, Behjati S, Zand S, Moghaddam SM. Laparoscopic pyeloplasty in secondary ureteropelvic junction obstruction after failed open surgery. *J Endourol* 2007;9:1045–51.
- [19] Piaggio LA, Noh PH, Gonzalez R. Reoperative laparoscopic pyeloplasty in children: comparison with open surgery. *J Urol* 2007;5:1878–82.
- [20] Godbole P, Mushtaq I, Wilcox DT, Duffy PG. Laparoscopic transposition of lower pole vessels – the ‘vascular hitch’: an alternative to dismembered pyeloplasty for pelvi-ureteric junction obstruction in children. *J Pediatr Urol* 2006;2:285–9.
- [21] Neheman A, Noh PH, Piaggio L, Gonzalez R. The role of laparoscopic surgery for urinary tract reconstruction in infants weighing less than 10 kg: a comparison with open surgery. *J Pediatr Urol* 2008;3:192–6.
- [22] Neheman A, Noh PH, Brenn R, Gonzalez R. Laparoscopic urinary tract surgery in infants weighting 6 kg or less: perioperative considerations and comparison to open surgery. *J Urol* 2008;4:1534–8.
- [23] Sukumar S, Nair B, Sanjeevan KV, Mathew G, Bhat HS. Laparoscopic assisted dismembered pyeloplasty in children: intermediate results. *Pediatr Surg Int* 2008;4:403–6.
- [24] Lam PN, Wong C, Mulholland TL, Campbell JB, Kropp BP. Pediatric laparoscopic pyeloplasty: 4-years experience. *J Endourol* 2007;12:1467–71.
- [25] Braga LH, Pippi-Salle J, Lorenzo AJ, Bagli D, Khoury AE, Farhat WA. Pediatric laparoscopic pyeloplasty in a referral center: lessons learned. *J Endourol* 2007;7:738–42.

Commentaires de l'article

La pyéloplastie sous cœlioscopie est efficace et sûre chez l'enfant, avec un minimum de morbidité, et donne d'excellents résultats à court terme. Dans notre série actuelle, 105 pyéloplasties chez 103 enfants ont été effectuées sous cœlioscopie (94 pyéloplasties, 11 pyélopexies), et 40 % de nos enfants avaient moins de 1 an. Au début de la série, le temps opératoire moyen était de 153 minutes pour les 16 premiers cas ; une fois les points de suspension utilisés, le temps opératoire s'est réduit rapidement à 100 minutes en moyenne et maintenant à 75 minutes. Ayant acquis une expérience certaine et une maîtrise de la technique chirurgicale, nous nous sommes posés la question de savoir si on pouvait se passer de sonde double J, comme certains le font en chirurgie ouverte, afin d'éviter une 2^{ème} anesthésie générale pour son retrait. Ainsi, pour les 6 derniers cas, nous n'avons pas mis de sonde double J et les suites ont été simples. Il est trop tôt pour conclure, mais ceci nous encourage à poursuivre dans cette direction. Finalement, la cure de JPU sous cœlioscopie a été possible dans 98% des cas, avec seulement deux conversions en début d'expérience. La durée d'hospitalisation moyenne était de 27 heures après l'intervention. Nous avons à déplorer 4 fistules, également en début d'expérience, et 4 récurrences, deux chez des enfants de moins de 1 an traitées par cœlioscopie et deux chez des enfants plus grands traitées par une dilatation au ballon dans un cas et sous cœlioscopie dans l'autre cas. La cure de JPU chez les enfants de moins de 1 an est possible avec de bons résultats et comparable à ceux constatés chez les enfants plus âgés, ce qui est peu publié dans la littérature.

En présence de vaisseaux polaires inférieurs sans sténose intrinsèque associée de la JPU, il est possible de ne faire qu'une suspension de ces vaisseaux pour les éloigner de la JPU avec pyélopexie, ce qui a été réalisé dans 11 cas. Une récurrence a nécessité une reprise chirurgicale.

Références

1. Janetschek G. Laparoscopic interventions in urology Wien Klin Wochenschr. 1995;107(2):70-6.
2. Mei H, Pu J, Yang C, Zhang H, Zheng L, Tong Q. Laparoscopic versus open pyeloplasty for ureteropelvic junction obstruction in children: a systematic review and meta-analysis. J Endourol. 2011 May;25(5):727-36.
3. Cundy TP, Harling L, Hughes-Hallett A, Mayer EK, Najmaldin AS, Athanasiou T, Yang GZ, Darzi A. Meta-analysis of robot-assisted vs conventional laparoscopic and open pyeloplasty in children. BJU Int. 2014 ;114:582-94.

Reflux vésico-urétéral et réimplantation vésico-urétérale extra-vésicale sous cœlioscopie

Le reflux vésico-urétéral (RVU) est l'anomalie urologique la plus fréquente chez les enfants et représente l'un des facteurs de risque les plus importants de pyélonéphrite aiguë. La correction chirurgicale fait partie de l'arsenal thérapeutique pour éliminer le RVU, mais l'indication doit être discutée car le traitement médical garde une place importante ; en effet, ce sont des troubles fonctionnels vésicaux qui sont le plus souvent à l'origine du RVU, par des phénomènes d'hyperpression vésicale, et ce sont eux que vise le traitement en premier ; si ce traitement est dépassé ou qu'il existe des lésions importantes du haut appareil, la chirurgie a alors toute sa place. Les techniques mini-invasives sont en cours de développement en tant qu'alternative à la chirurgie ouverte. Le concept de la chirurgie mini-invasive dans la cure du RVU a été introduit en 1984 par O'Donnell et Puri, qui ont décrit l'injection de Téflon* sous-urétérale par endoscopie, ou « Sting technique », avec beaucoup moins d'inconfort. Mais cette approche n'a pas le même taux de succès que la chirurgie ouverte avec un taux de réussite inférieur, de l'ordre de 75-80% après une première injection au lieu de 97-98% avec la réimplantation selon Cohen. Pour cette raison, après l'éclosion de la cœlioscopie, certains ont développé la réimplantation selon Cohen sous pneumovésicoscopie dès 1995, mais avec quelques difficultés concernant l'étanchéité de la vessie en cours d'intervention, résolus progressivement mais allongeant la durée opératoire ; d'autre part, une sonde vésicale doit être laissée en place pendant 2-3 jours après l'intervention pour permettre une bonne cicatrisation. Le taux de succès avec cette technique était bon, entre 92 et 96%

(1). En 2006, Riquelme publiait 15 cas de réimplantation urétérale extra-vésicale laparoscopique selon Lich-Gregoir avec succès (2), ce qui nous semblait être une bonne approche, d'autant que l'abord de la face postérieure de la vessie est aisé sous laparoscopie. La réimplantation urétérale extra-vésicale selon Lich-Gregoir est une technique ancienne datant de 1961, qui a été abandonnée dans les années 70-80, notamment pour les formes bilatérales en raison de 8 à 10% de parésie vésicale sévère post-opératoire ; ceci était dû à la nécessité de décoller toute la vessie pour aborder sa face postérieure, liée à l'incision cutanée antérieure ; lors de cette dissection, le plexus pelvien était lésé dans un certain nombre de cas, responsable des troubles neurologiques vésicaux (3). L'abord de la face postérieure de la vessie étant très simple sous laparoscopie et une simple incision de la paroi musculaire vésicale étant suffisante, en dedans du plexus vésical latéral, la réactualisation du Lich-Gregoir nous est apparue possible et souhaitable. Cette technique chirurgicale mini-invasive du RVU avait été décrite par Atala *et al* chez le cochon (4), et le premier rapport décrit chez l'homme date de 1994 par Ehrlich *et al*, à propos de 2 cas (5). Nous avons été les premiers en Europe à développer cette technique chez l'enfant, avec succès et un taux de guérison de 96%. Peu de centres pédiatriques ont adopté cette approche dans un premier temps, mais depuis quelques années, nous sommes sollicités pour aller aider nos collègues de France, d'Europe et d'Amérique du Sud pour la développer.

Nous avons rapporté un premier travail sur notre expérience préliminaire du traitement extra-vésical transpéritonéal du RVU par laparoscopie (LETA) suivant la technique de Lich-Gregoir. Le but de cette étude était d'évaluer les résultats, l'évolution et les avantages de cette technique (6).

Les duplications pyélo-urétérales sont des malformations congénitales fréquemment observées dans le système génito-urinaire, avec une incidence de

0,8% dans les différentes séries. Le plus souvent est associé un RVU sur l'uretère du pyélon inférieur, dans 85% des cas. La réimplantation urétérale extra-vésicale laparoscopique selon Lich-Gregoir fut également utilisée pour traiter les duplications et un deuxième travail visait à évaluer l'efficacité de cette même technique dans cette situation (7).

De nombreuses techniques ont été décrites, y compris les procédures extra et intra vésicales. Les résultats peuvent varier selon l'auteur, le centre et l'expérience chirurgicale. L'approche endoscopique est devenue un domaine de recherche passionnant. Les premiers résultats des procédures laparoscopiques anti-reflux ont montré des taux de réussite comparables à ceux de la chirurgie ouverte comme le montre Lakshmanan et Fung (8). Les inconvénients majeurs pour la chirurgie laparoscopique anti-reflux sont l'exigence d'un équipement adapté, la nécessité d'accomplir une courbe d'apprentissage et l'acquisition de compétences en cœlioscopie avancée. Le but de notre troisième étude a été d'examiner rétrospectivement l'expérience de plusieurs centres pratiquant la réimplantation laparoscopique extra-vésicale selon la technique de Lich-Gregoir (LEVUR).

Une quatrième publication a été de rapporter notre expérience dans le traitement du RVU par cœlioscopie selon Lich-Gregoir, avec une évaluation des résultats à moyen terme.

Ces quatre études ont été publiées dans le *Journal of Pediatric surgery* en 2010, *Surgical Endoscopic Percutaneous Technique* en 2011, et dans l'*European Journal of Pediatric Surgery* en 2013 et dans le journal espagnol de chirurgie pédiatrique en 2014.

Ces publications ont fait l'objet de communications avec comité de lecture dans de congrès scientifiques internationaux et nationaux.

1. Réimplantation urétérale extra-vésicale laparoscopique (RUEL) : Une alternative pour la cure chirurgicale du reflux vesico-urétérale. Congrès de la Société Française de Chirurgie Pédiatrique, Nantes, 4-7 Juin, 2008.
2. Réimplantation urétérale extra-vésicale laparoscopique (RUEL) : Une alternative pour la cure chirurgicale du reflux vesico-urétérale. 17th réunion du Groupe d'Etude de Coeliochirurgie Infantile, (GECI), Nice, France, 12 Juin, 2008.
3. Laparoscopic Extravesical Reimplantation For Vesico-Ureteral Reflux. 18th Annual Congress for Endosurgery in Children. IPEG April 21-25, 2009 Phoenix, Arizona.
4. Réimplantation urétérale extra-vésicale laparoscopique (RUEL): Une alternative pour la cure chirurgicale du reflux vésico-urétéral de l'enfant 66ème Congrès de la Société Française de Chirurgie Pédiatrique, Angers, France, Juin, 2009. « Prix de la meilleure communication. »
5. The role of Laparoscopic Extravesical transperitoneal approach in refluxing duplicated collecting systems. 19th Annual Congress for Endosurgery in Children. IPEG. June 8-12, 2010, Waikoloa, Hawaii, USA.
6. Laparoscopic Extravesical Ureteral Reimplantation (LEVUR): An International Multicentric Study of 95 cases. 1st World Congress of Pediatric Urology. 28-30 May 2010. San Francisco. USA.
7. Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Technique. Prospective medium-term evaluation. ESPES. "European Society of Paediatric Endoscopic Surgeons". 2nd annual scientific Meeting. Naples, Italy. 20th & 21st September 2012.
8. Laparoscopic Ureteral reimplantation. Extracorporeal tapering of the ureter for Megaureter Obstructed by laparoscopic Extravesical Transperitoneal

- approach. 21th Annual Meeting of GECI (Groupe d'Etude en Coeliouchirurgie Infantile) Bellinzona, Suisse. October14 -15, 2012
9. Laparoscopic ureteral reimplantation. Extracorporeal tapering of the ureter for Megaureter Obstructed by laparoscopic Extravesical Transperitoneal approach. 52th Annual Meeting of Spain society of Pediatric Surgery. 15-17 Mai 2013, Palma de Mallorca, Spain.
 - 10.Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Technique. Prospective medium-term evaluation. 71^{ème} Congrès de la Société Française de Chirurgie Pédiatrique, Lyon, France, Mai 22-24 2014
 - 11.Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Technique. Prospective medium-term evaluation. 23th Annual Congress for Endosurgery in Children. IPEG. July 22-27, 2014, Edinburgh, Scotland.
 - 12.Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Technique. Prospective medium-term evaluation. 23th Annual Congress of Pediatric Surgery. GECI October 9-11, 2014 Brussels, Belgium. **“BEST PAPER-2014”**
 - 13.First laparoscopic simulator for pediatric ureteral reimplantation (lap spur). 24th Annual Congress for Endosurgery in Children. IPEG April 13-18 2015, Nashville, USA.

Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich–Gregoir Procedure in Refluxing Duplicated Collecting Systems: Initial Experience

Manuel Lopez, MD, Carlos Melo, MD, Michel François, MD, and François Varlet, MD, PhD

Abstract

Introduction: Vesicoureteral reflux (VUR) represents one of the most significant risk factors for acute pyelonephritis in children. Nephropathy with renal scarring is still the most concerning issue in VUR. Surgical correction to eliminate VUR is an important part of its management and this need is increasing for duplicated collecting systems (DCS). Laparoscopy may have a place in the treatment of VUR. We report our initial experience in the treatment of refluxing DCS by laparoscopic extravesical transperitoneal approach (LETA) following Lich–Gregoir technique. The aim of this study was to describe the evolution and evaluate the results and benefits of this technique.

Materials and Methods: Between August 2007 and January 2010, 60 renal units in 43 children with VUR and deterioration of renal function on isotope renography were treated with LETA following the Lich–Gregoir procedure. Twelve patients had refluxing DCS in a lower polar system; three of them had bilateral VUR. Three cases of refluxing DCS were associated to obstruction. Two of them presented an ectopic ureterocele with adequate split renal function and another had an ectopic ureterocele with complete deterioration of upper polar renal function. Their mean age was 36 months (range: 15–80 months).

Results: The mean surgical time was 90 minutes (38–140 minutes) in unilateral and 144 minutes (120–200 minutes) in bilateral VUR including cystoscopy. All procedures were successfully completed laparoscopically and the reflux was corrected in all patients. One-stage laparoscopic heminephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation was done in 1 case, and ureterocele excision and ureteric reimplantation by LETA were done in 2 cases. The mean hospital stay was 27 hours. A cystogram was performed systematically in all patients at 45 days postoperatively; none of them presented recurrence of VUR. The follow-up period was 11 months (range: 2–24 months), without recurrence of VUR.

Conclusion: LETA following the Lich–Gregoir procedure in refluxing DCS is a safe and effective approach even in unilateral, bilateral simultaneous, and split renal function in duplicated systems. When refluxing DCS is associated with obstruction and total deterioration of upper polar function, heminephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation can be safely and effectively performed in a single-stage laparoscopic procedure, which minimizes the hazards of traditional open surgical reconstruction. A shorter hospital stay, decreased postoperative discomfort, reduced recovery period, and a low morbidity to resolve VUR in DCS are the benefits of this technique, with success rates similar to the open technique.

Introduction

VESICoureteral reflux (VUR) is the most common urologic anomaly in children and represents one of the most significant risk factors for acute pyelonephritis in children. Nephropathy with renal scarring is still the most con-

cerning issue in VUR. Surgical correction to eliminate VUR is an important part of its management.¹ Duplication anomalies are among the most common congenital malformations observed in the genitourinary system, with an incidence of 0.8% in unselected autopsy series.^{2–4} The most frequently associated clinical problem is VUR, which mainly affects the lower

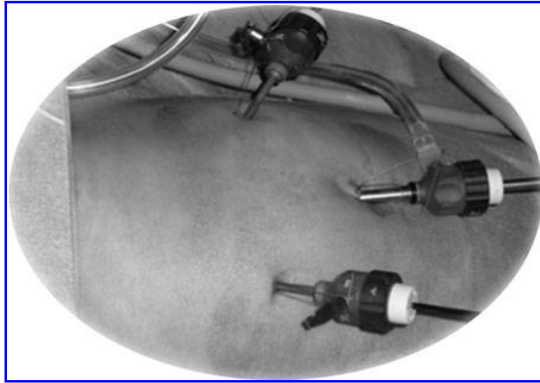


FIG. 1. Trocars position.

pole moiety in 85%. VUR into upper and lower poles is found in 15%, whereas isolated upper pole reflux is rare.⁵ Minimal invasive technique in the treatment of VUR is being developed as an alternative to open surgery. The concept of minimal invasive surgery was introduced in 1984 by O'Donnell and Puri,^{6,7} who reported the classic subureteric transurethral injection by endoscopy, with less intervention and discomfort. Most studies would suggest that this approach is not as successful as the standard method of repair, with a lower success rate.^{8,9}

Laparoscopic antireflux surgery has never achieved popular consensus because of the technical difficulty in dissection and suturing required; however, the efforts have been directed toward reducing the perioperative morbidity period and shorter hospitalization. The minimally invasive surgical approach to VUR disease was first described by Atala et al. in minipigs,¹⁰ and the first report described in humans was in 1994 by Ehrlich et al.¹¹ Since then, different reports of laparoscopic repair have been described. Few pediatric centers have embraced either the laparoscopic extravesical or vesicoscopic cross-trigonal approaches and the success rates have been comparable to open surgery, with less morbidity in patients with VUR.^{12–31} We report our initial experience in the treatment of VUR by laparoscopic extravesical transper-



FIG. 2. Detrusorraphy and exposing the mucosa.

itoneal approach (LETA) following Lich–Gregoir technique in refluxing duplicated collecting systems (DCS). The aim of this study was to describe the evolution and evaluate the results and benefits of this technique.

Materials and Methods

Between August 2007 and January 2010, 60 renal units in 43 children with VUR and deterioration of renal function on isotope renography were treated with LETA following the Lich–Gregoir procedure. Twelve children (9 girls and 3 boys; mean age: 36 months [5–80 months]) had refluxing DCS in a lower polar system, with three of them having bilateral. VUR was classified by using the international classification as grades I to V: 7 had a preoperative VUR grade III, 4 grade IV, and 1 grade V. Preoperative nuclear renal scans DMSA (dimercaptosuccinic acid) was done in all patients, and a mean renal function of 39% (19%–40%) was found. Two cases presented an ectopic ureterocele with adequate split renal function and another had an ectopic ureterocele with complete

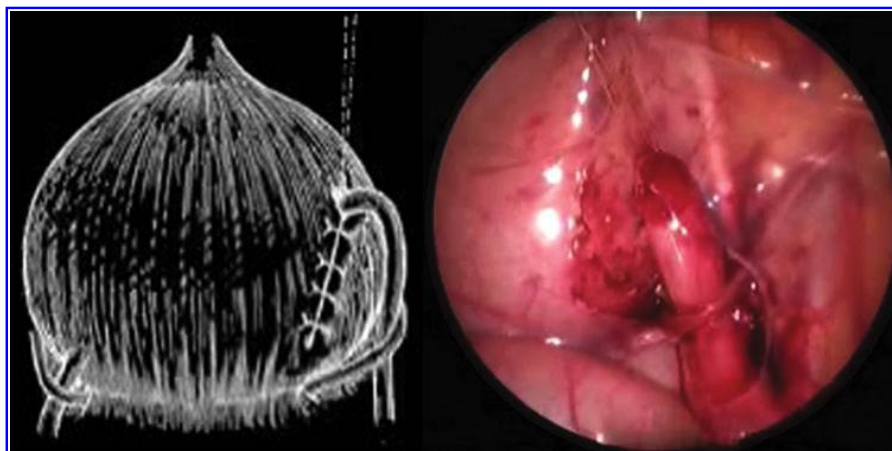


FIG. 3. Vesicoureteral reimplantation.

deterioration of upper polar renal function. Two of these patients had Hutch diverticulum. The surgical indications according to the American Urology Academy are recurrent acute pyelonephritis under antibiotic prophylaxis and deterioration of renal function on nuclear renal scans DMSA.

Operative Technique

LETA was performed by the transperitoneal approach. Under general anesthesia, cystoscopy was used in these patients to assess the location of the ureteral orifices and to check bladder anatomy. The patient is placed in supine position with the legs apart; a urine catheter is inserted preoperatively. Three ports were used in all cases: a 5-mm 30° port for the telescope and two 3-mm trocars. The surgeon stood at the head of the patient, with the assistant to the left and the nurse to the right. The monitor is placed at the lower end of the table. The telescope is inserted through the transumbilical trocar, the other two 3-mm trocars are placed at the left and right lower abdomen under direct vision (Fig. 1). Stay sutures are used to expose the vesicoureteral junction (VUJ). Two stay sutures are inserted through the abdominal wall and are placed at each side of the bladder to pull up it to the anterior wall and expose the VUJ. The peritoneum is incised to identify the distal ureter that is isolated and dissected toward the VUJ. The ureter is mobilized to achieve sufficient freedom for a tension-free reimplantation. Using the scissors monopolar, the peritoneum is incised to expose the muscular wall of the bladder and create an optimal lateral tunnel about a length four times the size of the ureter (Paquin law). At this moment the bladder is filled partially with physiologic serum to expose and identify the mucosa, to avoid the perforation at the moment of detrusorraphy (Fig. 2). The detrusor muscle and all muscle fibers are cautiously divided down with scissors until the mucosa is exposed. After completing the dissection, another stay suture is inserted through the abdominal wall and placed around the ureter toward the top of the bladder. The ureter is placed in the newly created tunnel, and the detrusor muscle is reapproximated with three or four separate intracorporeal stitches using absorbable or nonabsorbable suture 3-0 depending on the surgeon. At finish, the ureter is mobilized without tension to avoid ectasia or ischemia, and the urine catheter is removed (Fig. 3).

Results

LETA following the Lich-Gregoir procedure was feasible in all 12 patients, and all 15 ureters were successfully reimplanted by LETA. Three of them had bilateral VUR and were repaired in a single procedure.

The mean surgical time was 90 minutes (58–140 minutes) in unilateral and 144 minutes (120–200 minutes) in bilateral VUR including cystoscopy. All procedures were successfully completed laparoscopically and the reflux was corrected in all patients. One-stage laparoscopic upper pole heminephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation was done in 1 case, and in 2 cases, the ureterocele excision was done with a 3F Bug-bee using the cutting current at a level high enough to ensure a clean puncture, before starting the reimplantation. In 2 cases, refluxing DCS was associated with a paraureteral diverticulum; at the moment of reimplantation, the diverticulum was carefully reinforced to provide a secure back wall.

The mean hospital stay was 28 hours (22–48 hours). A fluoroscopic voiding cystogram and renal ultrasonography were performed systematically in all patients at 45 days postoperatively; none of them presented recurrence of VUR. The Hutch diverticula were resolved after surgery. The follow-up period was 11 months (range: 2–24 months) after the postoperative cystogram, with clinical evaluation and ultrasonography systematic control at 3 months, 6 months, 1 year, and 2 years. A fluoroscopic voiding cystogram was performed again only in cases of recurrence of urinary tract infection. All patients were asymptomatic without urinary tract infection.

Discussion

VUR is the most common urologic anomaly in children and represents one of the most significant risk factors for acute pyelonephritis in children. Nephropathy with renal scarring is still the most concerning issue in VUR. Surgical correction to eliminate VUR is an important part of its management.¹ The DCS, present in 0.8% of the general population, is more common in female individuals. The ureter draining the upper segment may migrate too far caudally and become ectopic and obstructed, whereas the ureter draining the lower segment may end laterally and have a short intravesical tunnel that leads to VUR.¹⁷ VUR is the most frequent clinical problem in DCS and involves the lower pole in 95% of cases.¹⁸ Conservative treatment, the most accurate study currently available, found significantly lower-resolution rates in DCS than in simple system and resolution of high-grade VUR is reported as uniformly rare in DCS.

The management of VUR continues to evolve. Endoscopic correction of VUR is a reasonable alternative to open surgical reimplantation, particularly in cases of low grade, although long-term results into adulthood remain unknown; however, the success rate is lower in patients with refluxing DCS.¹⁹

In 2008, Callaghan presented the factor involved in parenteral decision making for surgical correction of VUR and considered that the parents selecting open surgery consider the success of the procedure most important, and the majorities are satisfied with their choice of treatment. Parents choosing endoscopic correction consider the minimally invasive nature of the procedure and the success rate most important, but the outcome may alter their satisfaction.²⁰

The spectrum of urology pediatric laparoscopy has undergone a dramatic evolution. Initially used as a diagnostic tool, laparoscopically complex and reconstructive procedures are now performed. Different techniques of VUR demonstrating feasibility with pneumovesicoscopic, laparoscopic, and robot-assisted techniques are encouraging and have been reported to be beneficial in terms of decreased postoperative pain, shorter hospital stay, and quicker return to normal activity.²¹ Extravesical reimplantation and laparoscopic Cohen technique were the most commonly performed with a high success rate.

The Lich-Gregoir technique was simultaneously developed and described by Lich in 1961 and Gregoir in 1964.^{22,23} This technique is an extravesical procedure and has the following advantages: minimal bladder spasm, less morbidity because the bladder remains intact, no hematuria, and no anastomosis. Additionally, decreased hospital stay with faster recovery makes it a potential 1-day surgery.^{15–25} The Lich-Gregoir technique is associated with a high success rate as the Cohen technique.

In open surgery, the Lich–Gregoir technique has been associated with incidence of urinary retention for bilateral reimplantation and impaired voiding efficiency. These are the common complications of this technique, ranging from 3% to 20%.^{26,27} The cause might be a result of neurovascular injury during wound handling and ureteral or bladder dissection.²⁸ However, in open surgery, Mc Achran in 2005 demonstrated that bilateral extravesical ureteroneocystostomy can be performed in selected patients without postoperative urinary retention, with uniform hospital discharge in 1 day.¹⁵ In 2008 and 2009, Palmer demonstrated that unilateral and bilateral extravesical ureteral reimplantation can consistently result in same day discharge from the hospital without postoperative urinary retention.^{16–25} The minimal invasive technique is associated with less morbidity owing to less tissue and nerve injury and can be handled in an outpatient setting.

One of the advantages of LETA with open surgery is in cases when the refluxing DCS is associated with either obstruction or VUR or both, as these conditions may cause upper tract damage. Surgical procedures may involve upper or lower tract manipulation or a combination of both and can be performed in one stage. In our series, in 3 of 12 patients, refluxing DCS was associated with obstruction; 2 had ectopic intravesical ureterocele with adequate split renal function and 1 had ectopic intravesical ureterocele with complete deterioration of upper polar rein function. In 1 case, upper heminephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation was done in one-stage laparoscopy, and in 2 cases, only excision of ureterocele and ureteric reimplantation were done laparoscopically. Yeung in the 2007 ESPU meeting reported that laparoscopic heminephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation can be safely and effectively performed in a single-stage laparoscopic procedure. The procedure minimizes the hazards of traditional open surgical reconstruction in patients with refluxing DCS associated with ureterocele and complete deterioration of upper polar function and VUR.²⁹ Careful selection of operative candidates is necessary. It has been speculated that ureters requiring tapering are unsuitable for Lich–Gregoir technique by laparoscopic approach; however, Ansari in 2006 described an extracorporeal tailoring for megaureter to perform LETA following Lich–Gregoir technique with good results.³⁰

Based on the results in this preliminary series, the authors believe that LETA following the Lich–Gregoir technique for refluxing DCS is a safe, effective, and feasible procedure with good results. In some cases, when refluxing DCS is associated with obstruction and upper tract damage, radical definitive surgery can be safely and effectively performed in a single laparoscopic procedure, with good short-term results.

With our technique, excellent results comparable to those of established open procedures were achieved: a low morbidity to resolve the VUR, decreased postoperative discomfort, shorter hospital stay, good cosmetic results, and reduced recovery period. LETA following Lich–Gregoir technique is easy to perform even for refluxing DCS, unilateral, and bilateral simultaneous. In most cases, LETA is not associated with bladder dysfunction as in an open surgery, even in bilateral procedures. In fact, we believe that this procedure is technically reproducible for young surgeons in laparoscopic and urological training. Our experience with LETA, and many laparoscopic and urological procedures to date, allowed our learning curve to plateau after 6–7 cases, and our operative

time decreased significantly after 6 cases. We still make a videorecording of all of our procedures not only for use as a learning tool by our residents and fellow, but also to allow the surgeons to be critical of their technique and permit further improvement. Minimal invasive surgery is an alternative to open procedure and not to medical treatment, especially in patients with nephropathy with renal scarring. We believe that this procedure will become an established treatment option.

Disclosure Statement

No competing financial interests exist.

References

1. Olbing H, Claesson I, Ebel K-D, et al. Renal scars and parenchymal thinning in children with vesicoureteral reflux: A 5-years report of the International reflux study in Children. *J Urol* 1992;148:1653–1656.
2. Berrocal T, Lopez-Pareira P, Arjonilla A, et al. Anomalies of the distal ureter, bladder, and urethra in children: Embryologic, radiologic, and pathologic features. *Radiographics* 2002;22:1139–1164.
3. Hartman GW, Hodson CJ. The duplex kidney and related abnormalities. *Clin Radiol* 1969;20:387–400.
4. Privett JT, Jeans WD, Roylance J. The incidence and importance of renal duplication. *Clin Radiol* 1976;27:387–400.
5. Afshar K, Papanikolaou F, Malek R, et al. Vesicoureteral reflux and complete ureteral duplication. Conservative or surgical management? *J Urol* 2005;173:1725–1727.
6. O'Donnell B, Puri P. Treatment of vesicoureteric reflux by endoscopic injection of Teflon. *Br Med J* 1984;289:7–9.
7. O'Donnell B, Puri P. Endoscopic correction of primary vesicoureteric reflux results in 94 ureters. *Br Med J* 1986;293:1404–1406.
8. Frey T, Berger D, Jenny T, et al. Subureteral collagen injection for the endoscopic treatment of vesicoureteral reflux in children: Follow-up study of 97 treated ureters and histologic analysis of collagens implants. *J Urol* 1992;148:718–723.
9. Leonard MP, Canning DA, Peters GA, et al. Bovine dermal collagen for correction of vesicoureteral reflux. *J Urol* 1991;145:115–119.
10. Atala A, Kavoussi LR, Goldstein DS, et al. Laparoscopic correction of vesicoureteral reflux. *J Urol* 1993;150:748–751.
11. Ehrlich RM, Gershman A, Fuchs G. Laparoscopic vesicoureteroplasty in children: Initial case. *Urology* 1994;43:255–261.
12. Riquelme M, Aranda A, Rodriguez C. Laparoscopic extravesical transvesical approach for vesicoureteral reflux. *J Laparoscopic Adv Surg Tech* 2006;16:312–316.
13. Riquelme M, Aranda A. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation (LEVUR) dialogues in pediatric urology. 2008;30:8–9.
14. Tsai YC, Wu CC, Yang SS. Minilaparoscopic nerve-sparing extravesical ureteral reimplantation for primary vesicoureteral reflux: A preliminary report. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2007;18:767–770.
15. Mc Achran SE, Palmer JS. Bilateral extravesical ureteral reimplantation in toilet trained children: Is 1-day hospitalization without urinary retention possible? *J Urol* 2005;174:1991–1993.
16. Palmer SJ. Bilateral extravesical ureteral reimplantation in toilet trained children: Short-stay procedure without urinary retention. *Urology* 2009;73:285–289.
17. Kogan BA. Disorders of the ureter and ureteropelvic junction. In: McAninch JW (ed): *Smith's General Urology*. New York: The McGraw-Hill Companies, Chapter 35, p. 560.

LETA IN REFLUXING DUPLICATED COLLECTING SYSTEMS

169

18. Kaplan WE, Nasrallah P, King LR. Reflux incomplete duplication in children. *J Urol* 1978;120:220–222.
19. Routh JC, Vandersteen DR, Pfeferle H, et al. Single center experience with endoscopic management of vesicoureteral reflux in children *J Urol* 2006;175:1889–1892.
20. Callaghan K, Grray E, Caldamone A, et al. Factors involved in parental decision making for surgical correction of vesico ureteral reflux. *J Urol* 2008;180:701–705.
21. Hayn MH, Smaldone M, Ost MC, et al. Minimally invasive treatment of vesicoureteral reflux. *Urol Clin N Am* 2008;35:477–488.
22. Lich R Jr, Howerton LW, Davis LA. Recurrence urosepsis in children. *J Urol* 1961;86:554–558.
23. Gregoir W, Van regemorter G. le reflux vesicoureteral congenital. *Urol Int* 1964;18:122–136.
24. Houle AM, Mc Lorie GA, Heritz DM, et al. Extravesical nondismembered ureteroplasty with detrusorrhaphy: A renewed technique to correct vesico-ureteral reflux in children. *J Urol* 1992;148:704–707.
25. Palmer SJ. Extravesical ureteral reimplantation: An out patient procedure. *J Urol* 2008;180:1828–1831.
26. Fung LC, Mc Lorie GA, Jain U, et al. Voiding efficiency after ureteral reimplantation: A comparison of extravesical and intravesical techniques. *J Urol* 1995;153:1972–1975.
27. David S, Kelly C, Poppas DP. Nerve-sparing extravesical repair of bilateral vesico-ureteral reflux. Description of the technique and evaluation of urinary retention. *J Urol* 2004;172:1617–1620.
28. Leissner J, Allhoff W, Wolff W, et al. The pelvic plexus and antireflux surgery: Topographical findings and clinical consequences. *J Urol* 2001;165:1652–1655.
29. Yeung CK, Sreedhar B, Thakre A, et al. One stage laparoscopic hemi-nephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation: Long-term outcome Presented at the ESPU meeting, Brugge, Belgium, 2007.
30. Ansari MS, Mandhani A, Khurana N, Kumar A. Laparoscopic ureteral reimplantation with extracorporeal tailoring for megaureter: A simple technical nuance. *J Urol* 2006;176:2640–2642.
31. Valla JS, Steyaert H, Griffin SJ, et al. Transvesicoscopic Cohen ureteric reimplantation for vesicoureteral reflux in children: A single-center 5-years experience. *J Pediatr Urol* 2009;5:466–471.

Address correspondence to
Manuel Lopez, MD
Department of Paediatric Surgery
University Hospital of Saint Etienne
Saint Etienne 42055
France

E-mail: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr



Review articles

Laparoscopic extravesical transperitoneal approach following the Lich-Gregoir technique in the treatment of vesicoureteral reflux in children

Manuel Lopez*, François Varlet

Department of Paediatric Surgery, University Hospital of Saint Etienne, 42270 Saint Etienne, France

Received 24 July 2009; revised 30 October 2009; accepted 4 December 2009

Key words:

Vesicoureteral reflux;
 Lich-Gregoir technique;
 Laparoscopy;
 Children

Abstract

Introduction: Laparoscopy may have a place in the treatment of vesicoureteral reflux (VUR). We report our initial experience in the treatment of VUR by laparoscopic extravesical transperitoneal approach (LETA) following the Lich-Gregoir technique to describe the evolution and to evaluate the results and benefits of this technique for these patients.

Materials and Methods: Between August 2007 and May 2009, 43 renal units in 30 children (23 female and 7 male) with VUR and deterioration of renal function on isotope renography (17 unilateral and 13 bilateral) were treated with LETA. The mean age was 52 (range, 15–183) months. Nine patients had a double total collector system associated with VUR in a lower system. Two of them had a ureterocele with adequate upper polar rein function, and another had a ureterocele with complete deterioration of upper polar rein function.

Results: The mean surgical time was 70 (38–120) minutes in unilateral and 124 (100–180) minutes in bilateral VUR. All procedures were successfully completed laparoscopically, and the reflux was corrected in all patients. At the same time, 1 heminephrectomy and 2 ureterocele were removed by laparoscopy and endoscopy, respectively. We had 1 ureter leakage 15 days postoperation that underwent a redo reimplantation. In cases of bilateral VUR, 1 patient presented postoperative bladder emptying difficulty and required temporary urethral catheterization postoperatively. The mean hospital stay was 24 hours. A cystogram was performed systematically in all patients at 45 days postoperation; none of them presented recurrence of VUR. The follow-up was 11 (range, 2–24) months, without recurrence of VUR.

Conclusion: Laparoscopic extravesical transperitoneal approach in the treatment of VUR is a safe and effective approach even in unilateral, bilateral simultaneous, and double total collector system. The technique results in a shorter hospital stay, less postoperative discomfort, and reduced recovery period, with a low morbidity to resolve the VUR and with success rates similar to the open technique.

© 2010 Elsevier Inc. All rights reserved.

Vesicoureteral reflux (VUR) represents one of the most significant risk factors for acute pyelonephritis in children. Nephropathy with renal scarring is still the most concerning issue in VUR. Surgical correction to eliminate VUR is an important part of its management [1]. Minimally invasive

* Corresponding author.

E-mail address: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr (M. Lopez).

technique in the treatment of VUR is being developed as an alternative to open surgery. The first report was published in 1984 [2,3]. O'Donnell and Puri popularized the classic subureteric transurethral injection by endoscopy, with less intervention and discomfort. Most studies would suggest that this approach is not as successful as standard repair, with a lower success rate [4,5].

Laparoscopic antireflux surgery has never achieved popular consensus because of the technical difficulty in dissection and suturing required; however, efforts have been directed toward reducing the perioperative morbidity period and the length of hospitalization.

The minimally invasive surgical approach to VUR disease was first described by Atala et al [6] in minipigs, and the first report described in humans was in 1994 by Ehrlich et al [7]. Since then, different reports of laparoscopic repair have been described. Few pediatric centers have embraced either the laparoscopic extravesical or vesicoscopic cross-trigonal approach; and the success rates have been comparable to open surgery surgical, with less morbidity for patients with VUR [8-10,16,17].

We report our initial experience in the treatment of VUR by the laparoscopic extravesical transperitoneal approach (LETA) to describe the evolution and to evaluate the results and benefits of this technique for these patients.

1. Materials and methods

Between August 2007 and May 2009, 43 renal units in 30 children (23 female and 7 male) with VUR and deterioration of renal function on isotope renography were treated with LETA (Lich-Gregoir technique). Seventeen had unilateral (10 left, 7 right) and 13 had bilateral VUR. The mean age was 52 (range, 15-183) months. Reflux was classified by using the international classification as grades I to V. Preoperative VUR grade were as follows: 31 renal units were grade III, 11 were grade IV, and 1 was grade V. Nine had a double total collector system associated with VUR in a lower system. Two of them had a intravesical ureterocele with adequate upper polar function, and one had ureterocele with complete deterioration of the upper polar function. In all patients, a deterioration of renal function on isotope renography was found, with mean of 34% (19%-40%). Three patients had bilateral hutch diverticulum. Three cases of VUR were treated initially by endoscopic subureteral injection, with recurrence of VUR. The surgical indication was recurrent acute pyelonephritis under antibiotic prophylaxis and deterioration of renal function.

1.1. Operative technique

Laparoscopic extravesical transperitoneal approach was performed by the transperitoneal approach. Under general anesthesia, cystoscopy was used only in patients when the



Fig. 1 Trocars position.

double collector system was suspected to assess the location of the ureteral orifices and to check bladder anatomy.

The patient was placed in supine position with the legs apart; a urine catheter was inserted preoperatively. Three ports were used in all cases, 5 mm 30° for the telescope and two 3-mm trocars. The surgeon was positioned at the head of the patient, with the assistant to the left and the nurse to the right. The monitor was placed at the lower end of the table. The telescope was inserted through the transumbilical trocar; the other two 3-mm trocars were placed at the left and right lower abdomen under direct vision (Fig. 1). Stay sutures were used to expose the vesicoureteral junction (VUJ). Two stay sutures were inserted through the abdominal wall and placed in each side of the bladder to pull it up to the anterior wall and expose the VUJ. The peritoneum was incised just to identify the distal ureter that was isolated and dissected toward the VUJ. The ureter was mobilized to achieve sufficient freedom for a tension-free reimplantation. Using the monopolar scissors, the peritoneum was incised to expose the muscular wall of the bladder and create an

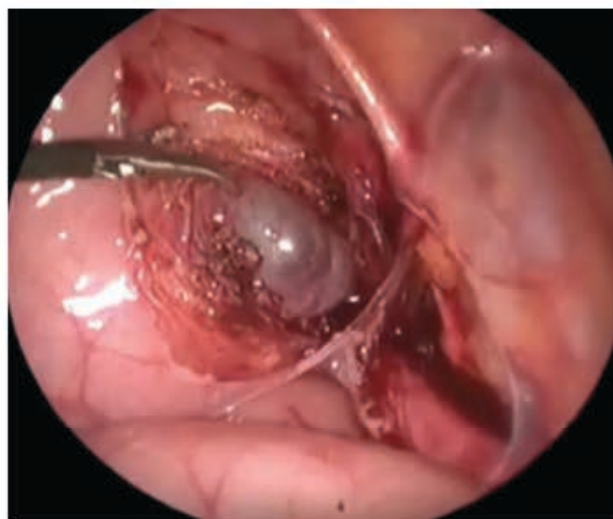


Fig. 2 Exposition of the mucosa.

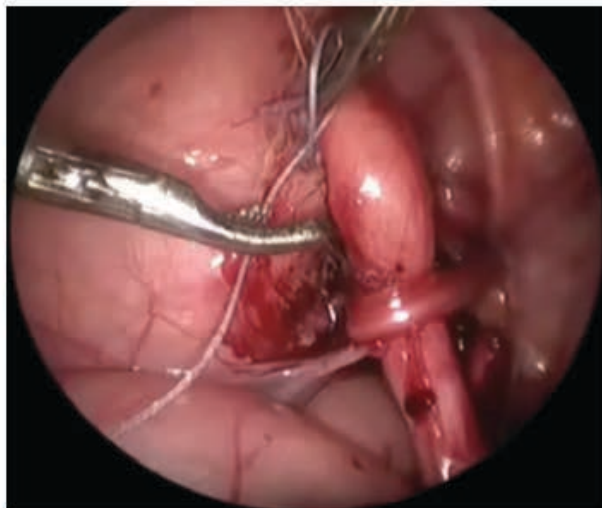


Fig. 3 The ureter was placed in the newly created tunnel.

optimal lateral tunnel with a length about 4 times the size of the ureter (Paquin law). At this moment, the bladder was filled partially with physiologic serum to expose and to identify the mucosa, to avoid the perforation at the moment of detrusorrhaphy (Fig. 2). The detrusor muscle and all muscle fibers were cautiously divided down with scissors until the mucosa was exposed. After completing the dissection, another stay suture was inserted through the abdominal wall and placed around the ureter toward the top of the bladder. The ureter was placed in the newly created tunnel, and the detrusor muscle was reapproximated with 3 or 4 separate intracorporeal stitches with nonabsorbable sutures 3-0. At the final stage, the ureter was mobilized without tension to avoid ectasia or ischemia; and the urine catheter was removed (Fig. 3).

2. Results

Laparoscopic extravesical transperitoneal approach was feasible in 30 of 30 patients, and all 43 ureters were successfully reimplanted by laparoscopy. Bilateral cases were repaired in a single procedure. The mean operative time was 70 (range, 38-120) minutes in unilateral cases and 124 (range, 100-180) minutes in bilateral cases.

At the same time, 2 decompressions of intravesical ureterocele were performed by endoscopy with a 3F Bugbee using the cutting current at a level high enough to ensure a clean puncture, before starting the reimplantation without tailoring.

An upper pole heminephrectomy and partial ureterectomy laparoscopic were associated in a case with intravesical ureterocele and poor function of the upper polar function. In 3 cases when the VUR was associated with a paraureteral diverticulum at the moment of reimplantation, the diverticulum was carefully reinforced to provide a secure back wall.

At the beginning of the series, 1 patient presented a ureteral leakage 15 days postoperation and underwent a redo procedure. During surgery, a ureteral perforation was found; and then this complication was treated by redo reimplantation. We reviewed the video tape but did not find the traumatic cause for this perforation. Probably, this ischemia was caused by the excessive handling of the ureter or a burn with the monopolar.

In 1 case of bilateral VUR, the patient presented with postoperative bladder emptying difficulty requiring 10 days of temporary urethral catheterization postoperatively. We anticipated this because the patient had preoperative urinary retention history.

The average hospital stay was 24 (range, 20-26) hours in all cases. A fluoroscopic voiding cystogram and renal ultrasonography were performed systematically in all patients at 45 days postoperation. The follow-up was a clinical evaluation and ultrasonography control at 3 months, 6 months, 1 year, and 2 years. A fluoroscopic voiding cystogram was performed again only in cases of recurrence of urinary tract infection. Complete resolution of VUR was identified in all patients. The Hutch diverticula were resolved after surgery. The mean follow-up was 11 (2-24) months; a total of 43 renal units in 30 patients were asymptomatic without urinary tract infection.

3. Discussion

The spectrum of urology pediatric laparoscopy has undergone a dramatic evolution. Initially used as a diagnostic tool, laparoscopic complex and reconstructive procedures are now performed.

The management of VUR continues evolve. Endoscopic correction of VUR is a reasonable alternative to open surgical reimplantation, particularly in cases with a low grade, although long-term results into adulthood remain unknown. In 2008, Callaghan et al [11] presented the factor involved in parenteral decision making for surgical correction of VUR and considered that the parents selecting open surgery consider the success of the procedure most important, and the majority are satisfied with their choice of treatment. Parents choosing endoscopic correction consider the minimally invasive nature of the procedure and the success rate most important, but the outcome may alter their satisfaction [11]. Different techniques of VUR demonstrating feasibility with pneumovesicoscopic, laparoscopic, and robotic-assisted techniques are encouraging and have been reported to be beneficial in terms of decreased postoperative pain, shorter hospital stay, and quicker return to normal activity [12]. Extravesical reimplantation and laparoscopic Cohen technique are the most commonly performed and achieves a high success rate.

The Lich-Gregoir technique was simultaneously developed and described by Lich et al [13] in 1961 and Gregoir and Van regemorter [14] in 1964.

This technique is an extravesical procedure and has the following advantages: minimal bladder spasm, less morbidity because the bladder remains intact, no hematuria, and no anastomosis. In addition, decreased hospital stay with faster recovery makes it a potential 1-day surgery [15-18]. The Lich-Gregoir technique is associated with a high success rate, as with the Cohen technique.

In open surgery, the Lich-Gregoir technique reports incidence of urinary retention for bilateral reimplantation and impaired voiding efficiency. These are the common complications of this technique, ranging from 3% to 20% [19,20]. The cause might be a result of neurovascular injury during wound handling and ureteral or bladder dissection [21]. However, in open surgery, Mc Achran and Palmer [16] in 2005 demonstrated that bilateral extravesical ureteroneocystostomy can be performed in selected patients without postoperative urinary retention and with uniform hospital discharge in 1 day. In 2008 and 2009, Palmer [17,18] demonstrated that unilateral and bilateral extravesical ureteral reimplantation can consistently result in same-day discharge from the hospital without postoperative urinary retention.

The minimally invasive technique is associated with less morbidity owing to less tissue and nerve injury and can be handled simply in an outpatient setting.

Peters [22] in 2004 encountered postoperative voiding dysfunction in his experience of extravesical robotic reimplantation. In our series, we had only 1 patient who presented postoperative bladder emptying difficulty requiring temporary urethral catheterization postoperatively, which we had anticipated because the patient had preoperative severe urinary retention history. In most series, these complications have not been found [8-10].

Casale et al [23] in 2008 reported 41 patients who underwent nerve-sparing robotic extravesical reimplantation for bilateral VUR, without episodes of urinary retention documented by bladder scanning.

One of the most common intraoperative complications in laparoscopic extravesical ureteral reimplantation is ureteral injury (ischemia) owing to excessive handling of the ureter, but it was only reported in the early series [24]. Unfortunately, in our series, we had 1 case at the beginning of series. The patient presented a ureteral leakage 15 days post-operation. At the moment of surgery, a urinary ureteral fistula was found; and then a redo reimplantation was done. We reviewed the video tape but did not find the traumatic cause for this perforation. Probably, this ischemia was caused by the excessive handling of the ureter or a burn with the monopolar.

Another probable intraoperative complication is the risk of visceral organ injury and postoperative bowel adhesion. Fortunately, these complications have not been observed in the literature.

Careful selections of operative candidates are necessary. It is speculated that ureters requiring tapering are unsuitable for the Lich-Gregoir technique by laparoscopy; however,

Ansari et al [25] in 2006 described an extracorporeal tailoring for megaureter to perform laparoscopic extravesical transperitoneal ureteral reimplantation with the Lich-Gregoir approach, with good results.

Based on the results in this preliminary series, the authors think that LETA following the Lich-Gregoir technique for VUR is a safe, effective, and feasible procedure with good short-term results. With our current technique, excellent results comparable to those of established open procedures are achieved, with a low morbidity to resolve the VUR. The technique results in less postoperative discomfort, shorter hospital stay, good cosmetic results, and reduced recovery period.

Laparoscopic extravesical transperitoneal approach following the Lich-Gregoir technique is easy even in unilateral, bilateral simultaneous, and double total collector system. In most cases, LETA is not associated with bladder dysfunction as in an open surgery even in bilateral procedures. In fact, we believe that this procedure is technically reproducible for young surgeons in laparoscopic and urologic training. In our experience with LETA and with many laparoscopic and urologic procedures to date, our learning curve plateaued after 6 to 7 cases; and our operative time decreased significantly after 6 cases. We still make a video recording of all of our procedures not only for use as a learning tool by our residents and fellow, but also to allow the surgeons to be critical of their technique and permit further improvement. Minimally invasive surgery is an alternative to open procedure and not to medical treatment especially in patients with nephropathy with renal scarring. We believe that this procedure will become an established treatment option.

References

- [1] Olbing H, Claesson I, Ebel K-D, et al. Renal scars and parenchymal thinning in children with vesicoureteral reflux: a 5-year report of the international reflux study in children. *J Urol* 1992;148:1653-6.
- [2] O'Donnell B, Puri P. Treatment of vesicoureteric reflux by endoscopic injection of Teflon. *Br Med J* 1984;289:7-9.
- [3] O'Donnell B, Puri P. Endoscopic correction of primary vesicoureteric reflux: results in 94 ureters. *Br Med J* 1986;293:1404-6.
- [4] Frey T, Berger D, Jenny T, et al. Subureteral collagen injection for the endoscopic treatment of vesicoureteral reflux in children: follow-up study of 97 treated ureters and histologic analysis of collagens implants. *J Urol* 1992;148:718-23.
- [5] Leonard MP, Canning DA, Peters GA, et al. Bovine dermal collagen for correction of vesicoureteral reflux. *J Urol* 1991;145:115-9.
- [6] Atala A, Kavoussi LR, Goldstein DS, et al. Laparoscopic correction of vesicoureteral reflux. *J of Urol* 1993;150:748-51.
- [7] Ehrlich RM, Gershman A, Fuchs G. Laparoscopic vesicoureteroplasty in children: initial case. *Urology* 1994;43:255-61.
- [8] Riquelme M, Aranda A, Rodriguez C. Laparoscopic extravesical transvesical approach for vesicoureteral reflux. *J Laparoscopic ADV Surg Tech* 2006;16:312-6.
- [9] Riquelme M, Aranda A. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation (LEVUR). *Dialogues Pediatr Urol* 2008;30:8-9.
- [10] Tsai YC, Wu CC, Yang SS. Minilaparoscopic nerve-sparing extravesical ureteral reimplantation for primary vesicoureteral reflux:

- a preliminary report. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2007;18:767-70.
- [11] Callaghan K, Grray E, Caldamone A, et al. Factors involved in parental decision making for surgical correction of vesico ureteral reflux. *J Urol* 2008;180:701-5.
- [12] Hayn MH, Smaldone M, Ost MC, et al. Minimally invasive treatment of vesicoureteral reflux. *Urol Clin N Am* 2008;35:477-88.
- [13] Lich R, Howerton LW, Davis LA. Recurrence urosepsis in children. *J Urol* 1961;86:554-8.
- [14] Gregoir W, Van regemorter G. Le reflux vesicoureteral congenital. *Uro Int* 1964;18:122-36.
- [15] Houle AM, Mc Lorie GA, Heritz DM, et al. Extravesical nondismembered ureteroplasty with detrusorrhaphy: a renewed technique to correct vesico-ureteral reflux in children. *J Urol* 1992;148:704-7.
- [16] Mc Achran SE, Palmer JS. Bilateral extravesical ureteral reimplantation in toilet trained children: is 1-day hospitalization without urinary retention possible? *J Urol* 2005;174:1991-3.
- [17] Palmer SJ. Bilateral extravesical ureteral reimplantation in toilet trained children: short-stay procedure without urinary retention. *Urology* 2009;73:285-9.
- [18] Palmer SJ. Extravesical ureteral reimplantation: an outpatient procedure. *J Urol* 2008;180:1828-31.
- [19] Fung LC, Mc Lorie GA, Jain U, et al. Voiding efficiency after ureteral reimplantation: a comparison of extravesical and intravesical techniques. *J Urol* 1995;153:1972-5.
- [20] David S, Kelly C, Poppas DP. Nerve-sparing extravesical repair of bilateral vesico-ureteral reflux. Description of technique and evaluation of urinary retention. *J Urol* 2004;172:1617-20.
- [21] Leissner J, Allhoff W, Wolff W, et al. The pelvic plexus and antireflux surgery: topographical findings and clinical consequences. *J Urol* 2001;165:1652-5.
- [22] Peter CA. Robotically assisted surgery in pediatric urology. *Urol Clin North Am* 2004;31:743-52.
- [23] Casale P, Patel RP, Kolon TF. Nerve sparing robotic extravesical ureteral reimplantation. *J Urol* 2008;179:1987-9.
- [24] Lakshmanan Y, Fung L. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation for vesico-ureteral reflux: recent technical advances. *J Endourol* 2000;14:589-93.
- [25] Ansari MS, Mandhani A, Khurana N, et al. Laparoscopic ureteral reimplantation with extracorporeal tailoring for megaureter: a simple technical nuance. *J Urol* 2006;176:2640-2.

Laparoscopic Extravesical Ureteral Reimplantation (LEVUR): A Multicenter Experience with 95 Cases

Mario Riquelme¹ Manuel Lopez² Sergio Landa³ Francisco Mejia⁴ Arturo Aranda⁵
 Mario Rodarte-Shade⁶ Jaime Rodriguez-Gomez⁷ Jairo Torres-Riquelme⁷

¹ Department of Pediatric Surgery, Christus-Muguerza Hospital, Monterrey, Mexico

² Department of Pediatric Surgery, University Hospital, St. Etienne, France

³ Department of Pediatric Surgery, La Raza IMSS Hospital, Mexico City, Mexico

⁴ Department of Pediatric Surgery, Pablo Tobon Hospital, Medellin, Colombia

⁵ Department of Surgery, Wright State University, Dayton, Ohio, United States

⁶ Department of Surgery, Instituto Tecnológico y de Estudios Superiores de Monterrey, Monterrey, Nuevo Leon, Mexico

⁷ Department of Surgery, Universidad de Morelos, Monterrey, Nuevo Leon, Mexico

Address for correspondence and reprint requests: Mario Riquelme, MD, Department of Pediatric Surgery, Christus-Muguerza Hospital, Monterrey University, Centro Médico Conchita 15 de Mayo #1822 pte. Colonia Maria Luisa Primer piso, Consultorio 4, Monterrey, Nuevo Leon 64040, Mexico
 (e-mail: cima_riquelme@hotmail.com; marioshade@hotmail.com).

Eur J Pediatr Surg

Abstract

Keywords

- ▶ vesicoureteral reflux
- ▶ recurrent urinary tract infections
- ▶ minimally invasive surgery
- ▶ laparoscopic extravesical ureteral reimplantation
- ▶ Lich-Gregoir

Introduction Minimally invasive techniques have been used to treat vesicoureteral reflux (VUR) on pediatric patients. The aim of this study is to review the experience of the laparoscopic approach for VUR by the laparoscopic extravesical ureteral reimplantation (LEVUR) Lich-Gregoir technique.

Materials and Methods We performed a multicentric retrospective study. From 2001 to 2009, 81 pediatric patients with VUR constituting 95 ureteral units underwent LEVUR. Reflux was grade II in 32%, grade III in 55%, and grade IV in 8%.

Results LEVUR was performed successfully on the 81 patients with 95 ureteral units. Mean operative time was 105 minutes for left-sided reimplants, 70 minutes for right sided, and 180 minutes for bilateral reimplants. Mean hospital stay was 1.6 days. Urinary catheter was kept in place for a mean time of 0.5 days. Follow-up was achieved for at least 1 year with regular clinic visits, urinalysis, ultrasound, and voiding cystourethrogram. Four patients (4.2%) had evidence of recurrent VUR in a follow-up of 6 to 36 months after antireflux surgery.

Conclusions Although new endoscopic techniques have been widely available for VUR, they have a lower success rate and might require multiple attempts before success. We report that LEVUR has an acceptable success rate (95.8%) and durability compared with open and endoscopic procedures.

Introduction

Minimally invasive surgery has been an exciting field to treat urological pathologies in children. Constantly, new articles are being published describing procedures with greater degrees of complexity and showing the benefits of minimally invasive surgery.¹ Vesicoureteral reflux (VUR) remains a complex urological pathology with various treatment modalities. Initially described in porcine models, laparoscopic and robotic approaches to VUR have been proposed as an alternative to conventional open procedures.²⁻⁴ First report of laparoscopic vesicoureteroplasty for VUR was published by Ehrlich in 1994.⁵

Open antireflux surgery remains the gold standard to treat VUR with a success rate around 98%.⁶ Numerous techniques have been described, including extravesical and intravesical procedures. Results may vary according to author, center, and surgical experience. Endoscopic approach has become an exciting field of research; however, although it gets the benefits of a minimally invasive procedure, results are not comparable to open surgery.^{7,8} Laparoscopy or robotic surgery in VUR may provide the benefits of improved cosmetic results, decrease postoperative pain, faster recovery, and shorter hospitalization.⁹ Early results in laparoscopic antireflux procedures have shown success rates comparable to open surgery as shown by Lakshmanan and Fung.¹⁰ Major drawbacks for laparoscopic antireflux surgery are the requirement of sophisticated equipment, the need to complete a learning curve, and the acquisition of advanced laparoendoscopic skills. Despite this, minimally invasive surgery represents a surgical option for VUR with proven benefits and results comparable to traditional surgery.¹¹⁻¹⁵

The aim of this study is to review retrospectively the experience of several centers performing a laparoscopic approach for VUR by the laparoscopic extravesical ureteral reimplantation (LEVUR) Lich-Gregoir technique.

Materials and Methods

An international multicentric retrospective study was performed at four institutions from Colombia, France, and Mexico. At each institution, the procedures were performed by a single surgeon (M.R., M.L., S.L., and F.M.). Institutional Review Board (IRB) approval and informed consent were obtained.

A total of 81 pediatric patients with VUR constituting 95 ureteral units underwent LEVUR with a Lich-Gregoir technique. Surgical indications were according to the American Urological Association Guidelines.^{16,17} Analyzed variables were as follow: gender, age, weight, affected side, reflux grade, associated pathology, surgical technique, operative time, estimated blood loss, concurrent procedures, hospital stay, complications, reoperation/conversion rate, and follow-up.

Procedures were performed in a similar fashion following the basic principles for a successful antireflux surgery which include: adequate ureteral mobilization, preservation of blood supply, and creation of a valvular mechanism. On the first cases, when the surgical technique was being refined, the patients underwent an immediately postoperative voiding

cystourethrogram (VCUG) and cystoscopy to corroborate reimplantation success. Perioperative management of the patient was similar in the four participant institutions.

Follow-up was mainly achieved with regular clinic visits for at least 12 months in all the patients. Urinary tract infections symptoms were monitored in every consult. Urinalysis was performed on a monthly basis and an ultrasound was performed every 4 months. VCUG was ordered during the first 6 months of follow-up. Success was defined as absence of recurrent urinary tract infections and lack of radiographic evidence of VUR.

Operative Technique

Under general anesthesia, complete muscle relaxation, and a urinary catheter, the patient was placed in a supine position. Surgeon is behind patient head and the first assistant to his right. Pneumoperitoneum is performed with Veress technique using carbon dioxide to a pressure ranging from 8 to 12 mm Hg. Three trocars were placed under direct vision using a 4-mm scope with a 30- or 45-degree angle. The laparoscopic instruments used were 3 or 5 mm according to patient's age and size. Trocar disposition was a 5-mm trocar on the umbilicus, a 5-mm trocar on the right flank, and a 3- or 5-mm trocar on the left flank. Dissection was carried using the Harmonic Scalpel (Ethicon EndoSurgery, Cincinnati, Ohio, United States) through a 5-mm trocar. The distal end of the ureter was dissected up to the ureterovesical junction through the posterior surface of the broad ligament in women finally cutting the round ligament. On the first cases, dissection was performed through the anterior edge of the broad ligament without cutting the round ligament. However, it was found that by cutting the broad ligament, a greater space was created and instruments mobility was improved. Proximal ureter was dissected as needed to gain 2 to 3 cm of distal ureter inside the tunnel in a tension-free fashion. Usually, this required ~6 cm of dissection of the distal ureter (from the ureterovesical junction). Harmonic scalpel was used to create a lateral detrusor tunnel with a length of 25 to 20 mm or three to four times the diameter of the ureter. The tunnel was created all the way to the vesicoureteral junction. At this point, it was helpful to instill water to the bladder to have a half-full bladder. A successful tunnel creation will be achieved once the bulging of the vesical mucosa was observed (–Fig. 1). Once the mucosa was exposed, we recommended the use of blunt-tip scissors to complete the detrusor tunnel. The ureter was then placed in the tunnel and the edges of the detrusor were sutured over the ureter (–Fig. 2). The first stitch was placed in the superior apex of the tunnel and had to be precise to avoid having it too tight. If the first knot was too tight, ureteral dilation was immediately evident. In most of the patients, a 2-0 or 3-0 polyester suture was used with intracorporeal knotting. Finally, port site incisions were closed with subcuticular absorbable suture.

Results

From 2001 to 2009, 95 LEVUR were performed on 81 patients. Sex distribution was 61 females (75.3%) and 20 males (24.7%)



Fig. 1 Ureter and bladder mucosa exposed after detrusor incision.

with a mean age of 4.5 years (3.5 to 9 years) and a mean weight of 19.8 kg (12 to 50 kg). Reflux grade according to the International Classification of VUR and side of reflux is shown in **Table 1**. Of the 14 bilateral VUR patients, 12 had LEVUR done in a single operative procedure. In general, there were nine patients (11.1%) that had a previous unsuccessful anti-reflux procedure, either endoscopic or conventional surgery. Subureteric Teflon injection was performed previously in seven patients and two had an open antireflux procedure (Cohen and Lich-Gregoir).

Associated congenital abnormalities and pathologies were found in 32% of the patients ($n = 26$). Most common associated abnormalities were as follows: double collecting system ($n = 14$), ureterocele ($n = 3$), contralateral renal exclusion ($n = 2$), and other (ureterovesical stenosis, renal agenesis, esophageal atresia, gastroesophageal reflux, blind-end ureter, ipsilateral superior renal pole exclusion, and congenital posterior urethral valves). Consequently, 9.9% of the patients ($n = 8$) had a second laparoscopic or endoscopic procedure besides LEVUR which included: nephrectomy with ureterectomy ($n = 2$), ureterocele incision ($n = 2$), heminephrec-

Table 1 Vesicoureteral reflux characteristics

| Ureteral units | $n = 95$ |
|----------------|----------|
| Reflux grade | n (%) |
| I | 0 (0%) |
| II | 32 (34%) |
| III | 55 (58%) |
| IV | 8 (8%) |
| V | 0 (0%) |
| Reflux side | $n = 81$ |
| Left | 47 (58%) |
| Right | 20 (25%) |
| Bilateral | 14 (17%) |

tomy ($n = 1$), Nissen fundoplication ($n = 1$), blind-end ureter resection ($n = 1$), and urethral valves resection ($n = 1$).

Complete double collector system was found in 14 patients (17.3%) and in 13 of them, a LEVUR of the double collecting system was performed. The other one required a heminephrectomy of the superior pole with ureterectomy of the dilated ureter and reimplantation of the remaining ureter. Of the 14 units of double collecting systems, 3 cases of VUR were due to an ureterocele. **Fig. 3** shows a double collection system being reimplanted.

LEVUR was performed successfully on the 81 patients with 95 ureteral units. All the reimplants were completely laparoscopic with no conversions. Mean operative time was 105 minutes for left-sided reimplants, 70 minutes for right sided, and 180 minutes for bilateral reimplants. Estimated blood loss was minimal in all the cases.

Mean hospital stay was 1.6 days. Urinary catheter was kept in place for a mean time of 0.5 days (0 to 6 days). There were 31 patients where no urinary catheter was left in place. On the first cases (47 units/49%), a VCUG and cystoscopy were performed at the operative room to corroborate

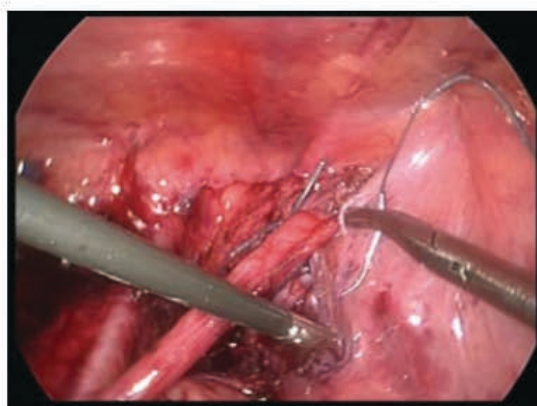


Fig. 2 Laparoscopic ureteral reimplantation with the Lich-Gregoir technique.

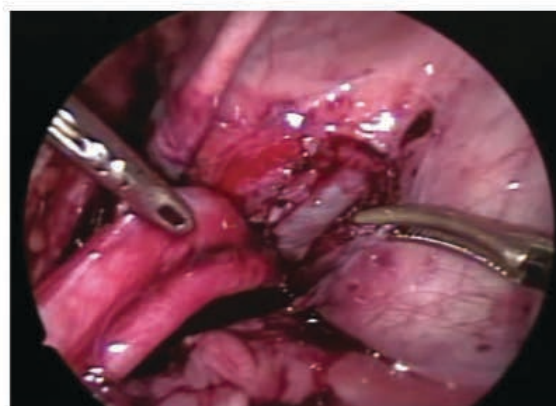


Fig. 3 Double collecting system presented to bladder mucosa before detrusor closure.



Fig. 4 Immediate postoperative cystoscopy view showing bladder mucosa elevated by intravesical ureter.

reimplantation success. **Fig. 4** shows a cystoscopy view of the reimplanted ureter.

Postoperative complications included two urinomas (2.1%). The first case was after a mucosal perforation, and the second was due to ureteric devascularization and perforation. Both were resolved with open surgery. These complications occurred when performing the first cases of LEVUR, probably related to the learning curve of the surgeon.

Postoperative ultrasonographic findings included an intravesical protuberance that relates to the ureter on its intravesical position (**Fig. 5**). Almost all of the patients (93%) had a VCUG performed 3 to 6 months after surgery. The rest of the patients were lost in the follow-up.

Success was defined as absence of recurrent urinary tract infections and lack of radiographic evidence of VUR. This happened to occur in 95.8% of the cases. Four patients (4.2%) had evidence of recurrent VUR. Recurrence was detected in a range from 6 to 36 months after antireflux surgery. Two patients had VUR grade II (prior grade III) and one patient with prior grade III had VUR grade I. A fourth patient presented with recurrent urinary tract infections without radiologic evidence of VUR. No voiding dysfunction was identified during the follow-up.



Fig. 5 Ultrasonographic finding of laparoscopic extravesical ureteral reimplantation.

Discussion

Recent literature from different centers worldwide supports the use of minimally invasive techniques for surgical treatment of VUR in children. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation (LEVUR) represents an acceptable option with a success rate comparable to open surgery.¹⁰⁻¹⁴ Traditionally, the best surgical technique for VUR has been defined as the absence of recurrent VUR, meaning success rate. However, minimally invasive surgery has added new variables to define the best surgical option technique for VUR which include: pain, recovery, cosmesis, length of hospital stay, and complications. Learning curve may be one of the major drawbacks; however, learning curve is not steep if the surgeon possesses advanced laparoscopic skills such as intracorporeal suturing.

Endoscopic techniques have been broadly accepted for the treatment of VUR, however, superiority in terms of effectiveness and durability have not been clearly established.^{7,8} In most of the centers in which this study took place (Colombia and México), endoscopic techniques have not been extensively adopted because the technology has not been available. For this reason, surgical repair (either conventional or laparoscopically) has been the treatment of choice for VUR.

To date, the largest study reporting experience with LEVUR was published by Lakshmanan et al and included 71 patients.¹⁰ Success rate was reported to be 100%; however, follow-up was not included in this report. Also, Lopez and Varlet recently published their experience with LEVUR in 43 renal units reporting no VUR recurrence in a mean follow-up time of 11 months.¹⁵ On the other hand, our study represents a multicentric effort which included a report on 95 ureteral units with a success rate of 95.8%.

Regarding bilateral VUR cases, we believe that minimal invasion may represent an advantage regarding to nerve injury. We performed LEVUR on 14 cases with bilateral VUR. None of them had any voiding dysfunction. We theorize that there are no voiding problems in bilateral laparoscopic reimplantation because the surgical dissection area is limited as compared with open surgery where more dissection is required with the theoretical risk of higher nerve injury at the trigone area.

Some cases had a higher complexity as is the case of the double collecting system units. Fourteen cases were managed successfully with laparoscopy. Procedure involved placing both ureters in the same detrusor tunnel having the same successful results.

In this series, the laparoscopic approach proved to be very effective in treating patients with associated urological pathologies. In the same surgical time, not only the vesicoureteral antireflux procedure was done but also nephrectomies, ureterectomy, and a heminephrectomy were successfully performed without added morbidity.

Conclusions

This study reports one of the largest series of a multicentric experience with favorable results. Adding up the result data, we can conclude that the LEVUR is a very good option when

there is an indication for surgical repair of low-grade VUR, except for grade V VUR. The main limiting factor in grade V is ureteral tapering. That is why, in these cases, we recommend open surgery. We think that technology and instruments will improve and facilitate laparoscopic ureteral tapering, and then LEVUR will be applied to all grades of VUR.

LEVUR has an acceptable success rate (95.8%) and durability compared with the open and endoscopic procedures. Laparoscopic approach is so versatile that allowed us not only to treat the unilateral reflux pathology but also bilateral reflux cases, reoperative antireflux surgeries, double collecting system, and other associated pathology during the same surgical operation without adding morbidity or mortality. Randomized controlled trials are still needed to prove superiority of LEVUR as well as long-term results.

Notes

This paper was presented as an oral presentation at the 1st World Congress of Pediatric Urology, San Francisco, California, USA, May 2010

Conflict of Interest

None

References

- Traxel EJ, Minevich EA, Noh PH. A review: the application of minimally invasive surgery to pediatric urology: lower urinary tract reconstructive procedures. *Urology* 2010;76(1):115–120
- McDougall EM, Urban DA, Kerbl K, et al. Laparoscopic repair of vesicoureteral reflux utilizing the Lich-Gregoir technique in the pig model. *J Urol* 1995;153(2):497–500
- Schimberg W, Wacksman J, Rudd R, Lewis AG, Sheldon CA. Laparoscopic correction of vesicoureteral reflux in the pig. *J Urol* 1994;151(6):1664–1667
- Lakshmanan Y, Mathews RI, Cadeddu JA, et al. Feasibility of total intravesical endoscopic surgery using mini-instruments in a porcine model. *J Endourol* 1999;13(1):41–45
- Ehrlich RM, Gershman A, Fuchs G. Laparoscopic vesicoureteroplasty in children: initial case reports. *Urology* 1994;43(2):255–261
- Sung J, Skoog S. Surgical management of vesicoureteral reflux in children. *Pediatr Nephrol* 2012;27(4):551–561
- Capozza N, Zavaglia D. Surgical management of vesicoureteral reflux. In: Baba S, Ono Y, eds. *Interventional Management of Urological Disease*. 1st ed. Japan: Springer; 2006:89–101
- Elder JS, Diaz M, Caldamone AA, et al. Endoscopic therapy for vesicoureteral reflux: a meta-analysis. I. Reflux resolution and urinary tract infection. *J Urol* 2006;175(2):716–722
- Hayn MH, Smaldone MC, Ost MC, Docimo SG. Minimally invasive treatment of vesicoureteral reflux. *Urol Clin North Am* 2008;35(3):477–488, ix
- Lakshmanan Y, Fung LC. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation for vesicoureteral reflux: recent technical advances. *J Endourol* 2000;14(7):589–593, discussion 593–594
- Smith RP, Oliver JL, Peters CA. Pediatric robotic extravesical ureteral reimplantation: comparison with open surgery. *J Urol* 2011;185(5):1876–1881
- Marchini GS, Hong YK, Minnillo BJ, et al. Robotic assisted laparoscopic ureteral reimplantation in children: case matched comparative study with open surgical approach. *J Urol* 2011;185(5):1870–1875
- Shu T, Cisek LJ Jr, Moore RG. Laparoscopic extravesical reimplantation for postpubertal vesicoureteral reflux. *J Endourol* 2004;18(5):441–446
- Tsai YC, Wu CC, Yang SS. Minilaparoscopic nerve-sparing extravesical ureteral reimplantation for primary vesicoureteral reflux: a preliminary report. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2008;18(5):767–770
- Lopez M, Varlet F. Laparoscopic extravesical transperitoneal approach following the Lich-Gregoir technique in the treatment of vesicoureteral reflux in children. *J Pediatr Surg* 2010;45(4):806–810
- Elder JS, Peters CA, Arant BS Jr, et al. Pediatric Vesicoureteral Reflux Guidelines Panel summary report on the management of primary vesicoureteral reflux in children. *J Urol* 1997;157(5):1846–1851
- Peters CA, Skoog SJ, Arant BS Jr, et al. Summary of the AUA Guideline on management of primary vesicoureteral reflux in children. *J Urol* 2010;184(3):1134–1144

Reimplante ureteral extravesical laparoscópico según técnica de Lich-Gregoir. Estudio prospectivo a medio plazo

E. Pérez-Etchepare, F. Varlet*, M. López*

Hospital Universitario Nuestra Señora de Candelaria. Santa Cruz de Tenerife. *Centre Hospitalier Universitaire. Saint Etienne, Francia

RESUMEN

Objetivos. Evaluar nuestros resultados del reimplante ureteral extravesical laparoscópico, según técnica de Lich-Gregoir, en el tratamiento del reflujo vésico-ureteral.

Material y métodos. Entre Agosto de 2007 y Enero de 2013, fueron tratadas 108 unidades renales en 80 pacientes. De ellos, 23 pacientes presentaban doble sistema renal; en 5 casos estaban asociados a obstrucción, y 3 de ellos con completo deterioro de la función del polo superior y presencia de ureterocele homolateral.

Resultados. Se practicó en todos los casos un reimplante ureteral extravesical laparoscópico. La edad media fue de 52 meses; el tiempo medio quirúrgico fue de 70 minutos en los unilaterales y 144 minutos en los bilaterales. Se realizó en un mismo tiempo operatorio tres heminefroureterectomías laparoscópicas, con incisión del ureterocele. La estancia media hospitalaria fue de 27 horas. La resolución completa fue del 96,5%. El seguimiento medio fue de 27 meses.

Conclusiones. El reimplante ureteral extravesical laparoscópico según técnica de Lich-Gregoir es efectivo frente al reflujo vesicoureteral unilateral, bilateral y asociado a doble sistema renal. Es posible realizar otros procedimientos en forma concomitante de forma segura (por ejemplo, heminefroureterectomía).

Se logra una menor estancia hospitalaria, mayor confort y rápida recuperación postoperatoria, con una tasa de éxito similar a la cirugía abierta.

PALABRAS CLAVE: Pediatría; Reflujo vesicoureteral; Laparoscopia.

LAPAROSCOPIC EXTRAVESICAL URETERAL REIMPLANTATION FOLLOWING LICH-GREGOIRE TECHNIQUE. MEDIUM-TERM PROSPECTIVE STUDY

ABSTRACT

Objectives. To evaluate our results of Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation according to Lich-Gregoire technique in the of vesicoureteral reflux treatment.

Material and methods. Between August 2007 and January 2013, 108 renal units in 80 patients were treated. There were 23 patients with

double renal system; in 5 cases were associated with obstruction, and 3 with completely impaired function of the upper pole and ipsilateral ureterocele presence.

Results. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation was performed in all cases. The mean age was 52 months; The mean operative time was 70 minutes in unilateral and 144 minutes in bilateral. Three laparoscopic heminephroureterectomies were performed at the same time, with incision of ureterocele. The average hospital stay was 27 hours. Complete resolution was 96.5%. Mean follow-up was 27 months.

Conclusions. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation following Lich-Gregoire technique is effective against the unilateral, bilateral and associated with double renal system vesicoureteral reflux. It's possible to perform others procedures in a securely and concomitantly way (eg., heminephroureterectomy).

A shorter hospital stay, more comfort and quicker recovery are achieved, with similar succes rates to open surgery.

KEY WORDS: Pediatric; Vesico-ureteral reflux; Laparoscopy extravesical.

INTRODUCCIÓN

Las indicaciones más comunes para el reimplante ureteral en niños son los reflujo vesicoureterales (RVU), y se han conseguido resultados prometedores con técnicas mínimamente invasivas como alternativa a la cirugía abierta. Hay múltiples posibilidades para el reimplante mínimamente invasivo, incluyendo los abordajes laparoscópicos y robóticos. La técnica utilizada puede realizarse de forma intravesical o extravesical.

La reconstrucción quirúrgica laparoscópica puede ser un desafío técnico aún para el cirujano laparoscopista experimentado⁽¹⁾. La primera comunicación de la técnica mínimamente invasiva fue publicada en 1984⁽²⁾. O'Donnell y Puri popularizaron el clásico procedimiento de STING (*Subureteric Transurethral Injection by Endoscopy*), con mayor confort para el paciente. La mayoría de los estudios sugieren que este abordaje tiene menor tasa de éxito comparado con la cirugía abierta⁽³⁾.

El abordaje quirúrgico mínimamente invasivo para el RVU fue inicialmente descrito por Atala y cols.⁽⁴⁾ en cerdos. La primera comunicación en humanos fue de Ehrlich y cols.⁽⁵⁾ en 1994, la misma fue seguida de múltiples trabajos referidos al

Correspondencia: Dr. Eduardo Pérez-Etchepare. Avenida de Bravo Murillo, 12 - 3ªA. 38003 Santa Cruz de Tenerife. Email: perezetchepare@gmail.com

Recibido: Mayo 2013

Aceptado: Junio 2014

abordaje laparoscópico. Algunos centros pediátricos han optado por el procedimiento laparoscópico extravesical o el abordaje vesicoscópico, y la tasa de éxito ha sido comparable con la cirugía abierta, con menor morbilidad para pacientes con RVU^(6,7).

Mostramos nuestra experiencia en el tratamiento de RVU realizando la técnica de reimplante ureteral extravesical laparoscópico (RUEL) según técnica de Lich-Gregoir (L-G), describiendo la evolución y la evaluación a medio plazo junto con los beneficios de esta técnica.

MATERIAL Y MÉTODOS

Prospectivamente revisamos las características de 135 unidades renales en 80 pacientes, de los cuales 77 casos eran unilaterales y 29 casos bilaterales. El 80% eran niñas (64 pacientes) y el 20% eran varones (16 pacientes). Todos fueron tratados con RUEL según técnica de L-G entre Agosto de 2007 y Enero de 2013.

El RVU fue clasificado usando la clasificación internacional (grados I al V) según el *International Reflux Study Committee*. Todos los pacientes fueron evaluados con *dimercaptosuccinil acid scan* (DMSA) en el preoperatorio. Las indicaciones quirúrgicas para el reimplante ureteral fue: alto grado de RVU con pielonefritis aguda recurrente y nueva formación de escara renal, bajo profilaxis antibiótica.

Todos los pacientes tenían deterioro de la función renal en el renograma isotópico con DMSA (77 unilaterales y 29 bilaterales). Los casos bilaterales fueron operados en el mismo acto quirúrgico.

Solo se realizó una cistoscopia en los pacientes con sospecha de doble sistema renal, para evaluar la localización de los meatos ureterales y la anatomía vesical.

Hubo 7 casos de RVU de grado III que fueron tratados inicialmente con procedimiento de STING, en los que persistió el RVU.

El seguimiento postoperatorio consistió en ecografía renal y vesical al mes y a los 6, 12 y 24 meses del postoperatorio. Se realizó una cistouretrografía miccional (CUM) a los 45 días del postoperatorio al inicio de la curva de aprendizaje, en los primeros 30 pacientes, hasta visualizar una tasa de resolución del RVU similar a la cirugía abierta.

En un paciente tenía antecedentes de episodios de retención urinaria y de enuresis en la anamnesis preoperatoria, que no requirieron tratamiento farmacológico.

RESULTADOS

De las 135 unidades renales, 7 pacientes tenían grado III de RVU, el resto eran grados IV y V. La edad media fue de 52 meses (15-200). No se precisó conversión a cirugía abierta en ningún caso.

La asociación de hallazgos encontrados fueron: divertículo de Hutch en 7 casos y en el momento del reimplante, el

divertículo fue reforzado para aportarle seguridad a la pared posterior de la vejiga.

Un paciente tenía RVU bilateral con completo deterioro de la función renal en uno de los riñones, y se realizó una nefrectomía asociada a RUEL.

En 7 casos de RVU bilateral asociados con bajo grado de RVU contralateral, se completó con inyección subureteral endoscópica sobre el contralateral.

Un total de 23 pacientes presentaban un doble sistema renal (DSR) con hemisistema inferior refluente, de los cuales en cinco casos estaban asociados a obstrucción, dos de ellos presentaban ureterocele ectópico, conservando la funcionalidad renal y los otros tres con deterioro completo de la función del polo superior.

En los 3 casos de DSR con ureterocele y hemisistema renal superior con mala función renal, se realizó una heminefroureterectomía polar superior laparoscópica, más descompresión de ureterocele por incisión endoscópica con Bugbee 3Fr. seguido de RUEL. Los pacientes con DSR con ureteroceles asociados al sistema renal superior y adecuada función renal, se realizó la apertura del ureterocele más RUEL.

En un paciente se realizó concomitantemente una herniorrafia inguinal bilateral laparoscópica.

Tres casos presentaron una perforación de la mucosa vesical durante la realización de RUEL y fueron tratadas con Endo-loop®, lo que permitió que la cirugía continuara normalmente. No hubo otra complicación intraoperatoria. El tiempo medio quirúrgico fue de 90 minutos (38-140) en los casos de RVU unilateral y de 144 minutos (120-200) en los RVU bilaterales, incluyendo la cistoscopia en los casos en los que se practicó.

La estancia hospitalaria media fue de 27 horas (22-48). Dos pacientes presentaron filtraciones ureterales al inicio de la serie, al octavo y decimotercer día postoperatorio, en dos niñas con RUEL bilateral que fueron diagnosticadas con tomografía computarizada (TAC). El primero de los casos fue resuelto realizando un nuevo reimplante extravesical con cirugía abierta; el segundo caso fue resuelto por vía laparoscópica según técnica de RUEL.

Un solo caso de reimplante bilateral presentó un cuadro de retención urinaria durante el postoperatorio inmediato que requirió 10 días de drenaje vesical con Cystocath®, con buena evolución.

La resolución global del RVU fue del 96,6%. Dos unidades renales lograron reducir su grado de RVU a grado II unilateral, y fueron consideradas como tratamiento fallido. En una de ellas se realizó inyección subureteral endoscópica y, en otra, fue re-intervenida con cirugía abierta.

El tiempo medio de seguimiento fue de 27 meses (2-57). Las 135 unidades renales de los 80 pacientes están asintomáticas.

DISCUSIÓN

El espectro de la laparoscopia en urología pediátrica ha tenido importantes avances, fundamentalmente en los últimos

años. Inicialmente fue usada como herramienta diagnóstica, pero en la actualidad se realizan procedimientos cada vez más complejos, por lo que alguno de estos requieren largas curvas de aprendizaje, aun para cirujanos expertos en laparoscopia.

La corrección cistoscópica del RVU es una alternativa razonable al reimplante quirúrgico tradicional en RVU de alto y bajo grado, particularmente en estos últimos aunque los resultados a largo plazo en la edad adulta siguen siendo desconocidos.

Diferentes técnicas endoscópicas de tratamiento de RVU como la pneumovesicoscopia, la laparoscopia y la cirugía robótica, han demostrado su utilidad, exponiendo resultados beneficiosos en cuanto a disminuir el dolor postoperatorio, acortar la estancia hospitalaria y el retorno a las actividades normales del paciente, al compararlas con la cirugía abierta⁽⁸⁾. En este sentido, RUEL según técnica de L-G y la técnica de Cohen laparoscópica son las técnicas más usadas, logrando una alta tasa de éxito. La técnica de L-G fue simultáneamente desarrollada y descrita por Lich y Gregoir en 1961 y 1964, respectivamente^(9,10). Esta técnica, además de asociarse con una alta tasa de éxito, comparable con la técnica de Cohen, tiene las siguientes ventajas: mínimos espasmos vesicales, no apertura de la vejiga con la consecuente menor morbilidad que eso conlleva, no hay hematuria en el postoperatorio y ninguna anastomosis. Se suma a esto, la menor estancia hospitalaria, con mayor rapidez en la recuperación del paciente⁽¹¹⁻¹³⁾.

En cirugía abierta, la técnica de L-G muestra una considerable incidencia de retención urinaria para el reimplante bilateral, con dificultad para el vaciamiento vesical. Esta es una complicación común de esta técnica y puede verse entre el 3-20% de los pacientes^(14,15). Esto puede resultar de una lesión neurovascular durante la disección ureteral distal o disección vesical⁽¹⁶⁾. Sin embargo, en cirugía abierta, McAhran y Palmer en 2005 y 2009 respectivamente, demostraron que la ureteroneocistostomía extravesical bilateral puede realizarse en pacientes seleccionados, sin retención urinaria postoperatoria y con alta hospitalaria, tras un día de hospitalización^(11,12).

Casale y Tsai en 2008 mostraron sus series de 41 y 5 pacientes, respetando la inervación (*nerve-sparing*) y reimplante de forma robótica y laparoscópica, respectivamente para el RVU, sin episodios de retención urinaria. Los autores atribuyeron la ausencia de retención a la mejor visualización de los haces neurovasculares laterales del hiato ureteral^(17,18).

Series pediátricas recientes de reimplante ureteral extra vesical con robot, usando la misma técnica muestran una dificultad al vaciamiento postoperatorio cercano al 30% en casos bilaterales⁽¹⁹⁾.

Baynes en 2012 mostró la serie más grande de pacientes con RUEL según técnica de L-G, con una incidencia de retención urinaria de 6,5% en casos bilaterales⁽²⁰⁾.

En nuestra serie, tuvimos solo un paciente con dificultad al vaciamiento vesical postoperatorio, lo cual pudimos haberlo anticipado, ya que tenía historia de retención urinaria severa⁽²¹⁾. Aunque nuestra tasa de dificultad del vaciamiento vesical es mucho menor, consideramos que hay un riesgo real

de que esto ocurra usando el abordaje extra vesical en RVU bilaterales. Estamos de acuerdo en que la disección lateral debería ser limitada para evitar lesionar el nervio pélvico⁽¹⁷⁾. Sin embargo, en otras series esta complicación no ha sido encontrada^(6,7,18).

Una de las complicaciones intraoperatorias más comunes de RUEL es la lesión ureteral u obstrucción (isquemia), debido a la sobremanipulación del uréter o excesivo cierre del nuevo túnel muscular.

Lakshmanan en 2000 y Kasturi en 2012 mostraron filtraciones urinarias abdominales que requirieron drenaje y colocación de catéteres doble J durante 2 meses^(1,22). Esos pacientes tenían como signo-sintomatología más común la presencia de dolor abdominal desde leve a severo, principalmente en flancos aunque también en la espalda, distensión abdominal, vómitos, fiebre, hematuria y leucocitosis.

Una lesión ureteral puede ser inicialmente diagnosticada con tomografía computarizada (TAC). Ante la presencia de alguno de estos síntomas en el postoperatorio, es importante tener un alto índice de sospecha y, en particular, el estudio debería incluir imágenes tardías con el objeto de buscar lesiones ureterales que producen un urinoma. Esto puede obviar la necesidad de estudios adicionales y de exploraciones innecesarias durante su reparación quirúrgica. El signo más importante de lesión ureteral es la extravasación de orina, la que se puede acumular en distintos lugares, dependiendo de la localización de la lesión⁽²³⁾.

Al inicio de nuestra serie hubo 2 casos, el primero de ellos, fue reoperado por cirugía abierta debido a nuestra escasa experiencia en operaciones laparoscópicas del RVU al momento de la complicación. En el segundo de los casos, se colocó una doble J por cistoscopia y se reoperó por vía laparoscópica, logrando suturar el uréter con puntos intracorpóreos. En ambos pacientes habíamos revisado previamente nuestra grabación de la cirugía sin lograr encontrar con claridad la causa que provocó la perforación.

Pensamos que probablemente fue secundaria a una excesiva manipulación del uréter o a una lesión térmica provocada con la coagulación monopolar. Para evitar esta complicación, optamos por el uso de una banda que rodea el uréter, desde la cual manipulamos el mismo, y limita la posibilidad de lesionarlo.

Una de las ventajas de RUEL con técnica de L-G frente a la técnica abierta es que en casos en que el RVU se asocia a un DSR, los procedimientos quirúrgicos pueden incluir manipulación del sistema renal superior o inferior o combinación de ambos; todo en un mismo acto quirúrgico.

En nuestra serie, en 5 de 21 pacientes, un DSR se asociaba con obstrucción, 2 tenían ureterocele intravesical ectópico con adecuada función renal y 3 tenían ureterocele intravesical ectópico con completo deterioro de la función del sistema superior. En 3 casos, se realizó una heminefroretectomía polar superior con escisión del ureterocele y RUEL, todo fue posible llevarlo a cabo en el mismo acto quirúrgico. En los restantes 2 casos, realizamos la escisión del ureterocele y RUEL⁽²⁴⁾.

Yeung, en 2007, durante el congreso de la ESPU, mostró la efectividad y seguridad al realizar heminefroureterectomía laparoscópica con escisión de ureterocele en el mismo acto quirúrgico. El procedimiento minimiza los peligros de la reconstrucción tradicional de la cirugía abierta, con DSR asociado a ureterocele con completo deterioro del polo superior y RVU⁽²⁵⁾.

CONCLUSIONES

RUEL según técnica de L-G es un procedimiento efectivo frente a RVU unilateral, bilateral y asociado a DSR.

Cuando se asocia a DSR y el paciente requiere otro procedimiento como una heminefroureterectomía, puede realizarse en forma segura y efectiva en el mismo acto quirúrgico. Con RUEL se logra una menor estancia hospitalaria, mayor confort y rápida recuperación postoperatoria, con tasa de éxito similar a la cirugía abierta.

BIBLIOGRAFÍA

- Kasturi S, Sehgal SS, Christman MS, Lambert SM, Casale P. Prospective long-term analysis of nerve-sparing extravesical robotic-assisted laparoscopic ureteral reimplantation. *Urology*. 2012; 79: 680-3.
- O'Donnell B, Puri P. Treatment of vesicoureteric reflux by endoscopic injection of Teflon. *Br Med J*. 1984; 289: 7-9.
- Frey T, Berger D, Jenny P, Herzog B. Subureteral collagen injection for the endoscopic treatment of vesicoureteral reflux in children: follow-up study of 97 treated ureters and histologic analysis of collagens. *J Urol*. 1992; 148: 718-23.
- Atala A, Kavoussi LR, Goldstein DS, et al. Laparoscopic correction for vesicoureteral reflux. *J Urol*. 1993; 150: 748-51.
- Ehrlich RM, Gershman A, Fuchs G. Laparoscopic vesicoureteroplasty in children: initial case. *Urology*. 1994; 43: 255-61.
- Riquelme M, Aranda A, Rodríguez C. Laparoscopic extravesical transvesical approach for vesicoureteral reflux. *J Laparoscopic Adv Surg Tech A*. 2006; 16: 312-6.
- Riquelme M, Aranda A. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation (LEVUR). *Dialogues Pediatr Urol*. 2008; 30: 8-9.
- Hayn MH, Smaldone MC, Ost MC, Docimo SG. Minimally invasive treatment of vesicoureteral reflux. *Urol Clin North Am*. 2008; 35: 477-88.
- Lich R, Howerton LW, Davis LA. Recurrence urosepsis in children. *J Urol*. 1961; 86: 554-8.
- Gregoir W, Van Regemorter G. Le reflux vesicoureteral congenital. *Uro Int*. 1964; 18: 122-36.
- McAhran SE, Palmer JS. Bilateral extravesical ureteral reimplantation in toilet trained children: is 1-day hospitalization without urinary retention possible? *J Urol*. 2005; 174: 1991-3.
- Palmer SJ. Bilateral extravesical ureteral reimplantation in toilet trained children: short-stay procedure without urinary retention. *Urology*. 2009; 73: 285-8.
- Houle AM, McLorie GA, Heritz DM, McKenna PH, Churchill BM, Khoury AE. Extravesical nondismembered ureteroplasty with detrusorrhaphy: a renewed technique to correct vesico-ureteral reflux in children. *J Urol*. 1992; 148: 704-7.
- Fung LC, Mc Lorie GA, Jain U, Khoury AE, Churchill BM. Voiding efficiency after ureteral reimplantation: a comparison of extravesical and intravesical techniques. *J Urol*. 1995; 153: 1972-5.
- David S, Kelly C, Poppas DP. Nerve-sparing extravesical repair of bilateral vesico-ureteral reflux. Description of technique and evaluation of urinary retention. *J Urol*. 2004; 172: 1617-20.
- Leissner J, Allhoff EP, Wolff W, Feja C, Höckel M, Black P, et al. The pelvic plexus and antireflux surgery: topographical findings and clinical consequences. *J Urol*. 2001; 165: 1652-5.
- Casale P, Patel RP, Kolon TF. Nerve sparing robotic Extravesical ureteral reimplantation. *J Urol*. 2008; 179: 1987-9.
- Tsai YC, Wu CC, Yang SS. Minilaparoscopic nerve-sparing extravesical ureteral reimplantation for primary vesicoureteral reflux: A preliminary report. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2008; 18: 767-70.
- Smith RP, Oliver JL, Peters CA. Pediatric robotic Extravesical ureteral reimplantation: Comparison with open surgery. *J Urol*. 2011; 185: 1876-81.
- Bayne A, Shoss JM, Starker NR, Cisek LJ. Single-center experience with Pediatric laparoscopic Extravesical reimplantation: safe and effective in simple and complex anatomy. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2012; 22: 102-6.
- López M, Varlet F. Laparoscopic extravesical transperitoneal approach following the Lich-Gregoir technique, in the treatment of vesicoureteral reflux in children. *J Pediatr Surg*. 2010; 45: 806-10.
- Lakshmanan Y, Fung L. Laparoscopic extravesical ureteral reimplantation for vesico-ureteral reflux: recent technical advances. *J Endourol*. 2000; 14: 589-93.
- Gayer G, Hertz M, Zissin R. Ureteral injuries: CT diagnosis *Semin Ultrasound CT MR*. 2004; 25: 277-85.
- López M, Melo C, François M, Varlet F. Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Procedure in Refluxing Duplicated Collecting Systems: Initial Experience. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2011; 21: 165-9.
- Yeung CK, Sreedhar B, Thakre A, Sihoe J. One stage laparoscopic heminephroureterectomy with excision of ureterocele and ureteric reimplantation: Long-term outcome. Presented at the ESPU meeting, Brugge, Belgium; 2007.

Commentaires des articles

Notre série actuelle comprend 138 unités rénales traitées par chirurgie laparoscopique avec un recul et un suivi moyen de presque 4 ans. Il n'existe pas à notre connaissance de série monocentrique d'un tel effectif suivi sur une telle durée. Une analyse rétrospective multicentrique de Riquelme *et al*, à laquelle avait participé le service de chirurgie pédiatrique de Saint Etienne (9) portait sur 95 unités rénales dont 32% de stade II et 55% de stade III avec un suivi de 12 mois et un taux de succès de 95,8%. La publication de Bayne *et al* en 2012 portait sur 144 unités rénales chez 98 enfants opérés selon la technique laparoscopique de Lich-Gregoir avec 46 interventions bilatérales. Le suivi moyen n'était que de 8,2 mois et le taux de succès de 95% (10).

La chirurgie robot-assistée est en plein développement et en 2010 Sorensen *et al* ont démontré la faisabilité de la chirurgie du reflux avec robot sur 50 enfants (11). La moyenne d'âge était élevée (8,6 ans) et le temps opératoire plus long que par laparoscopie « classique » (361 minutes vs 236, $p < 0,001$). En 2011 Smith *et al* ont comparé 25 chirurgies ouvertes selon Cohen à 25 procédures laparoscopiques robot-assistées (12). La moyenne d'âge était de 69 mois. La chirurgie robot-assistée permettait un séjour hospitalier plus court (33h contre 53h, $p < 0,001$) avec un taux de succès de 97% (contre 100% pour la chirurgie ouverte). La plus grosse série robotique a été publiée par Casale *et al* (13) : ils décrivent une chirurgie censée visualiser et préserver l'innervation vésicale à propos de 150 enfants (109 filles et 41 garçons) opérés par un opérateur unique. La moyenne d'âge était de 42,6 mois et tous les reflux étaient bilatéraux. Le suivi moyen était de 24 mois et le taux de succès décrit dépassait les 99%. Enfin aucun trouble de vidange vésicale n'est décrit. La chirurgie robot-assistée nécessite l'utilisation de trocars plus gros avec 3 trocars de 8mm et 1 autre de 5 mm, le plus souvent, ce qui peut limiter son

usage chez l'enfant. De plus, le prix d'achat du robot ainsi que son coût d'utilisation (entretien, consommables) sont à mettre en balance avec les bénéfices attendus, pour l'instant limités par rapport à la chirurgie laparoscopique standard.

Les bons résultats de cette technique de réimplantation urétéro-vésicale selon Lich-Gregoir sous laparoscopie nous permettent d'envisager un développement de la chirurgie ambulatoire pour ce type d'intervention. En effet les quatre derniers patients qui ont bénéficié d'une chirurgie unilatérale du reflux ont été hospitalisés pendant moins de 12H et ont pu rentrer le soir même à leur domicile ; ceci devrait pouvoir être envisagé en cas de réimplantation bilatérale. Plusieurs équipes rapportent elles aussi qu'une prise en charge ambulatoire est possible aussi bien par voie ouverte que par voie laparoscopique (14,15), y compris dans les réimplantations bilatérales. Pour ces auteurs une collaboration étroite entre les chirurgiens, les anesthésistes et la famille de l'enfant semble primordiale permettant d'atteindre plus de 90% d'interventions en ambulatoire. Cela représente pour nous une perspective permettant d'améliorer le service rendu à nos jeunes patients.

Par ailleurs nous avons opéré 7 patients d'un mégaurotère obstructif avec cette technique de Lich-Gregoir laparoscopique, en y associant un modelage urétéral extracorporel selon Hendren. Habituellement ces patients sont opérés par voie ouverte selon la technique de Cohen ou de Politano-Leadbetter ou de Paquin. La littérature est peu abondante sur le traitement laparoscopique de cette pathologie. Plusieurs « case-report » parus depuis les années 2000 rapportent la faisabilité d'un tel modelage extra ou intracorporel au cours d'une laparoscopie, robot-assistée ou non (16,17). En 2006, Ansari *et al* décrivent 3 mégaurotères opérés de la même façon avec un modelage extra-abdominal. La guérison a été complète pour un suivi moyen de 12 mois et le

temps opératoire moyen de 220 minutes (16). La chirurgie robotisée a aussi été employée en 2014 par Faasse *et al* chez un enfant de 9 ans. Il s'agissait d'un mégauretère refluant de 16 mm de diamètre avec un modelage intra-abdominal, traité avec succès (17). Dans ce sous-groupe, nous avons observé une seule complication : après traitement d'un mégauretère obstructif gauche, un reflux vésico-urétéral de stade III est apparu. La série est beaucoup trop restreinte pour en tirer des conclusions mais elle semble encourageante et nous pousse à la prolonger.

Références

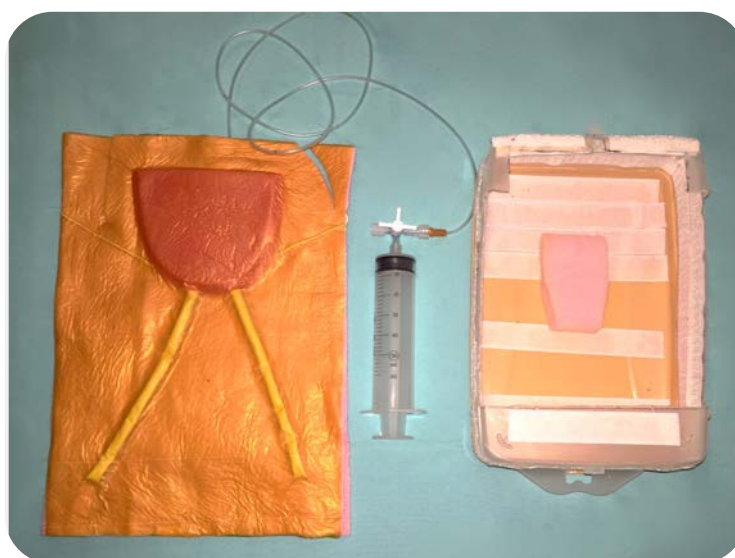
1. Valla JS, Steyaert H, Griffin SJ, et al. Transvesicoscopic Co- hen ureteric reimplantation for vesicoureteral reflux in chil- dren: A single-center 5-years experience. *J Pediatr Urol* 2009; 5:466–471.
2. Riquelme M, Aranda A, Rodriguez C. Laparoscopic extra- vesical transvesical approach for vesicoureteral reflux. *J Laparoscopic ADV Surg Tech* 2006; 16:312–316.
3. Leissner J, Allhoff EP, Wolff W, Feja C, Höckel M, Black P, et al. The pelvic plexus and antireflux surgery: topographical findings and clinical consequences. *J Urol.* 2001; 165: 1652-5.
4. Atala A, Kavoussi LR, Goldstein DS, et al. Laparoscopic correction o vesicoureteral reflux. *J Urol* 1993; 150:748–751.
5. Ehrlich RM, Gershman A, Fuchs G. Laparoscopic vesicour- eteroplasty in children: Initial case. *Urology* 1994; 43:255–261.
6. Lopez M, Varlet F. Laparoscopic extravesical transperitoneal approach following the Lich-Gregoir technique in the treatment of vesicoureteral reflux in children. *J of Ped Surg* 2010; 45:806-810
7. Lopez M, Melo C, François M, Varlet F. Laparoscopic Extravesical Transperitoneal Approach Following the Lich-Gregoir Procedure in Refluxing Duplicated Collecting System: Initial Experience. *J of Lapend & Advan surg tech.* 2011; 21:165-169
8. Lakshmanan Y, Fung L. Laparoscopic extravesical ureteral reimplan- tation for vesico-ureteral reflux: recent technical advances. *J Endourol* 2000; 14:589-93.
9. Mario Riquelme, Manuel Lopez, Sergio Landa, Francisco Mejia, Arturo Aranda Mario Rodarte-Shade, Jaime Rodriguez-Gomez. Laproscopic Extravesical ureteral reimplantation (LEVUR): A Multicenter Experience with 95 cases. *Eur J Pediatr Surg.* 2013; 23:143-7
10. Bayne AP1, Shoss JM, Starke NR, Cisek LJ. Single-center experience with pediatric laparoscopic extravesical reimplantation: safe and effective in simple and complex anatomy. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2012 Jan-; 22:102-6
11. Sorensen MD, Johnson MH, Delostrinos C, Bice JB, Grady RW, Lendvay TS Initiation of a pediatric robotic surgery program: Institutional challeges and realistic outcomes. *Surg Endosc* 2010; 24:2803-8.
12. Smith RP, Oliver JL, Peters CA. Pediatric robotic extravesical ureteral reimplantation: comparation with open surgery. *J Urol* 2011; 185:1876-81

13. Kasturi S, Sehgal SS, Chrisman MS, Lambert SM, Casale P. Prospective long-term analysis of nerve-sparing extravesical robotic-assisted laparoscopic ureteral reimplantation *Urology* 2012; 79:680-3
14. Wicher C, Hadley D, Ludlow D. 250 consecutive unilateral reimplantation in an outpatients setting. *J Urol* 2010; 184: 311-4
15. Palmer JS. Extravesical ureteral reimplantation: an outpatient procedure. *J Urol* 2008; 180:1828-31
16. Ansari MS, Mandhani A, Khurana N, Kumar A. Laparoscopic ureteral reimplantation with extracorporeal tailoring for megaureter: a simple technical nuance. *J Urol* 2006; 176: 2640-2
17. Faasse MA, Lindgren BW, Gong EM. Robot-assisted laparoscopic ureteral reimplantation with excisional tailoring for refluxing megaureter. *J Pediatr Urol.* 2014; 10:773

Concernant la difficulté de la réimplantation selon Lich-Gregoir sous laparoscopie et son enseignement, cette intervention nous semble facilement reproductible. Pour en accélérer sa maîtrise, j'ai pu développer, en collaboration avec une équipe argentine, un modèle d'entraînement présenté à l'International Pediatric Endosurgery Group (IPEG) à Nashville en avril 2015. Les différents chirurgiens l'ayant essayé ont trouvé ce modèle adapté et très intéressant, d'autant que son coût est modeste (environ 10€). Dès qu'il pourra être diffusé, il permettra aux chirurgiens, jeunes ou moins jeunes, de s'entraîner à cette technique laparoscopique, ce qui devrait raccourcir la durée d'apprentissage. Voici ce modèle :

Laparoscopic Simulator for Pediatric Ureteral Reimplantation (LAP SPUR)

Le premier simulateur laparoscopique pour la réimplantation urétéro-vésicale extra-vésicale a été créé en collaboration avec les équipes de Saint Etienne et de Buenos Aires-Argentine. Ce simulateur a été présenté pour la première fois lors du 24th Annual Congress of International Pediatric Endosurgery group, 14-18th April, Nashville, USA.



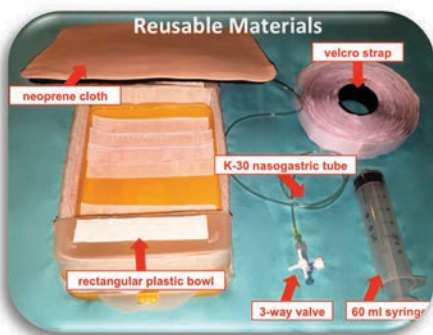
Les bénéfices d'un simulateur sont de permettre une pratique répétitive, de faciliter l'acquisition de la gestuelle opératoire et de donner des compétences chirurgicales telles que:

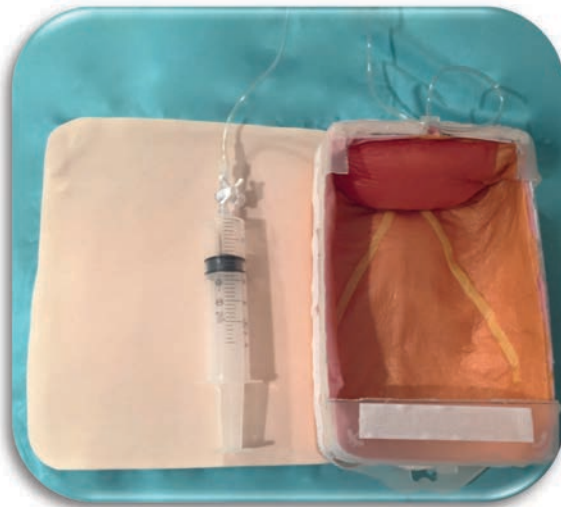
1. L'organisation visuelle.
2. La mémoire somato-sensorielle.
3. La tolérance au stress.

Les avantages d'un modèle synthétique sont nombreux:

1. Fournir un environnement sécurisé pour les stagiaires
2. Améliorer l'acquisition de connaissances cognitives
3. Augmenter la performance technique de la cœlioscopie
4. Ne pas compromettre la sécurité du patient
5. Avoir un faible coût en général.

Ici, il s'agit du premier modèle pour réimplantation urétérale extra-vésicale chez l'enfant selon la technique de Lich-Gregoir.





En conclusion, ce simulateur laparoscopique pédiatrique de la réimplantation vésico-urétérale (LAPSPUR) présente les mêmes situations anatomiques que chez l'enfant, avec un haut niveau de réalisme. C'est une méthode pratique, facile et ergonomique pour la formation de la coelioscopie en dehors du bloc opératoire et elle présente les avantages suivants:

1. Méthode reproductible
2. Faible poids (200 grammes)
3. Portable
4. Economique, avec un coût total de = 10,92€

Un processus de validation est en cours.

**IPEG's 24th Annual Congress
for Endosurgery in Children**

Held in Conjunction with the Society of American
Gastrointestinal and Endoscopic Surgeons (SAGES)

April 14-18, 2015
GAYLORD OPRYLAND HOTEL & CONVENTION CENTER
NASHVILLE, TENNESSEE, USA



PEDIATRIC URETERAL REIMPLANTATION LAP TRAINER

Simulation Model for the Training in Pediatric Laparoscopic Ureteral Reimplantation

Inanimate models provide a safe environment by increasing technical performance and cognitive knowledge of surgical procedures without compromising patient's safety. This is the main reason for their rising popularity amongst pediatric surgeons.

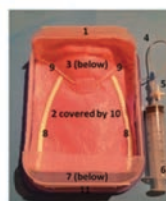
We have designed the first Laparoscopic Simulator for Pediatric Ureteral Reimplantation (LAP SPUR) using the Lich-Gregoire technique. LAP SPUR was tested by 3 highly trained pediatric urologists, using 3-mm, 20-cm short instruments. Low cost reusable materials (RM) and Disposable Materials (DM) "off the shelf" were employed to manufacture LAP SPUR.

- RM: A rectangular plastic bowl (25 x 17 cm²) and a neoprene cloth (26 x 36 cm²).
- DM: A water balloon¹, a K-30 plastic nasogastric tube², a 3-way valve³, a 60 ml syringe⁴, a rectangle of foam (17 x 23 x 0.4 cm³), 2 long white balloons (28 x 0.5 cm³), 2 threads of fine white lace⁵, a IOBANTM drape⁶ and 1 m of Velcro strap⁷.

In all cases the simulator provided:

1. Usefulness, ease and ergonomics to perform the laparoscopic procedure
2. Similarity to the real anatomic structures involved in terms of appearance and consistency
3. Low cost of the materials: \$ 10.92 (RM: \$ 8.03 and DM: \$ 2.89) in total
4. Low weight (200 grams) for straightforward transportation

Further development and validation are still needed to assess its true benefits though.



Innovations Corner

Chirurgie assistée par des aimants

La chirurgie laparoscopique a remplacé la chirurgie ouverte comme gold standard pour de nombreuses indications. Toujours dans un effort de réduction du caractère invasif de ces opérations, les chirurgiens ont développé la « single incision » et opèrent parfois à travers une incision unique par laquelle tous les instruments sont placés. L'incision est faite dans l'ombilic et les instruments sont introduits soit par le biais d'un trocart spécial, unique ou avec plusieurs petites incisions des fascias. Mais les inconvénients de cette technique sont nombreux : mauvaise triangulation entre les instruments et l'optique, collision des instruments, et manque de maniabilité. La chirurgie laparoscopique assistée par des aimants a été développée par Guillermo Dominguez, chirurgien d'adulte en Argentine, afin de récupérer la triangulation obtenue en laparoscopie conventionnelle tout en réduisant le nombre et la taille des incisions et des trocarts (1).

Après une formation très courte, l'équipe de Saint-Etienne a introduit cette technique en Europe chez l'enfant. Une première « néphro-urétérectomie assistée par des aimants » a été présentée lors du dernier congrès de l'International Pediatric Endosurgery Group en 2015 à Nashville (USA) lors de la séance « innovation ».

5:45 pm – 6:15 pm

Innovations Session NON CME

Tennessee Ballroom A/B

MODERATORS: Steven Rothenberg, MD & Timothy D. Kane, MD

ETV001: THE USE OF A 5MM 3-D VIDEO SYSTEM IN NEONATES AND INFANTS – [David C van der Zee](#), Department of Pediatric Surgery, University Medical Center Utrecht, The Netherlands

ETV002: ENDOVASCULAR TREATMENT OF A CONGENITAL THORACIC AORTIC ANEURYSM IN A PREMATURE NEWBORN – Steve Ferrara, Chad Mao, Marlon Tingzon, [Romeo C. Ignacio, Jr.](#), Naval Medical Center San Diego

ETV003: RIGHT NEPHROURETERECTOMY USING HYBRID TECHNIQUE: MAGNET MAGNET ASSISTED AND MINILAP IN A CHILD – [Manuel Lopez](#), Rocio Gutierrez, Eduardo Perez, Loren Margain, Sophie Vermersch, François Varlet; University Hospital of Saint Etienne, Department of Paediatric Surgery & Urology, Saint Etienne, France

Nous allons présenter lors du prochain congrès de la SFCP à Lille, notre première expérience avec cette nouvelle technique. Sur une période de 4 mois, six enfants ont eu une chirurgie laparoscopique assistée par des aimants : 1 appendicectomie pour plastron retardée, 2 cholécystectomies, 1 procédure de Lich-Gregoir, 1 splénectomie et 1 néphro-urétérectomie. Dans tous les cas, le dispositif de préhension magnétique a été inséré dans la cavité abdominale et fixée à l'organe ; il a été contrôlé par un aimant externe puissant fixé sur un bras articulé et ceci a permis d'avoir une bonne exposition lors de la dissection, sans ajouter de trocart supplémentaire. Cependant, il s'agit d'un matériel adapté à l'adulte, et chez les enfants plus jeunes, les aimants et le matériel doivent être miniaturisés. En tout cas, le principe semble très intéressant et devrait pouvoir être développé dans les années à venir.

Références

1. Dominguez G, Durand L, De Rosa J, Danguise E, Arozamena C, Ferraina PA. Retraction and triangulation with neodymium magnetic forceps for single-port laparoscopic cholecystectomy. *Surg Endosc.* 2009;23:1660-6.

Malformations de la paroi thoracique & traitement mini-invasif

Les services de chirurgie pédiatrique (Dr Manuel Lopez - Pr François VARLET) et de chirurgie thoracique (Pr Olivier TIFFET) du CHU de Saint-Etienne ont créé une consultation pluridisciplinaire et introduit en Europe des soins très originaux pour une pathologie parfois très invalidante, **les déformations de la paroi thoracique antérieure**. Elles étaient jugées rares auparavant, faute d'une prise en charge adaptée, car la chirurgie restait limitée à des formes exceptionnellement sévères ; mais elles sont en fait assez fréquentes et elles posent des problèmes anatomiques et physiologiques difficiles à résoudre ; ces déformations de la paroi thoracique aboutissent parfois à des épisodes dépressifs importants, menant parfois à des tentatives de suicide. Les malformations les plus fréquentes de la paroi thoracique antérieure intéressent le plastron chondrosternal. Le pectus carinatum (PC) ou thorax en carène survient 1 fois sur 300 à 400 naissances environ et est quatre fois plus fréquents chez le garçon que chez la fille [2]. Il existe un caractère familial dans certains cas. L'incidence est plus importante dans le syndrome de Marfan où la malformation de la paroi thoracique fait partie du tableau clinique. La base du traitement du PC au cours des 50 dernières années a été la chirurgie ouverte. La procédure impliquait l'ablation du cartilage costal anormal et une ostéotomie sternale pour reconstruire la paroi thoracique. Les résultats à long terme étaient mitigés, avec aggravation progressive des résultats cosmétiques et diminution de la compliance de la paroi thoracique au fil du temps. Traditionnellement, la réparation chirurgicale était réservée pour les cas les plus graves, et, en conséquence, de nombreux patients ont été laissés avec une déformation « modérée » non traitée. Le concept de compression externe pour traiter le PC a été décrit au cours du

siècle dernier ; il était fondé sur le fait que la paroi thoracique est toujours souple jusqu'à la puberté et permet le remodelage jusqu'en position normale par compression externe appliquée sur la déformation. Mais ces traitements, souvent par corset plâtré, étaient mal supportés et peu suivis, puis abandonnés. Récemment, le concept de compression externe a été repris et amélioré en 2008 par Martinez-Ferro, qui a permis une avancée majeure de cette méthode avec la mise au point d'un système de compression dynamique (DCS) beaucoup plus léger et efficace, révolutionnant la prise en charge des PC à leur début.

Concernant le Pectus Excavatum (PE) ou thorax en entonnoir, il se caractérise par une dépression concernant le plus souvent la moitié inférieure du sternum. Une rotation sternale dans son plus grand axe est associée au PE dans 50% des cas, plus fréquemment vers la droite. Les formes symétriques s'opposent aux formes asymétriques, lorsque le point le plus profond de la déformation n'est pas dans l'axe longitudinal du sternum. De nombreuses variantes existent, classées selon la forme de la dépression. La correction chirurgicale reste le traitement définitif du PE dans les formes sévères. Depuis l'introduction par Nuss en 1998 de la technique mini-invasive pour la correction du PE, cette technique est devenue le "gold standard", les suites étant beaucoup plus simples qu'avec les techniques traditionnelles. Le développement de cette technique de Nuss a eu pour conséquence d'entraîner un nombre croissant de patients, jusque-là peu motivés par la chirurgie ouverte lourde et ses résultats médiocres. Malgré cette « Nuss-revolution », des méthodes innovantes et non opératoires ont été proposées récemment, comme le Vacuum Bell*, dont le principe est le même que pour le PC et le système de compression dynamique, basé sur le fait que la paroi thoracique est encore souple et peut être remodelée jusqu'à sa position normale par un système de dépression appliquée sur la

déformation.

Nous avons donc introduit ces deux systèmes de compression (1^{er} en Europe) et de dépression dynamiques au CHU de Saint-Etienne avec un succès très important, attirant des patients de toute la France et de toute l'Europe, et même d'outre-Atlantique. Le CHU de Saint-Etienne s'est ainsi positionné comme leader sur le plan national et international dans le traitement des malformations de la paroi thoracique. C'est la récompense de la création de l'Unité des malformations de la paroi thoracique adulte-enfant, fruit de la collaboration entre les services de Chirurgie Pédiatrique et de Chirurgie Générale et Thoracique. Elle a développé cette pratique originale jusqu'à en recevoir une notoriété mondiale comme en témoigne les Congrès organisés en 2011 et en 2013, ayant permis pour ce dernier d'accueillir à Saint-Etienne 110 chirurgiens pédiatriques et thoraciques de 26 pays différents. Cette approche révolutionnaire a amené au CHU de Saint-Etienne une importante cohorte de patients de sujets jeunes ayant une pathologie jugée intraitable par chirurgie jusqu'alors, de plus de 250 patients dont l'Unité est devenu le seul recours.

Deux publications ont pu être réalisées : une première publiée en 2013 dans le *European Journal of Cardio-Thoracic Surgery*, et une deuxième vient d'être acceptée dans le *Journal of Pediatric Surgery*. De plus, deux chapitres ont été publiés dans des livres de chirurgie pédiatrique espagnole en 2014 et de chirurgie plastique pédiatrique en 2015.

Ces publications ont fait l'objet de communications avec comité de lecture en tant que premier auteur et dans des congrès scientifiques internationaux et nationaux. Ainsi que différents déplacements en tant que conférencier invité, dans des congrès internationaux et nationaux comme le CWIG (Chest Wall International Group) au Danemark. Nous avons également participé avec l'introduction de ces alternatives non-opératoires dans différents pays d'Europe : Pays-Bas, Hongrie.

- Pectus Carinatum. New trends. Conference. 21th Annual Meeting of GECEI (Groupe d'Etude en Coeliouchirurgie Infantile) Bellinzona, Suisse. October 14 -15, 2012
- Dynamic Compression System for the Correction of Pectus Carinatum. 17th Annual Meeting of International Society for Prosthetics and Orthotics. Lyon –France, 25 & 26 October 2012.
- Vacuum Bell*. Alternative in the treatment of Pectus Excavatum. 17th Annual Meeting of International Society for Prosthetics and Orthotics. Lyon France, 25 & 26 October 2012.
- Preliminary results with dynamic compression system in Pectus Carinatum. Chest Wall Interest Group. 13-15 June, 2013. Seoul, Korea.
- Preliminary results with dynamic compression system in Pectus Carinatum. 22th Annual Congress for Endosurgery in Children. IPEG. June 17-22, 2013, Beijing, China.
- Preliminary study of efficacy for dynamic compression system in the correction of Pectus Carinatum. 3rd Annual Meeting of European Society of Paediatric Endoscopic Surgeons (ESPES) & 22nd Congress of GECEI. September 26-28, 2013. Marseille, France.
- Preliminary study of efficacy for Dynamic Compression System in the correction of Pectus Carinatum. “Saint Etienne Experience” 2nd Workshop on Chest Wall Deformities. Oct 17-18, 2013 Saint Etienne-France.
- Innovations in chest wall deformities. Symposium “Health and Design for all”. 25th November 2013. Saint Etienne, France.

- Preliminary study of efficacy for Dynamic Compression System in the correction of Pectus Carinatum. 71th Congress of French Society of Pediatric Surgery, Lyon, France, May 22-24 2014
- 11th Meeting PERFECTO (chest wall malformations), December 9, 2010. Paris, France. “Pectus Carinatum & Minimal Invasive treatment”
- 21th Annual Meeting of GECI (Groupe d’Etude en Coeliochirurgie Infantile) Bellinzona, Switzerland. October 14 -15, 2012. Pectus Carinatum. New trends.
- 17th Annual Meeting of International Society for Prosthetics and Orthotics. Lyon –France, 25 & 26 October 2012. Dynamic Compression System for the Correction of Pectus Carinatum. Vacuum Bell. Alternative in the treatment of Pectus Excavatum.
- Workshop in Pectus Carinatum. Dynamic compression system. March 21 & 22 2013 Amsterdam Nederland.
- Preliminary study on efficacy for Dynamic Compression System in the correction of Pectus Carinatum. “Saint-Etienne experience”. 2nd Workshop on Chest Wall Deformities. Oct 17-18, 2013 Saint Etienne-France.
- Medical innovation in chest wall deformities. Symposium “ Health and Design for all” November 26,2013. Saint Etienne, France.
- 12th Workshop “PERFECTO” Treatment of the anterior thoracic wall deformities. May 17th 2014 Non operative treatment in Pectus Carinatum
- Symposium Chest wall Deformities, and pediatric airways surgery. 2 May 20th 2014. Cadiz, Spain Typical and Atypical Pectus Carinatum. Non Operative treatment.

Preliminary study of efficacy of dynamic compression system in the correction of typical pectus carinatum

Manuel Lopez^{a,b,*}, Arnaud Patoir^{a,b,c}, François Varlet^{a,b}, Eduardo Perez-Etchepare^a, Théophile Tiffet^a, Aurelien Villard^a and Olivier Tiffet^{a,b,c}

^a Unit of Chest Wall Deformities Children and Adults, University Hospital of Saint Etienne, Saint Etienne, France

^b Department of Pediatric Surgery, University Hospital of Saint Etienne, Saint Etienne, France

^c Department of General and Thoracic Surgery, University Hospital of Saint Etienne, Saint Etienne, France

* Corresponding author. Department of Pediatric Surgery, University Hospital of Saint Etienne, 42055 Saint Etienne, France. E-mail: manuel.lopez@chu-st-etienne.fr (Manuel Lopez).

Received 30 April 2013; received in revised form 16 July 2013; accepted 22 July 2013

Abstract

OBJECTIVES: This preliminary study evaluates, by qualitative score, the efficacy of the dynamic compression system (DCS) with a pressure-measuring device in the treatment of pectus carinatum (PC) as an alternative to surgery.

METHODS: A total of 68 patients (infants, adolescents and young adults) presenting with typical PC (64 males and 4 females) were evaluated in our Chest Wall Deformities Unit, between October 2011 and February 2013. The criteria for including subjects were: patients with typical condrogladiolar PC and pressure for initial correction (PIC) \leq 9 PSI (pound square inch). Seven patients were excluded in this study: three typical PC were treated by minimal invasive surgery (Abramson technique) due to highly elevated PIC and four atypical PC, hybrids forms (PE and PC) were treated by cup suction for pectus excavatum and by the DCS for the PC. The management protocol included: adjustment of the DCS, strengthening exercises and monthly clinical follow-up. The partial and final results were evaluated by the patients, by their parents or by both, using a qualitative scoring scale that was measured in a three-step grading system, where C is a low or very low result, B is acceptable and A is a very good or excellent result.

RESULTS: A total of 61 patients (59 males and 2 females) presenting with typical PC were treated by the DCS and included: symmetric PC in 43 cases and asymmetric PC in 18 cases. The mean age was 13.5 years (5–25). The mean PIC was 6.3 PSI (3–9 PSI). The mean utilization time was 19 h daily. The patients were divided into three groups. In Group I, consisting of 35 cases, all the patients have already completed the treatment with excellent aesthetic results (A). In 12 cases, Group II, the normal shape of the thorax has been obtained; all the patients in this group rated their results as excellent (A); however, these patients are still wearing the brace as a retainer for 3 additional months. Fourteen patients, Group III, are progressing and improving under active treatment, and surgeons and patients are very satisfied with the initial results. None of the 61 patients in this study abandoned the treatment and no complications were found.

CONCLUSIONS: This preliminary study demonstrated that the DCS with a pressure-measuring device is a minimal invasive system effective for treatment of PC in patients where the anterior chest wall is still compliant. The control of different pressure measurements could be used as the inclusion criterion as well as a predictive factor for aesthetic results and treatment duration.

Keywords: Pectus carinatum • Dynamic compression system • Non-operative treatment

INTRODUCTION

The mainstay of treatment of pectus carinatum (PC) over the past 50 years has been open surgery. The procedure involves the removal of abnormal costal cartilage and sternal osteotomy with reconfiguration of the chest wall [1–4]. Long-term results have been mixed, with reports of worsening cosmetic outcomes and decreased chest wall compliance over time [5–7]. Traditionally, surgical repair has been reserved for the most severe cases, and, as a result, many patients have been left with an untreated, mild-to-moderate deformity.

The concept of external compression for the treatment of PC was first described in the last century [8]. It was based on the fact

that the chest wall is still compliant during puberty and allows the reshaping of the sternum and costal ribs by external compression applied over the deformity. Subsequently, this principle has been widely applied with reports showing favourable outcomes [9–16].

More recently, the evolution of the concept of external compression was described in 2008 by Martinez-Ferro *et al.* [17], who have advanced this technology with the implementation of the dynamic compressor system (DCS), using a custom-fitted, cushioned aluminium brace. The compression plate is attached to the anterior segment of the brace and placed at the level of the protrusion. By pushing the deformity backward, the compression gradually reshapes the chest into normal position. The DCS allows measurement of the pressure for initial correction (PIC) by an

electronic pressure-measuring device, and this, in turn, helps establish the criteria for the use of the brace and avoids complications such as skin problems and patient non-compliance. PIC is used as a predictive factor for the evaluation of the results and of the treatment duration. This preliminary study evaluates, by qualitative score, the efficacy of the dynamic compression system (DCS) with a pressure-measuring device in the treatment of PC as an alternative to surgery for these patients.

MATERIALS AND METHODS

Between October 2011 and February 2013, 68 patients with typical condrogladiolar PC were treated in our Chest Wall Deformities Unit, after obtaining IRB approval for all patients. The criteria for including subjects were: patients with typical condrogladiolar PC and PIC \leq 9 PSI (pound square inch). Seven patients were excluded in this study: minimal invasive surgery (Abramson technique) was performed in 3 cases due to very highly elevated PIC superior to 14 PSI and 4 patients with atypical PC, hybrid forms (PE and PC) were treated simultaneously by cup suction for pectus excavatum and by the DCS for PC, with very good results so far. The remaining 61 cases were included in this study and were treated by the DCS, 4 of whom had a relevant medical history: cardiac surgery by sternotomy, Ravitch procedure with recurrence of PC, Marfan syndrome and previous bracing failure. In 9 patients (14%), a scoliosis was found during the PC deformity physical evaluation. At the first consultation, PIC is obtained by applying the electronic device over the deformity until normal shape. As stated in the 'Introduction' section, PIC helps establish the criteria for the inclusion of patients likely to benefit from the use of the brace. It is worth noting that patients with a PIC of $<$ 9 PSI were enrolled in this study. Further measurements were then taken to customize the brace. On placing the brace, it was duly adjusted. For the regulation of the pressure of the treatment, the pressure device was attached to the anterior segment of the brace, thus permitting the adjustment of the pressure to the desired level to minimize the risk of skin lesions. The pressure of the treatment used in our study was \leq 3 PSI. Patients were instructed to wear the brace during sleep and as much as possible during the day and were allowed to remove it only during sports or in the shower. At the same time, the patients were instructed by physiotherapists to do appropriate exercises to optimize results and they were advised to do certain physical activities, for example, swimming and weights. Patients are checked every month and when complete correction is achieved, the brace is used progressively for fewer hours as a retainer mode for 4–6 months. Partial and final results are evaluated by the patients, their

parents or by both using a qualitative scoring scale that was measured in a three-step grading system, where C is a low or very low result, B is acceptable and A is a very good or excellent result. Given the age of the patients, CT scan before and at the end of the treatment was not suitable in such a short period of treatment. It was performed only in a few patients.

RESULTS

Sixty-one patients (59 males and 2 females) were treated by the DCS. The mean age of the patients was 13.5 years (5–25 years). The mean time of use per day in all patients was 19 h (17–22 h). Forty-three of the patients were symmetric deformities, and 18 asymmetric deformities. The mean PIC in pounds per square inch (PSI) was 6.3 PSI (3–9 PSI). Patient characteristics are presented in Table 1. The 61 patients were divided into 3 groups. In Group I, consisting of 35 patients (57.3%), all patients have already completed the treatment and were: 23 symmetric cases and 12 asymmetric cases. The mean age in this group was 13.3 years (5–25 years), and the mean PIC was 6 PSI (3–7.5 PSI). The mean time of treatment was 10 months (2.6–11.4 months). In symmetric cases, the mean time of treatment was 8.9 vs 11.3 months in asymmetric cases. The follow-up was 5 months (3–15 months). Only 1 of them experienced a minimal recurrence 2 months after finishing the treatment and needed to wear the brace during 3 additional months, after which there was no recurrence. Both patients and parents in this group rated the results as excellent (A). In Group II, consisting of 12 patients (19.6%), there were: 7 symmetric deformities and 5 asymmetric deformities. All the patients exhibited flattening of the sternum and are currently wearing the brace as a retainer \sim 12 h every 2 days during 3 additional months. The mean age in this group was 14 years (5–19 years old) and the mean PIC was 6.2 PSI (3.7–9 PSI). The mean time of treatment until normal shape was achieved was 10.5 months (3–18 months). Both patients and parents in this group rated the results as excellent (A). To date, there has been no recurrence. In Group III, consisting of 14 patients (22.9%), there were 13 symmetric and 1 asymmetric deformity. All patients are progressing and improving under active treatment. The mean age in this group was 13.6 years (5–18 years old) and the mean PIC was 6.8 PSI (3–14 PSI). In 2 of them, the PIC was 14 PSI and both had an improved result with brace treatment after 6 months. Both parents and patients are very satisfied with the initial results. No patients abandoned the treatment and no complications were found. On comparing symmetric PC vs the asymmetric PC patients in Group I, that is, in patients who have completed the treatment, the mean time of

Table 1: Patient characteristics

| | Group I | Group II | Group III |
|---------------------------------|---------------|---|---|
| Treatment | Completed | Flattening of the sternum 'retainer mode' | Active progressing and improving in all |
| Patients | 35 | 12 | 14 |
| Mean age (years) | 13.3 (5–25) | 14 (5–19) | 13.6 (5–18) |
| Pressure for initial correction | 6 (3.5–7.5) | 6.2 (3.7–9) | 6.8 (3–14) |
| Symmetric | 23 | 7 | 13 |
| Asymmetric | 12 | 5 | 1 |
| Mean time of treatment (months) | 10 (2.6–11.4) | 10.5 (5–18) + retainer mode | In treatment |
| Results | A | A | Patients and parents are very satisfied |

3

M. Lopez et al. / European Journal of Cardio-Thoracic Surgery

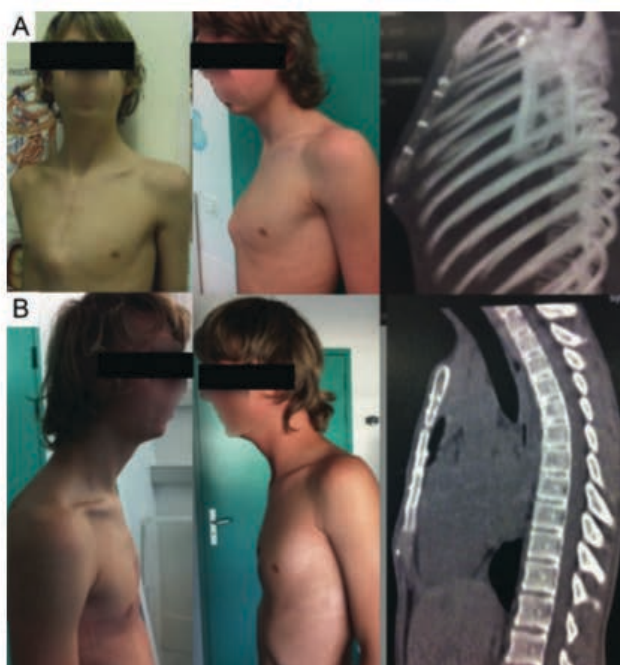


Figure 1: Symmetric case. Same patient with symmetric PC. 16 years old, PIC of 7.5 PSI. History of cardiac surgery by sternotomy. Group I: (A) before treatment and (B) after 11 months of treatment.

treatment was 8.94 months in symmetric cases (Fig. 1) vs 11.3 months in asymmetric cases (Fig. 2). It would seem, therefore, that the patients with unilateral protrusion are more difficult and their mean time of treatment to reshape the chest with the brace takes is longer than that of those that have the symmetric defect.

DISCUSSION

The first report in the English literature for correction of PC by compressive orthotic bracing was made by Haje and Bowen [16] in 1992. Since then, subsequent reports have been described and the majority of the trials have shown good results [15–17]. Several authors have suggested a variety of non-operative approaches based on the concept that the anterior chest wall is still compliant during puberty and permits remodelling by applying external compression [18, 19]. Compared with open surgery, brace treatment eliminates risks such as anaesthesia and major surgery, decreases the complication rate, leaves no visible scar, avoids hospital admission and reduces the cost of treatment. The final cosmetic results are similar to those of open surgery [13, 14, 17]. Compressive orthotic bracing is becoming a well-recognized therapy and an effective non-operative treatment for PC, improving both the objective protrusion and appearance, as judged by the patient. The advantages of the DCS over other orthotics brace are: it involves the use of pressure device measurements, it helps to establish the criteria for inclusion, and acts as a predictive factor to evaluate the results and treatment duration. Regulation of the pressure during the treatment helps to avoid complications such as skin problems and patient non-compliance [17]. Brace treatment is becoming the treatment of choice for almost all patients, particularly in mild-to-moderate defects where surgical treatment could be excessive. In 2010, Martinez-Ferro [20] proposed a

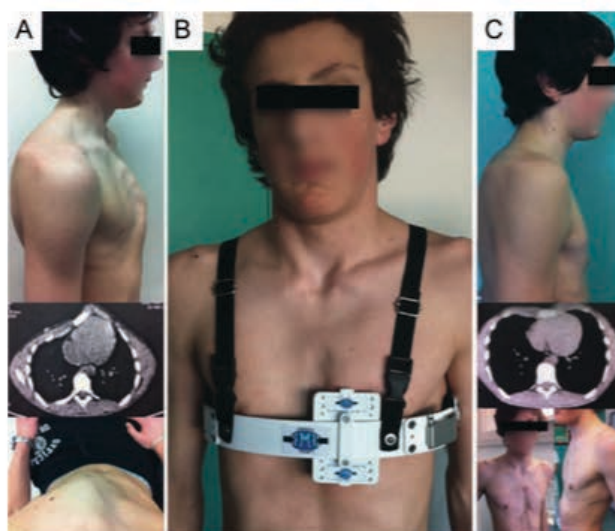


Figure 2: Asymmetric case. Same patient, with asymmetric PC 14 years old. PIC of 8.8 PSI. Group II: (A) before: lateral view, CT scan and upper view, (B) during the treatment and (C) after 7 months of treatment, CT scan, lateral and front view.

decisional algorithm for PC. In patients with $PIC \leq 7.5$ PSI, the DCS should be the treatment of choice. If the patients tolerate the DCS, no surgery will be needed. Our initial results in patients with PC treated by the DCS were excellent, within this limit of pressure. Fifty-one of 65 patients with PC had $PIC \leq 7.5$ PSI and were: 35 in Group I, 6 in Group II, and 10 in Group III. As can be appreciated in the 'Results' section of Table 1, all patients and parents rated the results of the treatment as excellent (A). Our decision was to increase the limit of pressure to 9 PSI. This allowed us to include a number of patients in the prescription of the DCS, in an attempt to give them the benefits of minimal invasion. This alternative to surgical treatment was well received by our patients with greater PIC. In our study, 14 patients had $PIC \geq 7.5$ PSI; 2 of them had PIC of 14. All of these patients are still undergoing the treatment. Eight of them, from Group II, exhibited flattening of the sternum (Fig. 2), and 6 from Group III are progressing and improving under active treatment. Our feeling is that the use of the DCS could be extended to patients with $PIC \leq 9$, although a greater sample of this kind of patient and longer follow-up would be necessary. The time of the treatment is related to the age of the patient, the type of PC, PIC and the hours of use per day of the DCS. It is interesting to observe the response of the patients; once they begin to see results, which typically occur in 1–2 months, they enthusiastically increase the force used and the corresponding chest compliance. As Martinez Ferro *et al.* [17] claim, in younger patients, a more malleable chest wall responds more rapidly to the treatment. However, to validate this, objective evaluation methods are required. In conclusion, this preliminary study supports the principle that the DCS with pressure measuring of the deformity is a minimal invasive system, with minimal invasion and an effective non-operative alternative for treatment of PC to improve self-image in patients where the anterior chest wall is still compliant. The control of different pressure measurements could be used as the inclusion criteria as well as a predictive factor for aesthetic results and the duration of the treatment. In asymmetric deformities, the treatment duration is longer than symmetric cases.

Conflict of interest: none declared.

REFERENCES

- [1] Goretsky MJ, Kelly RE Jr, Croitoru D, Nuss D. Chest wall anomalies: pectus excavatum and pectus carinatum. *Adolesc Med Clin* 2004;15:455-71.
- [2] Fonkalsrud EW, Anselmo DM. Less extensive techniques for repair of pectus carinatum: the undertreated chest deformity. *J Am Coll Surg* 2004;198:898-905.
- [3] Colombani PM. Recurrent chest wall anomalies. *Semin Pediatr Surg* 2003;12:94-9.
- [4] Schwabegger AH, Harpf C, Ninkovic M, Rieger M. Technical refinements in planning and surgical therapy of pectus carinatum. *Chirurg* 2002;73:1191-6.
- [5] Lacquet LK, Morshuis WJ, Folgering HT. Long-term results after correction of anterior chest wall deformities. *J Cardiovasc Surg* 1998;39:683-8.
- [6] Haller Jr JA, Colombani PM, Humphries CT, Aizkhan RG, Loughlin GM. Chest wall constriction after too extensive and too early operations for pectus excavatum. *Ann Thorac Surg* 1996;61:1618-24.
- [7] Weber TR. Further experience with the operative management of asphyxiating thoracic dystrophy after pectus repair. *J Pediatr Surg* 2005;40:170-3.
- [8] Jaubert de Beaujeu M. Thorax en carène. *Lyon Chir* 1964;60:440-3.
- [9] Lee RT, Moorman S, Schneider M, Sigalet DL. Bracing is an effective therapy for pectus carinatum: Interim results. *J Pediatr Surg* 2013;48:184-90.
- [10] Cohee AS, Lin JR, Frantz FW, Kelly RE Jr. Staged management of Pectus Carinatum. *J Pediatr Surg* 2013;48:315-20.
- [11] Jung J, Chung SH, Cho JK, Park SJ, Choi H, Lee S. Brace Compression for treatment of Pectus Carinatum. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2012;45:396-400.
- [12] Stephenson JT, Du Bois J. Compressive orthotic bracing in the treatment of pectus carinatum: the use of radiographic markers to predict success. *J Pediatr Surg* 2008;43:1776-80.
- [13] Lee SY, Lee SJ, Jeon CW, Lee CS, Lee KR. Effect of the compressive brace in pectus carinatum. *Eur J Cardiothorac Surg* 2008;34:149-59.
- [14] Frey AS, Garcia VF, Brown RL, Inge TH, Ryckman FC, Cohen AP *et al.* Non-operative management of pectus carinatum. *J Pediatr Surg* 2006;41:40-5.
- [15] Kravarusic D, Dicken BJ, Dewar R, Harder J, Poncet P, Schneider M *et al.* The Calgary protocol for bracing pectus carinatum: a preliminary report. *J Pediatr Surg* 2006;41:923-6.
- [16] Haje SA, Bowen JR. Preliminary results of orthotic treatment of pectus deformities in children and adolescents. *J Pediatr Orthop* 1992;12:795.
- [17] Martinez-Ferro M, Fraire C, Bernard S. Dynamic compression system for the correction of pectus carinatum. *Semin Pediatr Surg* 2008;17:194-200.
- [18] Banever GT, Konefal SH, Gettens K, Moriarty KP. Non operative correction of Pectus carinatum with orthotic bracing. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2006;16:164-7.
- [19] Egan JC, Dubois JJ, Morphy M, Samples TL, Lindell B. Compressive orthotics in the treatment of asymmetric Pectus carinatum: a preliminary report with an objective radiographic marker. *J Pediatr Surg* 2000;35:1183-6.
- [20] Martinez-Ferro M. New approaches to pectus and other minimally invasive surgery in Argentina. *J Pediatr Surg* 2010;45:19-27.



Symposium

Malformaciones de tórax

y Patología de Vía Aérea Pediátrica



Índice

| | |
|---|-----|
| Prólogo | 5 |
| Recuerdo anatómico de la vía aérea | 6 |
| Clasificación de las malformaciones de la pared torácica | 14 |
| Pectus excavatum. Generalidades. | 28 |
| Técnicas quirúrgicas abiertas en la corrección del pectus excavatum | 42 |
| Técnicas quirúrgicas mínimamente invasivas en el tratamiento del pectus excavatum | 50 |
| Preliminary study of efficacy of dynamic compression system in the correction of typical pectus carinatum | 63 |
| Pruebas de imagen para el estudio de la vía aérea. | 73 |
| Indicaciones de la Broncoscopia flexible en pediatría. | 81 |
| Trasplante pulmonar en Pediatría. Actualización, complicaciones de la vía aérea y papel de la broncoscopia. | 108 |
| Lesiones funcionales de la vía aérea. Laringo y traqueomalacia | 116 |
| Estenosis subglóticas. Alternativas terapéuticas actuales | 126 |
| Estenosis traqueal congénita. Clasificación y propuestas quirúrgicas | 142 |
| Hemangioma Subglótico | 150 |
| Abordaje quirúrgico de casos complejos de vía aérea | 154 |
| Dilataciones neumáticas de la vía aérea | 161 |
| Broncoscopia intervencionista | 174 |

Preliminary study of efficacy of dynamic compression system in the correction of typical pectus carinatum

Dr. M. Lopez

INTRODUCTION

The mainstay of treatment of pectus carinatum (PC) over the past 50 years has been open surgery. The procedure involves the removal of abnormal costal cartilage and sternal osteotomy with reconfiguration of the chest wall [1–4]. Long-term results have been mixed, with reports of worsening cosmetic outcomes and decreased chest wall compliance over time [5–7]. Traditionally, surgical repair has been reserved for the most severe cases, and, as a result, many patients have been left with an untreated, mild-to-moderate deformity.

The concept of external compression for the treatment of PC was first described in the last century [8]. It was based on the fact that the chest wall is still compliant during puberty and allows the reshaping of the sternum and costal ribs by external compression applied over the deformity. Subsequently, this principle has been widely applied with reports showing favourable outcomes [9–16].

More recently, the evolution of the concept of external compression was described in 2008 by Martinez-Ferro et al. [17], who have advanced this technology with the implementation of the dynamic compressor system (DCS), using a custom-fitted, cushioned aluminium brace. The compression plate is attached to the anterior segment of the brace and placed at the level of the protrusion. By pushing the deformity backward, the compression gradually reshapes the chest into normal position. The DCS allows measurement of the pressure for initial correction (PIC) by an electronic pressure-measuring device, and this, in turn, helps establish the criteria for the use of the brace and avoids complications such as skin problems and patient non-compliance. PIC is used as a predictive factor for

the evaluation of the results and of the treatment duration. This preliminary study evaluates, by qualitative score, the efficacy of the dynamic compression system (DCS) with a pressure-measuring device in the treatment of PC as an alternative to surgery for these patients.

MATERIALS AND METHODS

Between October 2011 and February 2013, 68 patients with typical condrogladiolar PC were treated in our Chest Wall Deformities Unit, after obtaining IRB approval for all patients. The criteria for including subjects were: patients with typical condrogladiolar PC and PIC \leq 9 PSI (pound square inch). Seven patients were excluded in this study: minimal invasive surgery (Abramson technique) was performed in 3 cases due to very highly elevated PIC superior to 14 PSI and 4 patients with atypical PC, hybrid forms (PE and PC) were treated simultaneously by cup suction for pectus excavatum and by the DCS for PC, with very good results so far. The remaining 61 cases were included in this study and were treated by the DCS, 4 of whom had a relevant medical history: cardiac surgery by sternotomy, Ravitch procedure with recurrence of PC, Marfan syndrome and previous bracing failure. In 9 patients (14%), a scoliosis was found during the PC deformity physical evaluation. At the first consultation, PIC is obtained by applying the electronic device over the deformity until normal shape. As stated in the 'Introduction' section, PIC helps establish the criteria for the inclusion of patients likely to benefit from the use of the brace. It is worth noting that patients with a PIC of <9 PSI were enrolled in this study. Further measurements were then taken to customize the brace. On placing the brace, it was duly adjusted. For the regulation of the pressure of the treatment, the pressure device was attached to the anterior segment of the brace, thus permitting the adjustment of the pressure to the desired level to minimize the risk of skin lesions. The pressure of the treatment used in our study was ≤ 3 PSI. Patients were instructed to wear the brace

during sleep and as much as possible during the day and were allowed to remove it only during sports or in the shower. At the same time, the patients were instructed by physiotherapists to do appropriate exercises to optimize results and they were advised to do certain physical activities, for example, swimming and weights. Patients are checked every month and when complete correction is achieved, the brace is used progressively for fewer hours as a retainer mode for 4–6 months. Partial and final results are evaluated by the patients, their parents or by both using a qualitative scoring scale that was measured in a three-step grading system, where C is a low or very low result, B is acceptable and A is a very good or excellent result. Given the age of the patients, CT scan before and at the end of the treatment was not suitable in such a short period of treatment. It was performed only in a few patients.

RESULTS

Sixty-one patients (59 males and 2 females) were treated by the DCS. The mean age of the patients was 13.5 years (5–25 years). The mean time of use per day in all patients was 19 h (17–22 h). Forty-three of the patients were symmetric deformities, and 18 asymmetric deformities. The mean PIC in pounds per square inch (PSI) was 6.3 PSI (3–9 PSI). Patient characteristics are presented in Table 1. The 61 patients were divided into 3 groups. In Group I, consisting of 35 patients (57.3%), all patients have already completed the treatment and were: 23 symmetric cases and 12 asymmetric cases. The mean age in this group was 13.3 years (5–25 years), and the mean PIC was 6 PSI (3–7.5 PSI). The mean time of treatment was 10 months (2.6–11.4 months). In symmetric cases, the mean time of treatment was 8.9 vs 11.3 months in asymmetric cases. The follow-up was 5 months (3–15 months). Only 1 of them experienced a minimal recurrence 2 months after finishing the treatment and needed to wear the brace during 3 additional months, after which there was no recurrence.

Both patients and parents in this group rated the results as excellent (A). In Group II, consisting of 12 patients (19.6%), there were: 7 symmetric deformities and 5 asymmetric deformities. All the patients exhibited flattening of the sternum and are currently wearing the brace as a retainer 12 h every 2 days during 3 additional months. The mean age in this group was 14 years (5–19 years old) and the mean PIC was 6.2 PSI (3.7–9 PSI). The mean time of treatment until normal shape was achieved was 10.5 months (3–18 months). Both patients and parents in this group rated the results as excellent (A). To date, there has been no recurrence. In Group III, consisting of 14 patients (22.9%), there were 13 symmetric and 1 asymmetric deformity. All patients are progressing and improving under active treatment. The mean age in this group was 13.6 years (5–18 years old) and the mean PIC was 6.8 PSI (3–14 PSI). In 2 of them, the PIC was 14 PSI and both had an improved result with brace treatment after 6 months. Both parents and patients are very satisfied with the initial results. No patients abandoned the treatment and no complications were found. On comparing symmetric PC vs the asymmetric PC patients in Group I, that is, in patients who have completed the treatment, the mean time of treatment was 8.94 months in symmetric cases (Fig. 1) vs 11.3 months in asymmetric cases (Fig. 2). It would seem, therefore, that the patients with unilateral protrusion are more difficult and their mean time of treatment to reshape the chest with the brace takes is longer than that of those that have the symmetric defect.

DISCUSSION

The first report in the English literature for correction of PC by compressive orthotic bracing was made by Haje and Bowen [16] in 1992. Since then, subsequent reports have been described and the majority of the trials have shown good results [15–17]. Several authors have suggested a variety of non-operative approaches based on the concept that the ante-

rior chest wall is still compliant during puberty and permits remodelling by applying external compression [18, 19]. Compared with open surgery, brace treatment eliminates risks such as anaesthesia and major surgery, decreases the complication rate, leaves no visible scar, avoids hospital admission and reduces the cost of treatment. The final cosmetic results are similar to those of open surgery [13, 14, 17]. Compressive orthotic bracing is becoming a well-recognized therapy and an effective non-operative treatment for PC, improving both the objective protrusion and appearance, as judged by the patient. The advantages of the DCS over other orthotics brace are: it involves the use of pressure device measurements, it helps to establish the criteria for inclusion, and acts as a predictive factor to evaluate the results and treatment duration. Regulation of the pressure during the treatment helps to avoid complications such as skin problems and patient non-compliance [17]. Brace treatment is becoming the treatment of choice for almost all patients, particularly in mild-to-moderate defects where surgical treatment could be excessive. In 2010, Martinez-Ferro [20] proposed a decisional algorithm for PC. In patients with $PIC \leq 7.5$ PSI, the DCS should be the treatment of choice. If the patients tolerate the DCS, no surgery will be needed. Our initial results in patients with PC treated by the DCS were excellent, within this limit of pressure. Fifty-one of 65 patients with PC had $PIC \leq 7.5$ PSI and were: 35 in Group I, 6 in Group II, and 10 in Group III. As can be appreciated in the 'Results' section of Table 1, all patients and parents rated the results of the treatment as excellent (A). Our decision was to increase the limit of pressure to 9 PSI. This allowed us to include a number of patients in the prescription of the DCS, in an attempt to give them the benefits of minimal invasion. This alternative to surgical treatment was well received by our patients with greater PIC. In our study, 14 patients had $PIC \geq 7.5$ PSI; 2 of them had PIC of 14. All of these patients are still undergoing the treatment. Eight of them, from Group II, exhibited flattening of the sternum (Fig. 2), and 6 from Group III

are progressing and improving under active treatment. Our feeling is that the use of the DCS could be extended to patients with PIC ≤ 9 , although a greater sample of this kind of patient and longer follow-up would be necessary. The time of the treatment is related to the age of the patient, the type of PC, PIC and the hours of use per day of the DCS. It is interesting to observe the response of the patients; once they begin to see results, which typically occur in 1–2 months, they enthusiastically increase the force used and the corresponding chest compliance. As Martinez Ferro et al. [17] claim, in younger patients, a more malleable chest wall responds more rapidly to the treatment. However, to validate this, objective evaluation methods are required. In conclusion, this preliminary study supports the principle that the DCS with pressure measuring of the deformity is a minimal invasive system, with minimal invasion and an effective non-operative alternative for treatment of PC to improve self-image in patients where the anterior chest wall is still compliant. The control of different pressure measurements could be used as the inclusion criteria as well as a predictive factor for aesthetic results and the duration of the treatment. In asymmetric deformities, the treatment duration is longer than symmetric cases.

REFERENCES

- [1] Goretsky MJ, Kelly RE Jr, Croitoru D, Nuss D. Chest wall anomalies: pectus excavatum and pectus carinatum. *Adolesc Med Clin* 2004;15:455–71.
- [2] Fonkalsrud EW, Anselmo DM. Less extensive techniques for repair of pectus carinatum: the undertreated chest deformity. *J Am Coll Surg* 2004; 198:898–905.
- [3] Colombani PM. Recurrent chest wall anomalies. *Semin Pediatr Surg* 2003; 12:94–9.

- [4] Schwabegger AH, Harpf C, Ninkovic M, Rieger M. Technical refinements in planning and surgical therapy of pectus carinatum. *Chirurg* 2002;73: 1191–6.
- [5] Lacquet LK, Morshuis WJ, Folgering HT. Long-term results after correction of anterior chest wall deformities. *J Cardiovasc Surg* 1998;39:683–8.
- [6] Haller Jr JA, Colombani PM, Humphries CT, Aizkhan RG, Loughlin GM. Chest wall constriction after too extensive and too early operations for pectus excavatum. *Ann Thorac Surg* 1996;61:1618–24.
- [7] Weber TR. Further experience with the operative management of asphyxiating thoracic dystrophy after pectus repair. *J Pediatr Surg* 2005;40:170–3.
- [8] Jaubert de Beaujeu M. Thorax en carène. *Lyon Chir* 1964;60:440–3.
- [9] Lee RT, Moorman S, Schneider M, Sigalet DL. Bracing is an effective therapy for pectus carinatum: Interim results. *J Pediatr Surg* 2013;48:184–90.
- [10] Cohee AS, Lin JR, Frantz FW, Kelly RE Jr. Staged management of Pectus Carinatum. *J Pediatr Surg* 2013;48:315–20.
- [11] Jung J, Chung SH, Cho JK, Park SJ, Choi H, Lee S. Brace Compression for treatment of Pectus Carinatum. *Korean J Thorac Cardiovasc Surg* 2012;45: 396–400.
- [12] Stephenson JT, Du Bois J. Compressive orthotic bracing in the treatment of pectus carinatum: the use of radiographic markers to predict success. *J Pediatr Surg* 2008;43:1776–80.
- [13] Lee SY, Lee SJ, Jeon CW, Lee CS, Lee KR. Effect of the compressive brace in pectus carinatum. *Eur J Cardiothorac Surg* 2008;34:149–59.
- [14] Frey AS, Garcia VF, Brown RL, Inge TH, Ryckman FC, Cohen AP et al. Non-operative management of pectus carinatum. *J Pediatr Surg* 2006;41: 40–5.

Les malformations de la paroi thoracique

S. Vermersch, A. Patoir, F. Varlet, O. Tiffet, M. Lopez

Plan du chapitre

- Introduction
- Génétique et syndromes
- Physiopathologie
- Clinique
- Traitement
- Indications et résultats
- Conclusion

Introduction

Parmi les malformations congénitales de la paroi thoracique antérieure (MPTA), les pectus excavatum (PE) et pectus carinatum (PC) sont les plus fréquents. Le PE est caractérisé par un enfoncement plus ou moins prononcé de la partie inférieure du sternum alors que le PC correspond à une protrusion du sternum vers l'avant. Ces MPTA sont probablement liées à un excès de développement des cartilages chondro-sternaux, mais la pathogénie reste inconnue. Il existe de nombreuses formes de pectus et différents types de complications sont possibles, pouvant influencer les indications thérapeutiques. De même, l'existence d'associations PE et PC chez le même patient (formes hybrides) va rendre la prise en charge beaucoup plus complexe. La prévalence des PE est d'1 naissance sur 400 aux Etats-Unis avec un ratio de 4 hommes pour 1 femme [1-2]. Pour le PC, la prévalence semble être 2 à 4 fois moins importante que pour le PE, avec la même prépondérance masculine (4 :1) [3]. Le diagnostic et le traitement sont fonction du type de malformation et des nombreuses formes cliniques.

Génétique et syndromes

Les MPTA sont habituellement sporadiques, mais on retrouve des antécédents familiaux dans 43% des cas pour le PE et 4% pour le PC, impliquant une probable prédisposition génétique [4]. Cependant, aucun défaut génétique spécifique n'a été mis en évidence à ce jour. La plupart du temps, les déformations de la paroi thoracique sont isolées et n'entrent dans le cadre d'une maladie du tissu conjonctif que rarement, chez moins d'1% des patients atteints de PE [5]. Creswick et al ont mené des études de collaboration génétique montrant que la transmission des PE se faisait selon des modes différents dans leur série, autosomique dominant pour 14 familles sur 34 (41%), autosomique récessif pour 4 familles (12%) et récessif lié à l'X pour 6 familles (18%) alors que le mode de transmission était plus complexe pour 10 autres familles (29%) [6]. Si on utilise les systèmes de recherche de syndromes génétiques rares (POSSUM ou Pictures Of Standard Syndroms and Undiagnosed Malformations - version 5.7 et WBDD ou Winter-Baraitser Dysmorphology Database - version 1.0.14), les anomalies génétiques en association avec les PE et les PC sont représentées par 39 syndromes monogéniques, 8 aberrations chromosomiques et 44 réarrangements chromosomiques structuraux [7].

Les syndromes monogéniques les plus importants et les plus fréquemment associés aux PE et PC sont représentés par le syndrome de Noonan (OMIM 163950) et le syndrome de Marfan (OMIM 154700). Dans l'étude de Kelly, parmi les 1215 patients porteurs de PE répertoriés en 2010, le syndrome de Marfan était présent chez 2,8%, mais d'autres avaient des signes évocateurs dans 17,8% des cas bien qu'il n'y ait eu aucune confirmation génétique; 3 autres patients étaient porteurs d'un syndrome d'Ehler-Danlos [8]. Le syndrome de Marfan est lié à des mutations du gène fibrilline1 (FBN1) localisé sur

le bras long du chromosome 15. La prévalence de cette maladie autosomique dominante est d'environ 1/5000 à 1/10.000 et la pénétrance est voisine de 100% avec une variabilité intrafamiliale possible. Près de 25% des cas sont des mutations de novo et le risque de récurrence pour la fratrie est alors faible. Quand un patient présente des manifestations cliniques, une mutation peut être découverte par méthode moléculaire jusqu'à une fréquence pouvant atteindre 91%. Récemment Loeys et Dietz (OMIM 190182) ont décrit un nouveau phénotype comprenant des anévrysmes de la racine de l'aorte, un hypertélorisme, une fente palatine ou une luvette bifide, une tortuosité artérielle généralisée ou une anomalie squelettique (PE ou PC, scoliose, arachnodactylie) ; cet ensemble n'est probablement qu'une forme clinique de la séquence malformative aboutissant aux syndromes de Marfan et d'Ehler-Danlos. Le syndrome de Loeys-Dietz est lié à une mutation des gènes TGFBR1 et TGFBR2, gènes du facteur de croissance « transformant bêta » pour les récepteurs de type 1 ou 2 [9]. Le syndrome de Noonan est un autre syndrome monogénique transmis de façon autosomique dominante par des mutations au niveau de différents gènes dont PTPN11 sur le chromosome 12, donnant un gain de fonction de la phosphotyrosine phosphatase SHP-2. Le phénotype est alors caractérisé par une taille normale à la naissance mais diminuant au fur et à mesure de la croissance, par des malformations cardiaques congénitales (sténose de la valve pulmonaire et/ou cardiomyopathie), par un cou large, un PC à la partie supérieure du thorax et un PE à la partie inférieure, une cryptorchidie, des troubles de la coagulation et une dysmorphie faciale (ptosis, oreilles bas implantées, augmentation de la distance interorbitaire) [10].

Ainsi, tous les patients consultant pour une malformation de la paroi thoracique doivent être soigneusement examiné à la recherche d'autres anomalies concernant aussi bien le squelette que tous les organes. Si un syndrome particulier est suspecté, le patient doit bénéficier d'un conseil génétique.

Physiopathologie

La pathogénie des PE et des PC reste mal connue. Les principales hypothèses concernent soit un trouble du développement, soit un trouble de maturation, soit un métabolisme défectueux du cartilage sterno-costal. Chez les patients atteints de PE, il existerait des anomalies histologiques du cartilage chondro-sternal, no-

tamment cellulaire, avec une vacuolisation, un polymorphisme, une picnose nucléaire, une cellularité variable, une nécrose focale et une désorganisation de la matrice myxoïde [11-12]. Feng et al ont pu démontrer, chez les patients atteints de PE, une altération des qualités biomécaniques du cartilage chondro-sternal avec une diminution de tension, de compression et de flexion de ce cartilage [13]. Geisbe et al ont rapporté un vieillissement histologique prématuré du cartilage sterno-costal chez les patients atteints d'un PE. Il existerait une anomalie des oligo-éléments des cartilages chondro-sternaux avec une diminution de concentration du zinc et une augmentation accrue de calcium et de magnésium [14]. Certaines données indiquent que des anomalies porteraient également sur l'ossification endochondrale et le métabolisme des mucopolysaccharides [15]. Il existerait donc une activité de croissance accrue, une diminution de l'intégrité structurelle en présence d'une contrainte mécanique supplémentaire chez les patients porteurs de PE et, dans une certaine mesure, un vieillissement prématuré du cartilage. Brochhausen et al pensent qu'il existerait principalement 2 hypothèses pour expliquer la pathogénie des PE, l'une portant sur un trouble du développement et l'autre sur une prolifération du cartilage chondro-sternal lié à des troubles de maturation [16]. Pour le PC, les anomalies physiopathologiques sont comparables à celles du PE avec un défaut sous-jacent du cartilage sterno-costal [3].

Clinique

Le diagnostic des MPTA est essentiellement clinique. L'interrogatoire recherche des antécédents personnels et familiaux pouvant évoquer un éventuel syndrome de Marfan ou un syndrome d'Ehler-Danlos. Le syndrome de Marfan peut provoquer PE et PC et de nombreux appareils peuvent être concernés : oculaire (myopie, luxation du cristallin, décollement de la rétine) ; cardiovasculaire (dilatation ou dissection de l'aorte ascendante, prolapsus de la valve mitrale ou tricuspide) ; neurologique (ectasie durale) ; squelettique (dolichosté-nomélie, arachnodactylie, scoliose) ; ou encore tissulaire comme une hyperlaxité ligamentaire et une atteinte du cartilage chondro-sternal [17]. Pour le syndrome d'Ehler-Danlos, les critères majeurs de diagnostic sont l'hyperextensibilité cutanée, les nombreuses cicatrices cutanées témoins de la fragilité tissulaire et l'hyperlaxité articulaire ; les critères diagnostiques mineurs comprennent les tumeurs molluscoïdes, les sphéroïdes

sous-cutanés, les luxations ou subluxations articulaires, l'hypotonie musculaire ainsi que les antécédents de syndrome d'Ehler-Danlos. Nous avons vu dans le chapitre génétique qu'il fallait aussi rechercher des signes en faveur d'un syndrome de Loeys-Dietz et notamment l'hypertélorisme très évocateur.

Concernant les signes fonctionnels, le principal motif de consultation est esthétique, avec un retentissement psychologique parfois majeur, pouvant aller jusqu'au risque suicidaire. On peut l'apprécier par le questionnaire de Nuss (Annexe). La douleur est le symptôme le plus fréquemment rapporté, à l'effort ou au repos, à type d'oppression et plutôt localisée au niveau du sternum. Chez les patients porteurs de PE, dyspnée, palpitations ou mauvaise tolérance à l'effort sont parfois rapportées.

L'inspection est l'élément-clé du diagnostic et elle s'effectue sur un patient en position debout et couché. De face puis de profil, il faut observer les rapports entre le sternum et les côtes, l'existence d'anomalies des premières articulations sterno-chondrales ou des cartilages communs (auvents costaux) ainsi que le caractère symétrique ou asymétrique de la déformation (**Figure 1**).

L'examen clinique se poursuit en mesurant la profondeur maximale de la dépression pour les PE, en position couchée (**Figure 2**) et pour les PC le point le plus distant du sternum en position debout. De dos, il faut rechercher une attitude scoliotique ou cyphotique, des épaules « tombantes » ou encore une protrusion de l'abdomen, ces anomalies étant observées chez 65% des patients, notamment à l'adolescence ; elles sont davantage attribuées à des tentatives de dissimulation



Figure 1 :

Pectus excavatum de face (a) et de profil (b) avec saillie des auvents costaux.

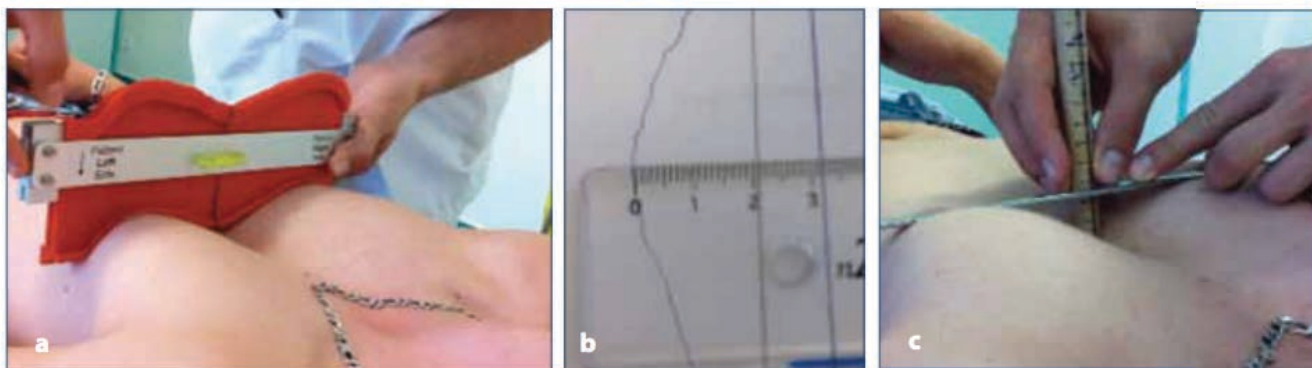


Figure 2 :

Technique de mesure du pectus excavatum avec un profilleur (a) que l'on reporte sur le dossier pour mesurer le point le plus profond (b) ou avec une règle circulaire (c).

de la malformation qu'à des anomalies congénitales engendrant la MPTA. L'examen général recherche les signes cliniques pouvant s'intégrer dans les syndromes de Marfan, d'Ehler-Danlos ou de Loeys-Dietz.

Pectus excavatum

Appelé aussi thorax en entonnoir ou « funnel chest », le PE se caractérise par une dépression concernant le plus souvent la moitié inférieure du sternum. Une rotation sternale dans son plus grand axe est associée au PE dans 50% des cas, plus fréquemment vers la droite. Les formes symétriques s'opposent aux formes asymétriques, lorsque le point le plus profond de la déformation n'est pas dans l'axe longitudinal du sternum. De nombreuses variantes existent, classées selon la forme de la dépression, et Chen a proposé une classification en 3 types :

- **Type 1** : en cupule, ou « punch shape », correspondant à une dépression très localisée de petit diamètre et de profondeur variable, souvent localisée au niveau du tiers inférieur du sternum et classiquement au centre du thorax, symétrique.
- **Type 2** : en soucoupe, ou « saucer type ». La dépression est cette fois plus large en diamètre, pouvant dépasser les 2 lignes mammelonnaires. Le thorax adopte une forme globalement plate due à une hypoplasie sévère des muscles pectoraux.
- **Type 3** : « grand canyon » où l'ensemble du sternum est concerné par la dépression.

Pectus carinatum

Appelé aussi « thorax en carène », il correspond à une protrusion du sternum vers l'avant. L'examen clinique permet de caractériser la taille, le caractère symétrique ou non, l'existence d'une forme hybride, l'élasticité du sternum, les forces de pression de correction et un éventuel syndrome associé. Pour l'estimation de la protrusion sternale, on mesure la circonférence du thorax, son diamètre antéro-postérieur sans et après appui externe sur la déformation. La soustraction de ces deux mesures permet d'avoir une estimation de la longueur du PC.

Examens Paracliniques

Les examens paracliniques ont pour rôle d'éliminer une malformation sous-jacente comme l'ectasie de l'aorte ascendante ou une dilatation de la racine aortique, et d'étudier l'aspect de la MPTA.

Radiographies osseuses

Elles sont d'une utilité faible depuis l'avènement de la tomodensitométrie de routine mais s'avèrent utiles dans l'évaluation de jeunes patients afin d'éviter des irradiations répétées. De face, on peut mettre en évidence un déplacement vers la gauche de la silhouette cardiaque par diminution de l'espace inter-sterno-vertébral. Les segments postérieurs des côtes sont horizontalisés alors qu'en avant ils sont trop inclinés. De profil, on visualise clairement la réduction du diamètre transversal. En revanche, les radiographies ne permettent pas d'identifier les cartilages.

Tomodensitométrie

Le scanner multi-barrette hélicoïdal permet d'offrir une meilleure qualité d'image tout en réduisant l'irradiation subie par le patient. En quelques secondes, l'ensemble du thorax est étudié, s'affranchissant des mouvements respiratoires durant le temps de l'acquisition. Les clichés thoraciques dans l'évaluation des PE ne nécessitent pas d'injection de produit de contraste iodé puisqu'il s'agit d'étudier le cadre osseux et ses rapports avec les organes sous-jacents. Il doit être réalisé dans le bilan initial de la pathologie avant tout traitement.

L'examen tomodensitométrique permet de mesurer sur une coupe transversale la distance entre le point le plus bas du sternum et la face antérieure de la vertèbre correspondante (longueur A) et le diamètre transversal du thorax (longueur B) (**Figure 3**).

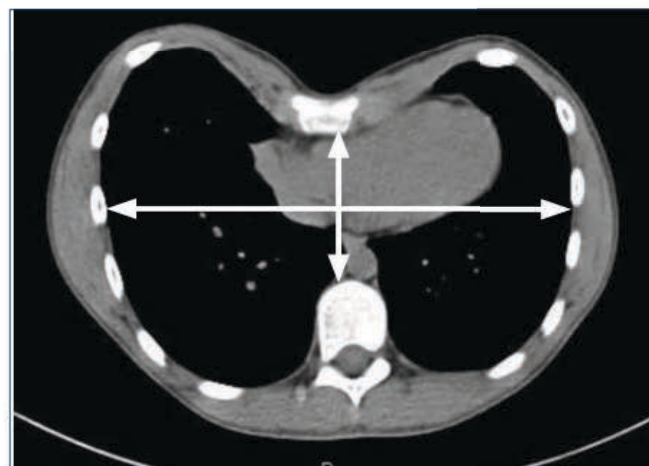


Figure 3 :

Tomodensitométrie thoracique d'un pectus excavatum avec mesure de l'index de Haller. La ligne A correspond au diamètre antéro-postérieur du thorax et la ligne B au diamètre transversal.

Le ratio B/A mesure l'index de Haller (IH) et définit le grade de sévérité du PE :

- Grade I si IH est inférieur à 3,2.
- Grade II si IH est entre 3,2 et 3,7.
- Grade III si IH est supérieur à 3,7.

Cette classification va conditionner la prise en charge thérapeutique puisqu'elle présage de la difficulté de correction nécessaire, qu'elle soit orthopédique ou chirurgicale. L'examen tomodensitométrique permet aussi :

- de repérer précisément les structures ostéo-cartilagineuses concernées par le PE et l'état de torsion du corps sternal ;
- de confirmer le type de déformation et son caractère symétrique ou non ;
- de rechercher la présence d'un emphysème ou d'une atélectasie en rapport avec l'hypoventilation ;
- d'éliminer une autre cause de pectus (tumeur osseuse, syndrome de Poland...).

Traitement

Traitement de fond

Le premier volet du traitement comporte toujours une activité physique visant à augmenter le volume musculaire pectoral, tout en rectifiant l'axe rachidien, notamment la cyphose constatée chez certains patients. La natation et l'utilisation d'haltères de poids adaptées à l'âge de l'enfant ou de l'adolescent peuvent permettre d'améliorer l'aspect du PE voire de diminuer sa profondeur dans les cas peu sévères.

La kinésithérapie est le deuxième volet du traitement associée impérativement à l'activité sportive. Le praticien va proposer des exercices d'assouplissement du rachis et des postures adéquates pour la pratique sportive. Il est primordial qu'un kinésithérapeute soit présent lors de la première consultation afin de sensibiliser l'enfant à l'importance de la kinésithérapie comme traitement à part entière.

La prise en charge psychologique est rarement nécessaire mais son utilité doit être évaluée. Des questionnaires de qualité de vie, notamment celui de Nuss, permettent en consultation de juger l'impact de la déformation ressentie par le patient et par les parents. Une aide psy-

chologique doit être proposée en cas de score sévère du retentissement, ou en cas de demande du patient.

Pectus excavatum

Traitement non opératoire

Les premières tentatives de traitement orthopédique avec attraction de la paroi thoracique antérieure furent rapportées au début du 20^e siècle mais abandonnées par la suite [18]. Aujourd'hui, ces techniques non chirurgicales tendent à se développer à nouveau, compte tenu des améliorations technologiques permettant une bonne tolérance de l'appareillage et son acceptation par le patient.

Le Vacuum Bell® (Eckart Klobe) est un dispositif médical basé sur un système de ventouse, permettant une attraction vers l'avant de la paroi thoracique. Cinq tailles existent pour s'adapter à chaque morphologie, dont un modèle pour les femmes respectant les seins (**Figure 4**).

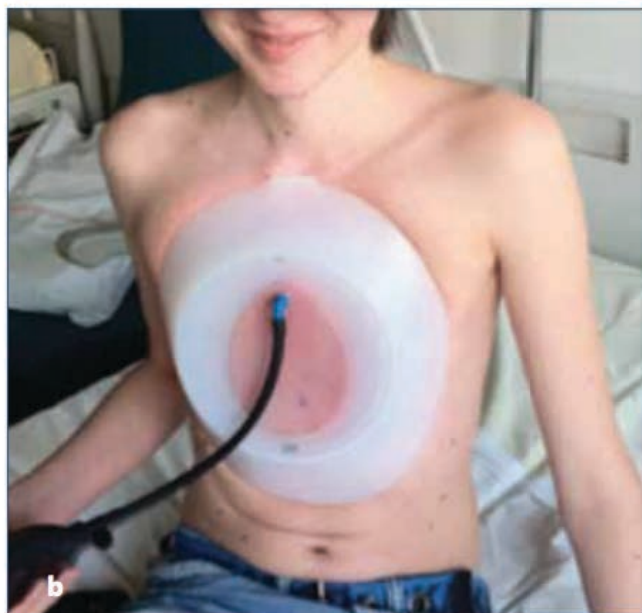


Figure 4 :

Les cinq tailles de « Vacuum Bell ® » (a), avec exemple de pose (b).

Initialement, le système doit être utilisé au moins 3 fois par jour pendant 30 minutes mais selon notre expérience, certains patients l'utilisent dès qu'ils peuvent et de manière plus prolongée permettant une efficacité plus rapide. Un vide de 15% en-dessous de la pression atmosphérique est créé par le patient lui-même en utilisant une pompe à main. Ce système attire le sternum en avant grâce à la dépression et celle-ci surmonte la résistance mécanique des os, des cartilages et des ligaments impliqués dans l'entonnoir alors que les muscles inter-costaux et diaphragmatiques ont tendance à ramener l'entonnoir anatomique vers sa forme pathologique. Ainsi, le Vacuum Bell[®] sert à étirer ces muscles afin d'affaiblir leur capacité de traction. Une première application est réalisée en consultation, sous surveillance du médecin, et les capacités d'élévation antérieure du thorax permettront de juger l'efficacité ultérieure du traitement. Avant tout traitement, il est nécessaire de rechercher les principales contre-indications : coagulopathie non contrôlée, syndrome de Marfan avec prolapsus mitral, fibrillation auriculaire, prise de médicaments anti-arythmiques, PC associé, suspicion de néoplasie sous-jacente ou encore syndrome de Poland. En pratique, ce système est proposé, en l'absence de contre-indication, dès l'âge de 5 ans et peut être prescrit jusqu'à l'âge de 60 ans environ, l'élasticité du thorax pouvant être encore suffisante. La durée du traitement dépend de l'usage, de l'âge, du type et de la sévérité de la déformation. Le Vacuum Bell[®] peut être proposé à des PE sévères, symétriques ou asymétriques, ou des patients ne souhaitant pas de traitement chirurgical. Lors de la

première pose du Vacuum Bell[®], un malaise vagal peut survenir, raison pour laquelle le patient est surveillé pendant quelques heures avant de permettre le retour à domicile. Les complications ou effets secondaires sont essentiellement cutanées comme des pétéchies, des phlyctènes ou des hématomes, des dorsalgies ou plus rarement des paresthésies des extrémités supérieures.

Traitement chirurgical

Traitement combiné par aimant

Harrison a développé un autre système progressif basé sur un champ de force magnétique nommé Magnetic Mini-Mover Procedure (3MP). Deux aimants sont mis en place, l'un implanté à l'intérieur de la cage thoracique et attaché au sternum et le second attaché à un support externe à l'extérieur de la paroi thoracique (Figure 5). Ce système réalise ainsi une traction de la paroi thoracique antérieure de façon constante et contrôlée [19].

Barre rétrosternale de Nuss (Figures 6 et 7)

Au début des années 90, quelques auteurs tels que Peña ou Haller ont décrit des chondrodystrophies asphyxiantes acquises après sternochondroplasties trop précoces [23-24]. Dans ce contexte, un paradigme a émergé selon lequel une rétropulsion à la face postérieure du sternum éviterait toute modification chirurgicale des cartilages. Donald Nuss a développé une barre rétro-sternale, pouvant être insérée sous contrôle thoracoscopique chez des patients porteurs de PE [4].

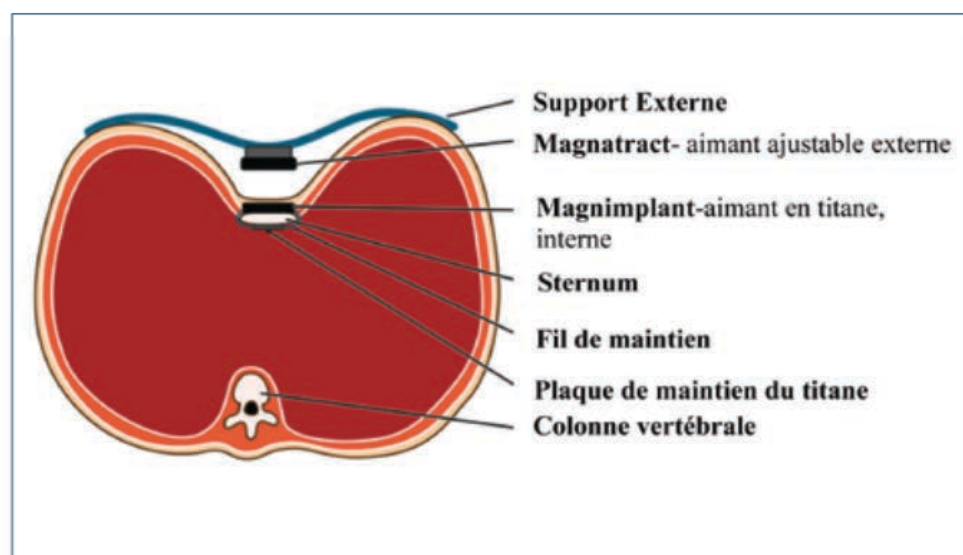


Figure 5 :

Schéma de la cage thoracique en coupe transversale avec le système « Magnetic Mini Mover Procedure » en place (site internet de l'université de Californie, San Francisco, chirurgie pédiatrique, <http://www.pedsurg.ucsf.edu/conditions--procedures/magnetic-mini-mover-procedure.aspx>)

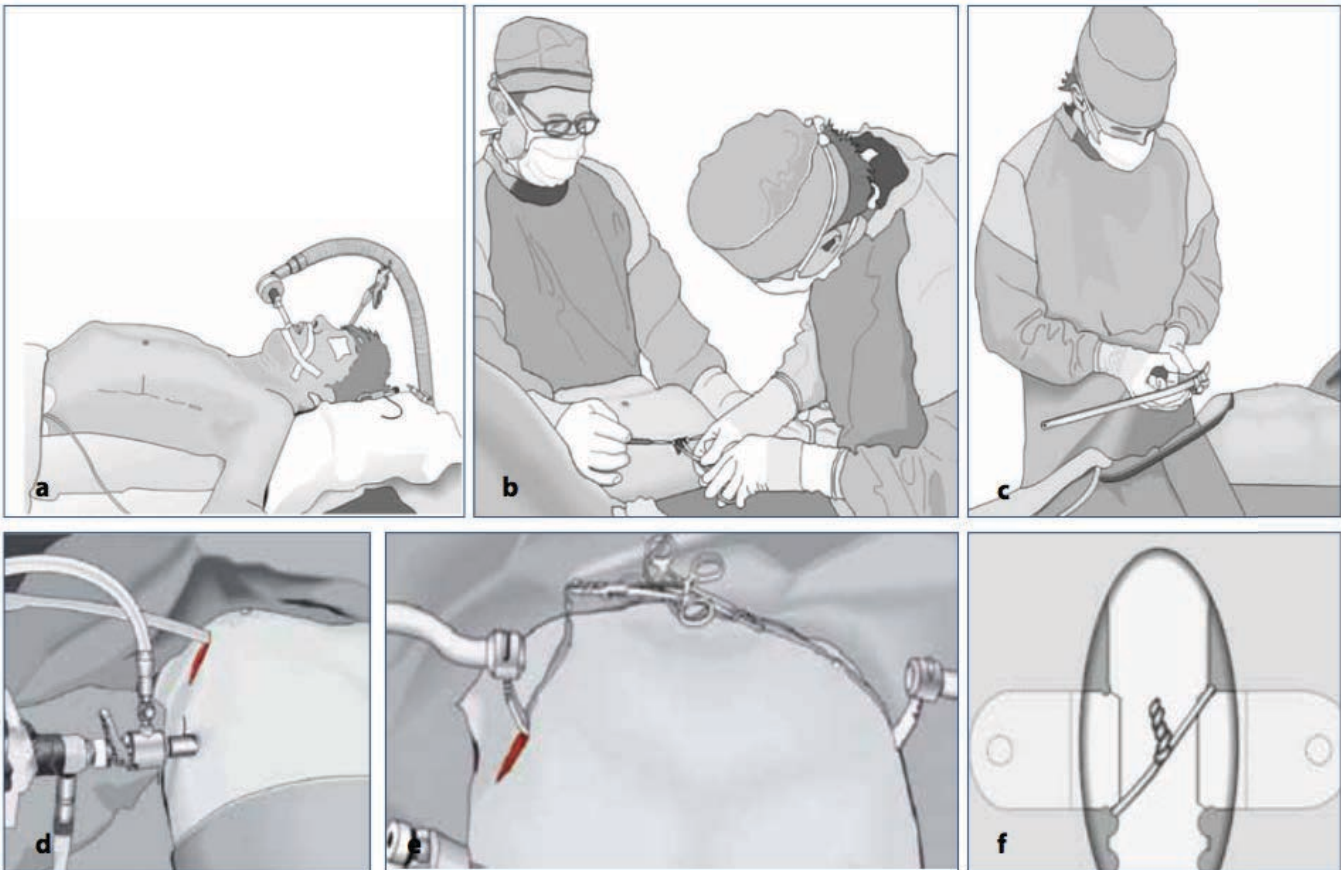


Figure 6 :

Schémas de la technique de Nuss.

a) Incision sur la ligne axillaire moyenne ; b) Création d'un espace pour le passage de la barre rétro-sternale ; c) Modification des angulations distales de la barre, adaptée à la morphologie du patient ; d) Passage de la barre sous contrôle thoracoscopique ; e) Rotation de la barre ; f) Type de fixation des stabilisateurs latéraux.

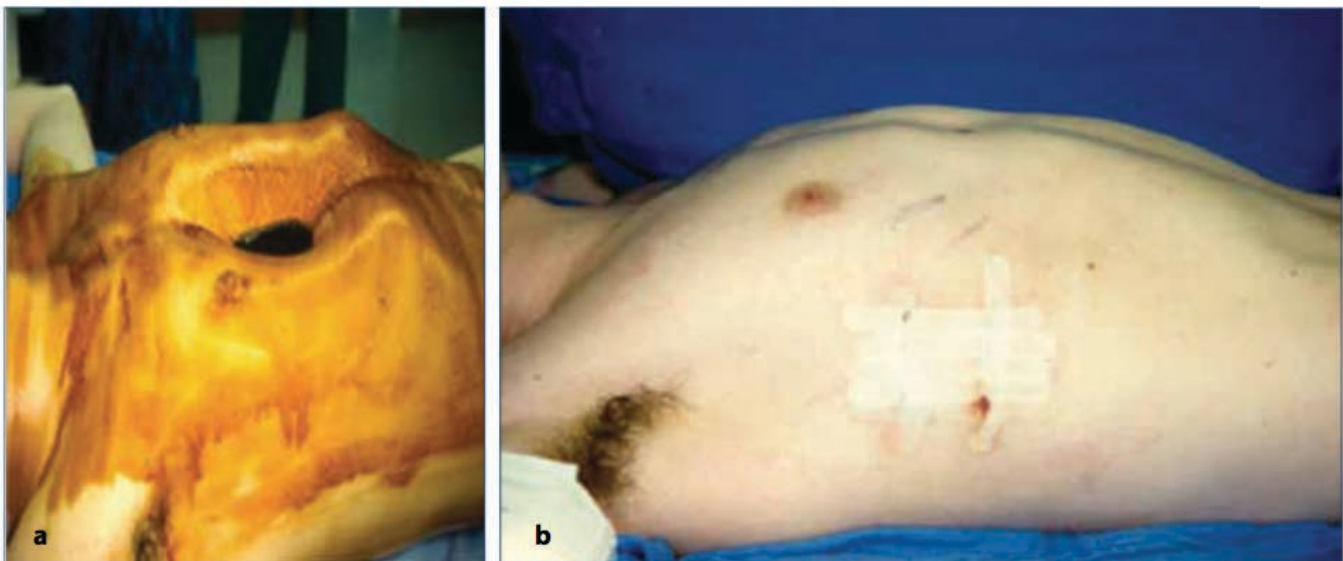


Figure n° 7 :

Aspect avant (a) et après intervention (b) d'un pectus excavatum traité selon la technique de Nuss.

La barre est préformée selon la morphologie du thorax, juste avant sa mise en place, chez un patient installé en décubitus dorsal bras en abduction à 90°. Deux cicatrices de quatre à six centimètres sont réalisées sur chaque ligne axillaire. Un espace pré-péricardique est créé sous thoracoscopie. Un lacs en tissu est fixé à l'extrémité d'un « sabre » appartenant à l'ancillaire dédié, qui est ensuite retiré. Le lacs permet de garder le trajet rétro-sternal et de guider l'extrémité de la barre préformée à laquelle il a été fixé. Une fois passée, le chirurgien effectue une rotation de la barre de 180° et elle est ensuite fixée aux côtes par deux stabilisateurs. Elle restera en place pendant trois ans puis sera retirée sous anesthésie générale en ambulatoire.

Sternochondroplastie selon Ravitch

Cette technique est valable pour le PE, le PC ou les formes hybrides. A la face antérieure du thorax, l'incision est réalisée dans la zone bi sous-mammaire passant par le point majeur de la déformation et mesure approximativement entre 12 et 18cm. Chez les hommes, elle peut être verticale et centrée sur le sternum déformé et dans le repli du sein pour les femmes (**Figure 8**). Après incision de la gaine antérieure au niveau de la jonction entre le muscle grand pectoral et les muscles droits de l'abdomen, le plastron chondrosternal déformé est abordé directement en désinsérant les muscles pectoraux. Le décollement sous-cutané doit permettre l'exposition jusqu'au premier cartilage déformé, correspondant souvent à la troisième côte. À la partie inférieure, il s'agit d'ouvrir horizontalement la gaine antérieure des droits, au ras de l'appendice xiphoïde.

La résection sous-périchondrale des cartilages, de la troisième à la sixième côte, doit être complète. Elle est partielle pour les cartilages communs, sur quelques centimètres, afin de permettre leur réinsertion en regard de la xiphoïde. La conservation des étuis de périchondre permet, à terme, de générer des cartilages ossifiés. La dissection est effectuée à l'aide d'une rugine qui sépare le périchondre du cartilage sous-jacent. Le cartilage pathologique est réséqué permettant une médialisation des 2 hémithorax, au fur et à mesure de la procédure.

Il s'agit ensuite de régulariser le sternum dans sa dimension cranio-caudale. A ce stade il est toujours maintenu, en haut par la jonction manubrio-sternale et en bas par la xiphoïde fixée à la gaine postérieure. Une sternotomie transversale au niveau de la table externe est réalisée, avant l'inflexion vers le creux de la déformation. Celle-ci est corrigée par une fracture en bois vert au niveau de la table interne.

Dans la technique initiale, le corps du sternum était relevé grâce à une dissection sous et rétroxiphoïdienne avec résection de l'appendice xiphoïde. Pour limiter cette résection, certains auteurs mettent en place une attelle métallique rétrosternale, prenant appui à la face antérieure des côtes, en regard de l'insertion inférieure des grands pectoraux [22-23]. Cette petite barre maintient le sternum en hypercorrection et est retirée par abord local 6 à 12 mois après l'intervention. Quant à la saillie des auvents costaux, elle peut être corrigée par chondrectomie partielle du cartilage commun avant leur réinsertion en regard de la xiphoïde.



Figure 8 :

Aspect pré-opératoire (a), post-opératoire immédiat (b) et à distance (c) d'une intervention selon Ravitch

En cas de rotation sternale, des ostéotomies longitudinales peuvent être réalisées, renforcées si nécessaires par des attelles vissées ou des plaques, parfois résorbables (Lactosorb®, W. Lorenz Surgical, FL, USA). Les étuis de péricondre sont fermés par surjet continu de fil résorbable, n°0 ou 1, fixé au sternum. La gaine antérieure est fixée à la partie inférieure du sternum, puis les grands pectoraux sont suturés au niveau de leur zone d'insertion parasternale avant de les fixer aux muscles droits. En fin d'intervention un drainage est laissé au niveau de la zone de décollement. Une simple hyperventilation en fin de procédure permet d'éviter le drainage pleural.

Pectus Carinatum

Traitement non opératoire

Système de compression dynamique (SCD)

Récemment plusieurs auteurs ont proposé une alternative non opératoire basée sur l'élasticité du thorax chez l'enfant qui peut être remodelée par des systèmes de compression externe jusqu'à la puberté et même chez l'adulte jeune. Ce traitement non invasif permet de prendre en charge cette malformation plus tôt et d'éviter une probable intervention chirurgicale.

Le SCD est un harnais en aluminium, adapté à la saillie sternale et assemblé à l'aide de plusieurs segments afin d'obtenir une bande rigide entourant le thorax à la hauteur de la déformation. Une plaque de compression est attachée sur le segment antérieur au niveau de la déformation. Une compression antéro-postérieure est maintenue en continue sur la déformation permettant un remodelage progressif du thorax jusqu'à l'obtention d'une configuration normale (**Figure 9**).

La pression initiale de correction (PIC) permet de définir les critères d'inclusion et d'exclusion d'utilisation du SCD. Elle est définie lors de la première consultation ; le dispositif de mesure spécialement conçu est appliqué sur la déformation et une compression externe est réalisée jusqu'à l'obtention d'un thorax en position normal (**Figure 10**). La mesure de la PIC est estimée lorsque le thorax devient normal, et exprimée en livres par pouce carré (PSI) ; le SCD est alors modelé et assemblé en fonction des mesures réalisées en consultation et de la PIC. Il est conçu de manière à permettre l'expansion latérale du thorax, indispensable à la correction du PC.

La pression donnée lors de la pose est différente de la PIC. La pression de traitement (PT) est la pression durant la phase active du traitement et estimée entre 2.5 et 3 PSI chez tous les patients afin d'éviter les risques cutanés et d'inconfort.

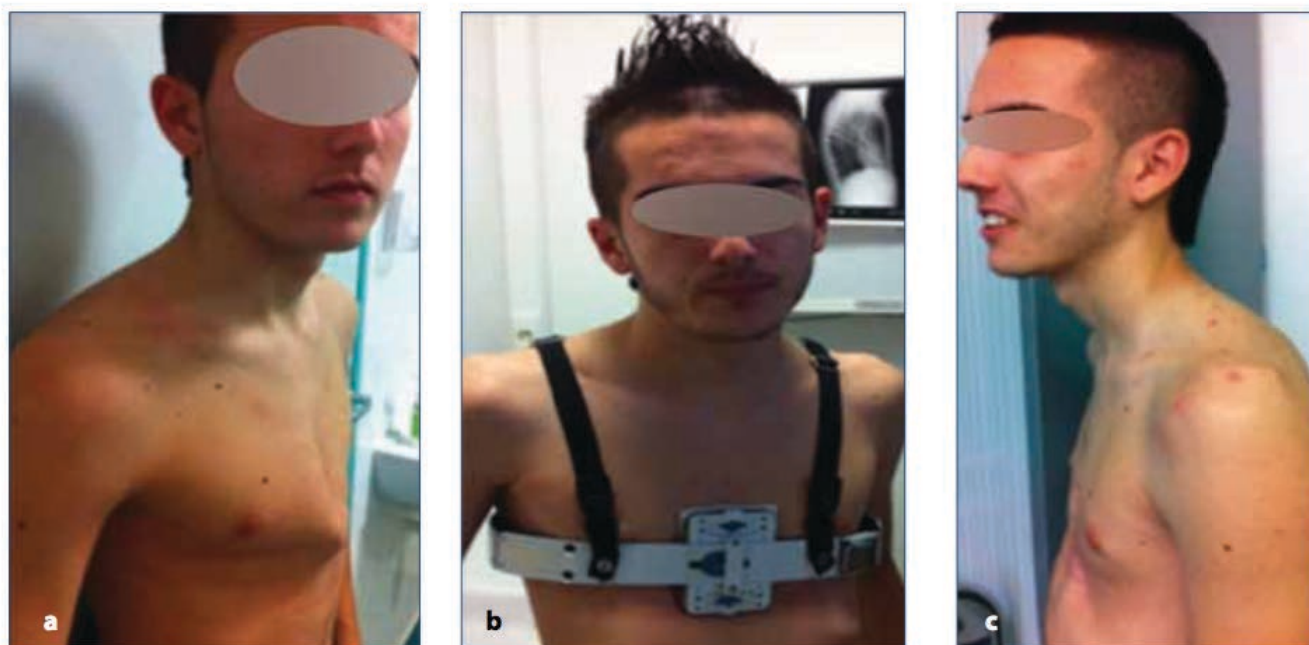


Figure 9 :

Pectus carinatum avant (a), pendant (b) et après traitement (c) par Système de Compression Dynamique (SCD).

**Figure 10 :**

Mesure la pression initiale de traitement en consultation

On demande au patient de le porter toutes les nuits et autant que possible pendant la journée. Il est autorisé à le retirer pendant les activités sportives et la douche. Tous les mois, on réalise un contrôle de la pression de manière à corriger la pression de traitement qui a tendance à diminuer au fur et à mesure de la correction; le corset est à nouveau modelé pour permettre de réinitialiser la PT. L'association kinésithérapie, activités sportives et SCD permettra une optimisation du résultat.

Traitement chirurgical

Technique d'Abramson

Cette technique minimale invasive de correction du PC fût inspirée par la technique de Nuss, créée pour la correction du PE. Toutefois, cette procédure a des différences importantes : l'abord est entièrement extra-thoracique et la position de la barre est pré-sternale donc la thoracoscopie est inutile. La nature extra thoracique de la procédure permet de diminuer les risques de complications per-opératoires. Dans les formes asymétriques, la technique d'Abramson est envisageable et permet une bonne correction. La compression sur le sternum et sur la région des jonctions chondrosternales est transférée à travers les arcs costaux à un point fixe au niveau de l'épine dorsale vertébrale.

La technique d'Abramson consiste à réaliser deux incisions latérales à hauteur de la déformation. Les côtes supérieures et inférieures sont choisies à cette hauteur

pour le placement des plaques de fixation; une ouverture est faite dans le périoste des côtes sélectionnées; la dissection sous-périostée des arcs costaux est effectuée avec précaution pour éviter l'ouverture de la plèvre pariétale. Les plaques de fixation sont positionnées de chaque côté par des fils péri-costaux en acier. Ensuite, la longueur de la barre est sélectionnée en mesurant la distance entre les deux zones latérales où les plaques de fixation sont fixées, après compression et jusqu'à correction de la déformation. La barre est modelée en une configuration convexe pour l'adapter à la paroi thoracique et elle est ensuite passée sous le plan musculaire d'un côté à l'autre, en étant totalement extra-thoracique. Une fois la barre en place, le sternum est comprimé manuellement jusqu'à obtention de la correction désirée, c'est-à-dire en position normale. Les vis sont serrées pour fixer la barre de compression. Des massages fréquents sur la barre sont recommandés afin d'éviter les adhérences à la peau. L'implant est retiré après une période d'au moins 24 mois. Les avantages de cette méthode sont l'absence d'incision dans la région thoracique antérieure, évitant ainsi les éventuelles cicatrices chéloïdes, un temps opératoire court, une perte de sang minimale, une hospitalisation courte, et un retour à l'activité plus rapide. Enfin, la technique d'Abramson permet de traiter le PC sans perdre l'élasticité de la cage thoracique contrairement à une technique de type Ravitch.

Indications et Résultats

Pectus excavatum

Le traitement non opératoire, type Vacuum Bell[®], peut être proposé à tous les patients porteur d'un PE lorsqu'il existe une ascension du thorax lors du test réalisé en consultation (cf traitement). Dans la série de Haecker, sur 133 patients ayant utilisé le Vacuum Bell[®] trois fois par jour pendant 30 minutes et pour certains toute la nuit, seulement 13,5% avaient un thorax normal à 18 mois, mais les patients étaient âgés de 3 à 61 ans avec une majorité d'adultes et de thorax rigides. Le suivi à 5 ans ne montrait pas de récurrence [24]. Dans notre série en cours, sur 64 patients âgés de 3 à 40 ans (moyenne 16 ans), avec une profondeur de PE moyenne de 23 mm (9-44) ; 20 patients ont un retour du thorax en position normale à 10 mois en moyenne. A ce jour, les autres patients sont toujours en traitement actif avec une réduction de profondeur du PE avérée.

En cas d'échec ou d'abandon du traitement non opératoire, l'intervention de Nuss peut être proposée ; mais il existe d'autres indications à cette intervention : PE symptomatique, aggravation rapide de la déformation, signes de compression cardiaque (cavités droites, veines caves, artère pulmonaire), caractère restrictif de

l'épreuve fonctionnelle respiratoire, insuffisance cardiaque, index de Haller supérieur à 3,7 ou encore gêne esthétique importante et demande d'un résultat rapide [25]. Avec cette technique, le pourcentage de succès est élevé, de 95,8% [8].

La technique de Ravitch reste la méthode de choix pour traiter les PE rigides et complexes ou quand un geste cardiaque associé est nécessaire ou encore en cas de sternum déjà opéré, de refus du patient d'un traitement mini-invasif [27]. Mais il existe des risques de traitement incomplet, de récurrence, de compression cardio-pulmonaire progressive ou encore de cicatrices inesthétiques [28]. Pour limiter les échecs esthétiques, il convient d'employer cette technique après la puberté, tant pour minimiser les rechutes que pour respecter la morphologie mammaire féminine.

Pectus carinatum (Figure 11)

Pour les PC, selon les séries le traitement par SCD est recommandé lorsque la PIC est inférieure à 7,5 ou 9. Dans la série de Martinez-Ferro, 112 patients ont eu un traitement complet avec 88,4% de bons, de très bons ou d'excellents résultats [26]. Pour cet auteur, le SCD permet d'éviter les risques chirurgicaux et anesthésiques, les cicatrices, l'hospitalisation et le coût est nettement

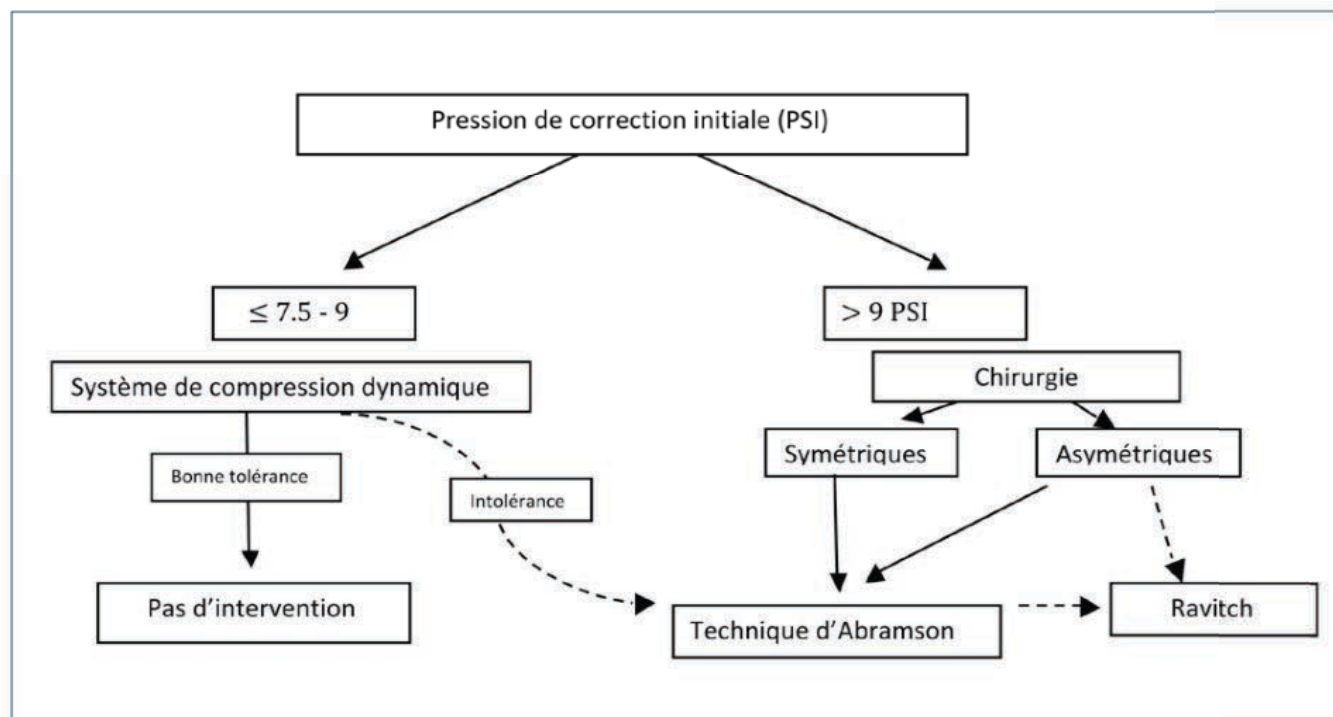


Figure 11 :

Algorithme de traitement du pectus carinatum en fonction de la pression de correction initiale.

moins que celui d'un traitement chirurgical. Dans notre série, chez 61 patients âgés de 5 à 25 ans, l'indication du SCD a été posée pour toute PIC ≤ 9 . Les résultats retrouvés un retour du thorax en position normale chez 100% des patients présentant un PC symétrique ou asymétrique [29]. En cas de PIC > 9 , l'intervention d'Abramson est indiquée et parmi les 40 patients traités par cet auteur, 20 ont eu une ablation de la barre avec 14 excellents à bons résultats et 6 de moyen à faible [30].

Conclusion

Le diagnostic des PE et PC est en général simple, mais il faut être vigilant car de nombreux syndromes peuvent être découverts à cette occasion et modifier la prise en charge. L'examen tomodensitométrique permet au mieux d'apprécier la malformation, de définir les critères de gravité et d'éliminer une pathologie causale.

Le traitement fait de plus en plus souvent appel à des techniques non-invasives mais les techniques chirurgicales restent encore indiquées dans les formes fixées ou complexes.

Les PE et PC nécessitent une approche pluridisciplinaire pour une bonne prise en charge diagnostique et thérapeutique.

Preliminary study of efficacy of depressor system in the correction of typical Pectus Excavatum

Manuel LOPEZ ^{a,b,d}, Arnaud PATOIR ^{a,c}, Frederic COSTES ^d, François VARLET ^{b,d},
Jean-Claude BARTHELEMY ^d, Olivier TIFFET ^{a,c,d}

^a Unit of Chest Wall Deformities Children and Adults.

^b Department of Pediatric Surgery & Urology.

^c Department of General and Thoracic Surgery.

^d Department of Physiology Clinical of Exercise.

**University Hospital of Saint Etienne, Faculty of Medicine Jacques Lisfranc,
PRES Lyon 42023, Jean Monnet University,
Saint-Etienne, France.**

Corresponding author:

Manuel LOPEZ

manuel.lopez@chu-st-etienne.fr

Unit of Chest Wall Deformities Children & Adults

Department of Pediatric Surgery & Urology

University Hospital of Saint Etienne,

42055 Saint Etienne-Cedex, France

Abstract

OBJECTIVE: This preliminary study evaluates, by qualitative score the efficacy of the depressor system (cup suction) in the correction of Pectus Excavatum (PE), and defines the place of this system as a strategic treatment and as an alternative to surgery.

MATERIALS AND METHODS: Between October 2011 and June 2014, a total of 84 patients (pediatrics and adults) presenting PE were treated by depressor system (cup suction), in our Chest Wall Deformities Unit. The criteria for including subjects were: patients with typical PE and with at least partial correction during the first application of cup suction and a maximal de-pressure for correction of less than 300mbar (mill-bars). 11 patients were excluded for the purpose of the present study as they presented a complex Carinatum/Excavatum. The remaining 73 patients were divided into two groups: Group I, Adult patients ≥ 18 year old, consisting of 17 patients, the mean age was 22.8 years old. Group II, Pediatric patients <18 years old, consisting in 56 patients, the mean age was 11,5 years old. Medical photos documentation was done systematically. In addition, the depth of PE was measured. The management protocol included: adjustment of cup suction at the first consultation; strengthening exercises; and every two or three months clinical follow-up. The evaluation criteria during and on the completion of the trial were: depth of the PE, morbidity and compliance of the treatment. Partial and final results were evaluated a double-blinded by the patients, parents, and doctor, using a subjective qualitative scoring scale.

RESULTS: A total of 73 patients presenting with typical PE were treated by cup suction and included: symmetric PE in 52 cases and asymmetric PE in 21 cases. The mean depth of PE was 23 mm (9-44). Of the 73 patients, one patient (adult) abandoned treatment and three patients (pediatrics) were lost to follow-up.

The mean utilization time was 4hs daily. At six months of treatment, the mean depth of PE was 9mm (0-30) in all patients. 23 patients exhibiting flattening of the sternum, and were considered to have excellent aesthetic result. The mean treatment duration until normal shape was achieved was 10 months (4-21). The others patients are improving under active treatment. The mean depth of PE in this group was 12mm (4-30), after mean treatment duration of 9 months (2-22).

CONCLUSIONS: treatment using cup suction is a promise useful as alternative in select cases of symmetric and asymmetric PE, providing that the thorax is flexible. Treatment duration are directly linked to age, severity and the frequency of use. It is becoming a well-recognized therapy, which improves the self-image of those patients whose anterior chest wall is still compliant. Thus, the cup suction can be used for pediatrics and young adults waiting for a treatment, possibly surgery. However, the long-term effect of this procedure remains unclear.

KEYWORDS: Pectus Excavatum • Cup suction • Non-operative treatment

Introduction

Pectus Excavatum (PE), or sunken chest, is the most common congenital chest wall defect. It is characterized by a posterior depression of the sternum [1]. This defect may be associated with altered cardiac and respiratory function resulting in the decreased ability of the patients to perform vigorous cardiovascular activities relative to their peers. A secondary effect of this deformity is the socially limiting psychological stress it can cause [2]. Surgical correction remains the definitive management of PE, and multiple techniques for repair have been described. Since introduction by Nuss [3] in 1998 the minimally invasive technique for the correction of Pectus Excavatum (PE) is being performed worldwide with ever increasing frequency. As a result, growing numbers of patients have been requesting operative treatment, and there has been a corresponding rise in the number of PE consequently, an increase of the number of PE repairs. While it is the most widely used procedure, it is not free of complications [4], it is also worth noting that very severe PE may even threaten the patient's life and some patients are reluctant to undergo surgery because of the pain associated with postoperative recovery and the risk of imperfect results [5-8].

Traditionally, the decision to operate was based largely on the severity of the PE deformity as noted on physical examination and the PE severity index, as well as the severity of symptoms, and, as a result, many patients have been left with an untreated, mild –to- moderate deformity [9] given that, in many cases, the degree of the deformity does not immediately warrant surgery. For these cases, minimal innovative methods have been proposed using gradual correction through by minimal force applied over long period; for example, the use of magnetic minimover procedure. This procedure is not recommended in older patients, however long-term follow-up is needed [10].

The concept of non-operative treatment in PE through the application of cup suction as depressor device was described in the last century [11], but it has been in the present century that several reports have claimed favorable results in selected patients suffering from PE [12-14]. The concept of this depressor device is based on the fact that the chest wall is still compliant during puberty and allows the reshaping of the sternum and costal ribs into the normal position by external depressor applied over the deformity. Conservative treatment of PE has made this alternative therapy a focus of interest of patients. Cup suction used to create a vacuum at the chest wall. Using a hand pump, the patient creates the vacuum by using suction to produce negative pressure. Different sizes exist allowing selection according to the type of deformity and the ages of the patients. The device has the effect of lifting both the sternum and ribs immediately. Vacuum through cup suction, was developed by E. Klobe, an engineer who was himself suffering from PE, and who wished to find, for himself, an alternative to surgery [5]. Contraindications of the method comprise skeletal disorders such as osteogenesis imperfecta, vasculopathies, coagulopathies and cardiac disorders. Possible side effects include subcutaneous hematoma and petechial bleeding. This preliminary study evaluates, by qualitative score the efficacy of the depressor system (cup suction) in the correction of PE, and clarifies the place of this system in strategic treatment as an alternative to surgery.

Materials and Methods

Between October 2011 and June 2014, a preliminary study was carried out in our Chest Wall Deformities Unit, after obtaining IRB approval for all patients. A total of 84 patients (pediatrics and adults) presenting PE were treated by depressor system (cup suction), in our Chest Wall Deformities Unit. The criteria for including subjects were: patients with typical PE and with at least partial correction during the first use of Cup suction and a maximal de-pressure for correction of less 300mbar (mill-bars). Partial correction is a qualitative evaluation, defined as reduction of deepest point of the deformity during first used of cup suction and maximal de-pressure of correction of less 300mbar (mill-bar). Eleven patients were excluded from the study as they presented a complex Carinatum/Excavatum treated by cup suction for PE and by the Dynamic Compressor System for the PC, to date with very good results. During the PE deformity physical evaluation, 9 patients (12,3 %), a scoliosis was found and one patient had history of omphalocele, and all patients presented postural abnormality.

The remaining 73 patients were divided into two groups:

Group I, Adult patients ≥ 18 year old, consisting of 17 patients (15 males and 2 females), the mean age was 22.8 years old (18-40). There were 13 symmetric deformities and 4 asymmetric deformities. Group II, Pediatric patients <18 years old, consisting in 56 patients (37 males and 19 females), the mean age was 11,5 years old (3-17). There were 39 symmetric deformities and 17 asymmetric deformities.

At the first consultation, typical PE is defined, in symmetric or asymmetric forms. The type of PE is defined in: grand canyon, saucer and bowl and the presence or not of costal flaring. The depth of PE was measured. The size of cup suction was chosen and the test was done with a maximal depressor levels of lest 300mbar. During test, if complete or partial correction is obtained, cup suction will be the first line of the treatment. A CT scan before starting the procedure was not routinely performed in very young patients, and was reserved specifically for the most severe cases. Pulmonary function tests, cardiac and spinal evaluation were used in most of the cases. Medical photos documentation was done systematically. At the same time, all patients were instructed by our physiotherapist to do appropriate exercises and physical activities in order to optimize the results.

The management protocol included: adjustment of cup suction, and an on-going evaluation of tolerance and risk of skin lesions. During the first week, the system was to be used 3 times a day for 45-60 min each time. After this period, all patients were instructed to increase the used and wear the system overnight and, as soon as possible, all through the day. Patients were to be checked every two or three months until complete correction was achieved.

The evaluation criteria were: depth of the PE, morbidity and compliance of the treatment. Partial and final results were evaluated a double-blinded by the patients, by their parents and doctor, using a subjective qualitative scoring scale that was measured in a three-step grading system, where C is a low or very low result, B is acceptable and A is a very good or excellent result.

Results

A total of 73 patients (52 males and 21 females) presenting with typical PE were treated by cup suction; these included: symmetric PE in 52 (71%) cases and asymmetric PE in 21 (29%) cases. The type of PE was: 31 cases (42 %) localized bowl, 22 cases (30 %), diffuse saucer, and 20 cases (27%) Grand Canyon. The mean age was 16 years old (3–40). The mean depth of PE was 23 mm (9-44).

Of the 73 patients, one patient (adult) abandoned treatment Owing to the unsatisfactory outcome, invasive surgery. Three patients (pediatrics) were lost to follow-up, one of them reported skin intolerance s the cause of non compliance.

The mean utilization time was 4hs daily. A CT Scan was performed only in severe cases, and the mean Haller Index was 4,5 in 29 cases (3.2-10). At six months, all patients were showing improvement under active treatment, with the mean depth of PE was 9mm (0-30), with some associated costal flaring was in 21(28,7%) cases. The patients were divided in two groups: Adults patients group I and Pediatric patients group II.

Group I, the mean depth PE before of the treatment was 25mm (9-45). At six months of treatment, the mean depth PE was 17mm (0-30) with the mean observance (h/day) was 3h/day (1-12).

Group II, The mean depth PE before of the treatment was 22 mm (10-38). At 11 months of treatment, the mean depth was 7mm (0-22); and the mean observance was 4h/day (1-12).

Twenty-three of the patients (31,5%) exhibit flattening of the sternum, at the end of the treatment, and who subsequently wore the cup suction as a retainer for an additional six months. Were: 2 in the group I (11,7%), and 21 in the group II (37,5%). The mean age of theses patients was 12 years old (5-32). There were 18 symmetric deformities and 5 asymmetric deformities. The mean duration of their treatment until normal shape was achieved was 10 months (4-21). At the end of the treatment, both patients and parents considered the aesthetic result to be excellent.

All patients were progressed and improved under active treatment. The mean depth PE was 12mm (4-30), after mean treatment duration of 9 months (2-22). Both patients and parents are very satisfied with the initial results. In those with satisfactory results, minor's side effects such as petechial bleeding were reported. None majors relevant side effects were found.

At follow-up, all pediatric and adult patients were satisfied and expressed their motivation to continue the application. None patients suffered a PE relapse after discontinuation of the cup suction.

Discussion

The Nuss procedure for PE introduced a paradigm shift by demonstrating that thoracic wall is a very elastic and compliant structure in children [15]. In light of this concept, non-operative treatment with the use of cup suction was proposed.

The first description of the use of cup suction for the correction of PE was reported in the last century [11]. At that time, the cup was manufactured in crystal material, and on being anchored into the thoracic wall they produced cutting injuries. Therefore this method was abandoned.

The first description, in the English literature for correction of PE by depressor system was reported by Schier in 2005 [12]. He treated 60 patients, with the mean age of 15 years. After 5 months of treatment, 20% of them showed flattening of the sternum. Most of patients were satisfied with these partial results. Additionally, cup suction was useful during Nuss procedure, and allowed to enlarge the retrosternal space for safer passage of the introducer. Subsequently, some reports have described favorable results [12]. The cup suction is now used by an increasing number of patients, mostly suffering from PE, which is not serious enough to warrant surgery, yet sufficiently marked to induce psychological complications. Other patients had previously consented to surgery, but preferred to try a nonsurgical method first. However, the long-term effect of this procedure remains unclear.

The largest series was reported in 2011 by Haecker [14], which consisted in 133 patients, the mean age was 16.2 years. Flattening of the sternum was observed in 79%, 10% of them having stopped the treatment.

The cup suction system is becoming a well-recognized therapy, an effective non-operative treatment for PE in select cases, and it is the treatment of choice for patients, particularly in the case of very young patients with mild to moderate defect where surgical correction could be excessive or where the option of surgery is rejected, as a result of which there is a notable improvement in both the objective depression and in appearance in the patient judgment.

Partial or complete correction during the initial test of cup suction with a maximal depressor for correction of less than 300mbar helps to establish the criteria for inclusion. The duration of treatment is related to the age of the patient, and severity of PE. In our series 23 patients who exhibit flattening of the deformity, 37.5% of them were pediatric and 11.7% were adult's patients. Frequent use of the system reduced the treatment duration and improves the results.

Our feeling is that good results and in some cases excellent correction can be obtained, but only with optimal use ≥ 4 hours per day.

With the exception of one, the patients, in this trial were satisfied with the use of the cup suction, although objectively assessed improvement of PE varied among the individuals. It would seem, therefore, that cup suction depressor in patients with asymmetric PE is more difficult to keep in place. In these cases, the cup suction needs to make improvements. However, not significant difference of treatment duration to reshape the chest was found between symmetric and asymmetric deformities.

In conclusion, treatment using cup suction is a promise useful as alternative in select cases of symmetric and asymmetric PE, providing that the thorax is flexible. Treatment duration are directly linked to age, severity and the frequency of use. It is becoming a well-recognized therapy, which improves the self-image of those patients whose anterior chest wall is still compliant. The cup suction can be used for infants and young adults waiting for a treatment, possibly surgery. However, the long-term effect of this procedure remains unclear.

References

- 1- R.C. Shamberger. Congenital chest wall deformities. J.A. O'Neill Jr, M.I. Rowe, J.L. Grosfeld, E.W. Fonkalsrud, A.G. Coran (Eds.), *Pediatric surgery* (5th ed.), Mosby, St Louis (Mo). 1998; 894–921.
- 2- R.E. Kelly, T.F. Cash, R.C. Shamberger, *et al.* Surgical repair of pectus excavatum markedly improves body image and perceived ability for physical activity: multicenter study. *Pediatrics*, 2008 ;122: 1218–22
- 3- Nuss D, Kelly RE Jr., Croitoru DP, Katz ME. A 10-year review of a minimally invasive technique for the correction of pectus excavatum. *J Pediatr Surg* 1998;33: 545-52.
- 4- Park HJ, Lee SY, Lee CS. Complications Associated with the Nuss Procedure: Analysis of Risk Factors and Suggested Measures for Prevention of Complications. *J Pediatr Surg* 2004; 39:391-5.
- 5- Nuss D, Kelly RE Jr., Croitoru DP, Swoveland B. Repair of Pectus excavatum. *Ped Endosurg & Innovative Tech* 1998;2: 205-21.
- 6- Croitoru DP, Kelly RE Jr., Goretsky MJ, Lawson ML, Swoveland B, Nuss D. Experience and modification update for the minimally invasive Nuss technique for pectus excavatum repair in 303 patients. *J Pediatr Surg* 2002 ;37:437-45
- 7- Becmeur F, Gomes C., Haecker F, MD, Schneider A, Lacreuse I., Pectus Excavatum Repair According to Nuss: Is It Safe to Place a retrosternal bar by a transpleural approach, under thoracoscopic vision. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A* 2011; 21: 757-61.
- 8- Park H. Minimally invasive surgery for pectus excavatum: Park technique. *J Clin Anal Med* 2011;2:84-90
- 9- Repair of pectus excavatum and carinatum deformities in 116 adults. *Ann Surg* 2002; 236: 304-12.
- 10- Harrison M.R, Estefan-Ventura D, Fechter R, Moran AM Jr, Christensen D, Magnetic Mini-Mover Procedure for pectus excavatum: Development, design, and simulations for feasibility and safety. *J Pediatr Surg*, 2007; 42: 81-5
- 11- Lange F. Thoraxdeformaten. In: Pfaundler M, Schlossmann A, editors. *Handbuch der Kinderheilkunde*, vol. V. Chirurgie und Orthopädie im Kindesalter. Leipzig: FCW Vogel; 1910; 157
- 12- Schier F, Bahr M, Klobe E. The vacuum chest wall lifter: an innovative, nonsurgical addition to the management of pectus excavatum. *J Pediatr surg* 2005; 40:496-500.
- 13- Haecker FM, Mayr J. The vacuum bell for treatment of Pectus Excavatum: an alternative to surgical correction? *Eur J Cardiothorac Surg* 2006;29:557-61
- 14- Haecker FM. The Vacuum bell for conservative treatment of Pectus Excavatum: The Basle experience. *Pediatr Surg Int* 2011; 27:623-7
- 15- Nuss D, Kelly RE Jr., Croitoru DP, *et al.* A 10-year review of a minimally invasive technique for the correction of Pectus Excavatum. *J Pediatr Surg* 1998;33:545-52

Table 1: Patients Characteristics

| | G I (Adults) | G II (Pediatric) |
|---|--|--|
| Patients | 17 | 56 |
| Symmetric PE (45) | 13 | 39 |
| Asymmetric PE (19) | 4 | 17 |
| Mean depth before treatment (mm) | 25 (9-45) | 22 (10-38) |
| Mean depth during treatment (mm) | 15 (0-30) | 9 (0-25) |
| At mean time of treatment (months) | 9 (2-22) | 10 (2-21) |
| Mean depth at 6 (G I) & 11 (G II) months of treatment (mm) | 17 (0-30) | 7 (0-22) |
| Mean observance (H/day) | 3 (1-12) | 4 (1-12) |
| Flattening of the PE-end treatment (23) | 2 | 21 |
| Partial & final results | A, patients and parents are very satisfied | A, patients and parents are very satisfied |

Fig 1. Same patient with a symmetric PE, Before treatment (A). During the treatment (B-C). Picture taken 1 year post-termination of treatment (D).



Fig 2. Same patient with a Asymmetric PE with the depth of PE of 27mm, Before treatment (A). Picture taken 1 year post-termination of treatment (B).



Fig 3. Severe PE-19 years-old, with abnormal cardiopummonary function(A-B). CT scan (C) the depth of PE was 45mm Before treatment. After six months under active treatment the depth of PE was 15mm (D-E), the mean time of use per day was 8hs. Patient and parents are very happy with partial results.

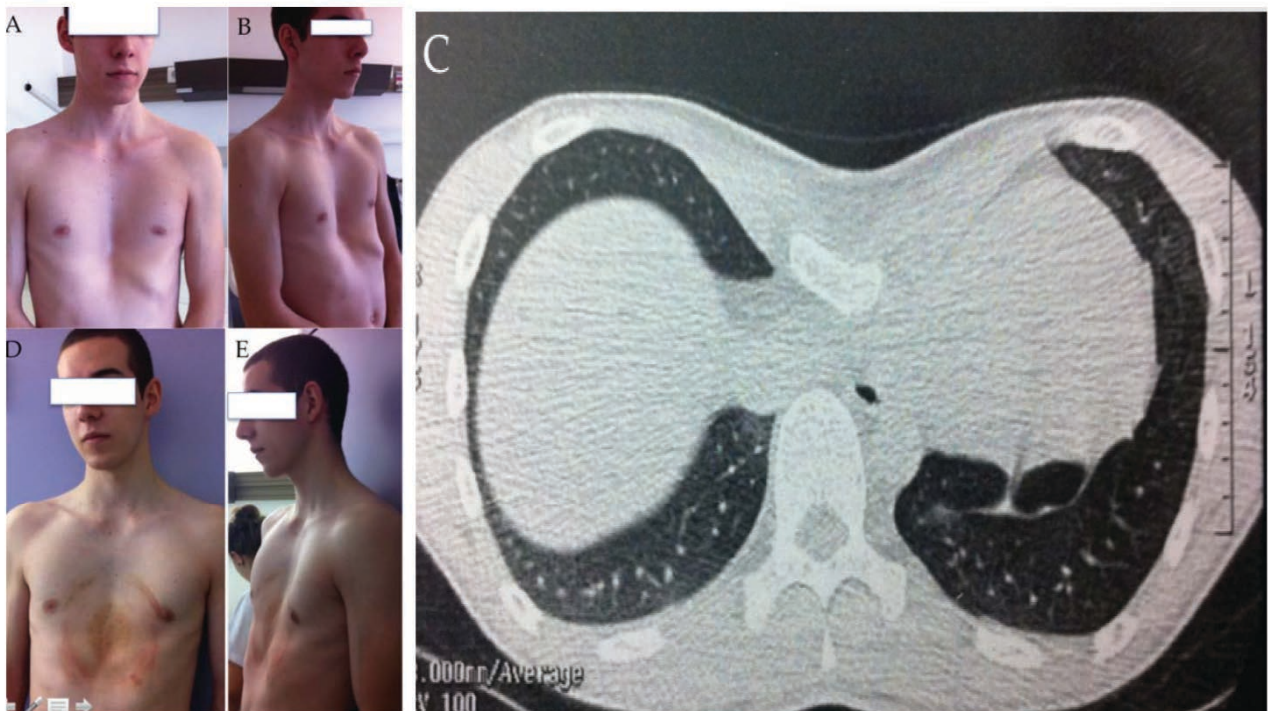
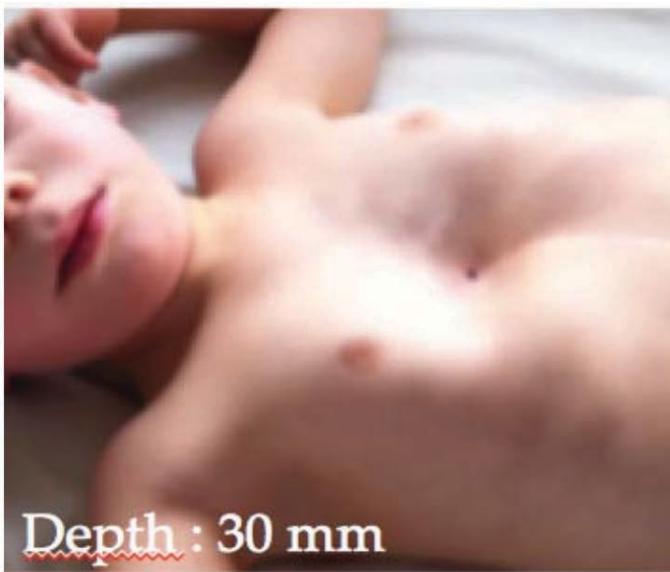


Fig 4. Same patient with history of omphalocele, depth of PE 30mm. 6 months, under active treatment, depth of PE 20mm, with favorable partial results A. Mean use per day was 1h



Commentaires des articles

Ces deux études préliminaires confirment que pour traiter le PC, le DCS avec mesure la pression de la déformation est peu invasif et est une alternative non-opératoire efficace. Il améliore l'image de soi chez les patients dont la paroi thoracique antérieure est encore souple. La mesure des différentes pressions permet d'évaluer les critères d'inclusion ainsi qu'un facteur prédictif des résultats esthétiques et de la durée du traitement. Dans les déformations asymétriques, la durée du traitement est plus longue que les formes symétriques.

Dans le PE, le traitement par système de dépression de type Vacuum Bell* est une alternative non-opératoire dans certains cas de PE symétrique et asymétrique, à condition d'une bonne souplesse du thorax. La durée du traitement est directement liée à l'âge, la sévérité et la fréquence d'utilisation. Le Vacuum Bell* devient une thérapie reconnue ; il améliore l'image de soi de ces patients dont la paroi thoracique antérieure est redevenue conforme. Il peut être utilisé pour les enfants et les jeunes adultes, soit pour traiter la déformation avec des résultats d'autant meilleurs que le traitement est commencé tôt, soit en attente d'une intervention chirurgicale. Cependant, l'effet à long terme de cette procédure reste incertain. Les PE et PC nécessitent une approche pluridisciplinaire pour une bonne prise en charge diagnostique et thérapeutique.

Ma thèse de sciences ayant pour thème “**la chirurgie mini-invasive**” est donc en totale adéquation avec cette activité non opératoire des pectus où la recherche permanente du « moins invasif possible » domine mon activité. Dans chaque axe de la Chirurgie Pédiatrique moderne où nous avons appliqué des techniques mini-invasives, voire non-invasives, nous avons pu réaliser des publications et participer à de nombreuses réunions nationales et internationales ayant permis de progresser et de partager avec les collègues du monde entier.

Nous n'avons pas attendu le passage de la Thèse pour mettre en place notre projet d'HDR dont la thématique principale est « Les malformations de la paroi thoracique ». Ce projet ne se limite pas à des objectifs purement chirurgicaux mais vise à évaluer chez tous les patients les variations des paramètres du Système Nerveux Autonome, cardiaque et respiratoire. Aucune publication n'a été réalisée à ce jour sur ce sujet alors qu'il s'agit d'une étude de tolérance indispensable à la diffusion de cette technique.

Cette recherche a lieu au sein d'un laboratoire labellisé (laboratoire EPIS- SNA - EA 4607). Des publications sont déjà en cours: 2 papiers originaux sont acceptés dont 1 sous presse. Deux articles didactiques le sont également. A côté de ces publications originales, j'ai également réalisé des publications didactiques toujours sur la même thématique de "la chirurgie mini-invasive". J'ai reçu 26 invitations à l'étranger en tant que conférencier dans des différents pays en Europe (Espagne, Italie, Danemark, Slovaquie, Pays-Bas, Russie), ainsi qu'en Asie et en Amérique du sud. J'ai également pu effectuer des démonstrations chirurgicales à 13 reprises dans différents pays.

CONCLUSION ET PERSPECTIVES

Au terme de ce travail centré sur l'évolution de la vidéo-chirurgie chez l'enfant, nous pouvons conclure qu'elle représente une excellente voie d'abord pour de nombreuses interventions et que l'amélioration de l'instrumentation, assez lente mais certaine, nous a permis d'en étendre progressivement les indications. Ainsi nous avons travaillé dans les différents domaines de la coelioscopie pédiatrique moderne avec des techniques avancées mais aussi avec l'introduction de techniques de moins en moins invasives, comme la chirurgie assistée par aimant, ou avec des techniques non opératoires, comme celle utilisée dans le traitement de certaines malformations de la paroi thoracique, en démontrant leurs bénéfices et leur efficacité. Les avantages de la chirurgie mini-invasive sont également évidents dans la littérature.

La coeliochirurgie s'avère être une excellente technique chez l'enfant et va dans le sens du progrès, dans la mesure où elle permet une meilleure "visualisation" au prix d'un abord très minime. En postopératoire elle tend à diminuer la morbidité et à améliorer le confort. Mais ce bouleversement dans les habitudes du chirurgien ne doit pas lui faire oublier que seule une très grande rigueur peut apporter une sécurité aussi grande que la chirurgie à ciel ouvert et que cette technique ne doit pas entraîner des indications abusives. Cette avancée chirurgicale est l'une des plus prometteuses dans le domaine de la chirurgie néonatale et bientôt la limite de la vidéo-chirurgie ne sera plus la faisabilité technique pour les très petits enfants, mais plutôt le bon choix des nouveau-nés qui pourront bénéficier le plus de ces techniques dans des conditions de sécurité optimale. Notre objectif est de continuer dans cette démarche et de développer les études prospectives nécessaires pour confirmer l'efficacité de la vidéo-chirurgie chez l'enfant, notamment chez le nouveau-né, et de bien identifier

les facteurs de risque. Ceci permettra de dégager des critères en fonction de chaque pathologie pour savoir quels sont les enfants pouvant bénéficier de cette approche.

Une courbe d'apprentissage est nécessaire de la part du chirurgien et ceci implique, pour la formation en laparoscopie conventionnelle, le développement des techniques de simulation afin d'accélérer cet apprentissage. Il est basé sur l'élaboration de procédures chirurgicales complètes et la validation des exercices de simulation. Très probablement, ces exercices en réalité virtuelle seront utilisés un jour pour accréditer la compétence en chirurgie mini-invasive et deviendront obligatoires. Un programme de formation structurée, à partir de modules d'apprentissage, doit être établi pour acquisition des connaissances et des gestes nécessaires à la chirurgie laparoscopique, avant évaluation. Ce n'est sans doute qu'une question de temps avant que la chirurgie assistée par robot ne soit utilisée pour la formation. Concernant la vidéochirurgie du nouveau-né, il faut développer des simulateurs adaptés aux petits enfants. Leurs particularités justifient un enseignement spécifique moderne et innovant. C'est ce que nous proposons de mettre en place.

Dans le domaine de la recherche, notamment dans les malformations de la paroi thoracique, l'évaluation physiologique avant et après traitement et le bénéfice fonctionnel obtenu sont aujourd'hui encore mal connus. Ces bénéfices fonctionnels, ventilatoires, hémodynamiques et neurologiques, dépassent probablement les bénéfices esthétiques liés à l'amélioration anatomique, mais ils n'ont jamais été évalués, raison pour laquelle nous avons entrepris en collaboration avec le laboratoire EPIS- SNA (EA 4607) d'étudier de nombreux paramètres visant à la compréhension de nos gestes thérapeutiques et à la quantification du gain de santé obtenu. Les objectifs de cette étude sont :

- Comme objectif principal, l'évaluation des effets du remodelage non opératoire de la paroi thoracique entre le diagnostic et la fin du traitement des malformations thoraciques (Pectus Excavatum, Pectus Carinatum) sur l'activité parasympathique du Système Nerveux Autonome, critère de santé global, mesuré par des méthodes non invasives.
- Et comme objectifs secondaires :
 - L'évaluation anatomique entre le bilan initial et final, par des mesures radiologique objectives (1) de la paroi thoracique par IRM 3D, (2) du rachis par scanner de type Biomod*, et (3) du cœur par échocardiographie.
 - L'évaluation physiologique non invasive au repos et à l'effort de la fonction respiratoire par exploration des débits et des volumes, de la fonction cardiaque par mesure des débits, et de la fonction globale par épreuve d'effort métabolique (VO_2 max).
 - L'évaluation subjective du gain fonctionnel entre le bilan initial et final évalué par les patients, parents et médecins, basé sur des échelles EVA.

Les retombées attendues de l'objectif principal sont d'ordre physiopathologique et thérapeutique. Ces analyses permettront de mieux comprendre les enjeux de ce traitement et éventuellement d'obtenir des échelles permettant de mesurer l'urgence des indications thérapeutiques. L'appui sur la mesure du SNA vient de sa capacité à représenter un risque cardiovasculaire global, qui serait maintenu avec l'âge en l'absence de traitement, et un risque plus immédiat qui pourrait être lié à l'aspect psychologique et à ses menaces vitales.

Tout ce programme de recherche s'intègre dans mon projet d'Habilitation à Diriger des Recherches.