

Voicing Concern: An Unusual Sequelae Of Orthognathic Surgery

Weeh Chua*, BDS, MFDS Eng, Alagappan Chidambaram**, FRCS Ed, FRCS (ORL-HNS), Peter T Doyle***, FDSRCS, FRCS MaxFac, Jonathan Sandler****, BDS Hons, MSc, FDSRCPS, MOrth RCS Eng

*Community Dental Officer Chesterfield Royal Hospital,

**Consultant Ear Nose and Throat Surgeon, Chesterfield Royal Hospital,

***Consultant Maxillofacial Surgeon, Chesterfield Royal Hospital,

****Consultant Orthodontist, Chesterfield Royal Hospital.

correspondence to:

Jonathan Sandler

Orthodontic Department

Chesterfield Royal Hospital

Calow Chesterfield S44 5BL – U.K.

JonSandler@aol.com

Introduction

Orthognathic surgery combined with orthodontic treatment is now a routine part of maxillofacial surgery practice. This does not mean however that it is without morbidity. The usual complications of which a patient is warned, include pain, swelling, decreased mouth opening, bleeding, infection and decreased nerve function involving lip/tongue/cheek, which may be permanent. Other less common complications reported¹ include deviation of the nasal septum, malunion or non-union of osteotomy fragments, significant infections such as abscesses or maxillary sinusitis and ischaemic complications. In a follow up study, radiographs of 100 patients were taken after their orthognathic surgery². Of these, 10% had evidence of surgical com-

Contact granuloma of the vocal cords is a recognised but unusual complication of prolonged endotracheal intubation. The authors have however encountered a case of contact granuloma associated with short-term intubation of just four hours following orthognathic surgery. Here we briefly describe the orthodontic case and orthognathic surgery. We further explain the presenting symptoms and treatment undertaken for the contact granuloma.

Il granuloma da contatto delle corde vocali è una rara complicanza legata ad una prolungata intubazione. Gli autori presentano un caso di granuloma da contatto associato ad una intubazione di breve durata, solo 4 ore, eseguita per un intervento di chirurgia ortognatica. Abbiamo brevemente descritto il caso ortodontico e la chirurgia ortognatica. Viene data anche una spiegazione dei sintomi e del trattamento intrapreso per la cura del granuloma.

Tradotto da Paola Poggio

biblio.

plications including fractures, temporomandibular joint dislocations, transected tooth roots, avascular necrosis and osteomyelitis.

Rare complications are by definition few and far between but it is important for the clinician to be aware of them. An example would be that of a brain abscess resulting from orthognathic surgery as reported by Baker et al.³ Lanigan et al.⁴ described ophthalmic complications following maxillary osteotomies, including a decrease in visual acuity, extraocular muscle dysfunction, neuroparalytic keratitis

and nasolacrimal problems involving both an increase or a decrease in tearing. Girotto et al.⁵ described the most extreme ophthalmic complication which was blindness. In this paper the authors report on yet another rare complication – contact granuloma of the vocal cords. Contact granuloma is a rare but recognised complication of endotracheal intubation⁶⁻⁸. Some suggested causes of contact granulomas include intubation, vocal abusers such as singers and patients with gastroesophageal reflux disease^{9,10}. Smoking¹¹, infections, al-

lergy, postnasal drip and psychosocial traits¹² have also been reported as possible contributory factors. These granulomas are notoriously difficult to cure and their occurrences continue to perplex laryngologists. Treatments include surgical excision, speech therapy, anti-reflux therapy and lifestyle modifications. There is only one report however, by Keizer et al.¹³ of this sequelae following orthognathic surgery.

Case report

Orthodontic assessment

A 40-year-old Caucasian woman presented complaining that she was unhappy with the appearance of her jaw. She had a Class III skeletal pattern with a high Frankfurt-Mandibular plane angle and maxillary hypoplasia. Her lips were moderately thick and competent with a low lip line and an average nasio-labial angle.

She was partially dentate with a moderately restored dentition. There was a Class III incisor relationship with no overbite but an overjet of -2 mm from UR1 and -3 mm from UL1. There was no incisor show on smiling. The upper arch was spaced with a midline diastema and incisors with an average inclination. The lower arch had mild crowding and retroclined incisors. There was a moderate curve of Spee. The upper midline was central but the lower midline was shifted towards the right by 3 mm. The molars on the right side were

Le granuloma de contact des cordes vocales est une complication identifiée mais peu commune de l'intubation endotrachéale prolongée. Les auteurs ont cependant rencontré une caisse de granuloma de contact liée à l'intubation à court terme de juste quatre heures suivant la chirurgie orthognathic. Ici nous décrivons brièvement le cas orthodontique et la chirurgie orthognathic. Nous expliquons plus loin les symptômes et le traitement entrepris pour le granuloma de contact.

Traduit par Maria Giacinta Paolone

El granuloma de contacto de las cuerdas vocales es una complicación reconocida pero inusual en la intubación endotraquel prolongada. Los autores sin embargo han encontrado un caso de granuloma de contacto asociada a la intubación a corto plazo de apenas cuatro horas después de la cirugía ortognatica. Aquí describimos brevemente el caso ortodóntico y la cirugía ortognatica. De igual forma después explicamos los actuales síntomas y tratamiento propuestos para el granuloma de contacto.

Traducido por Santiago Isaza Penco

Key words: Voice loss; Contact granuloma; Intubation complications.

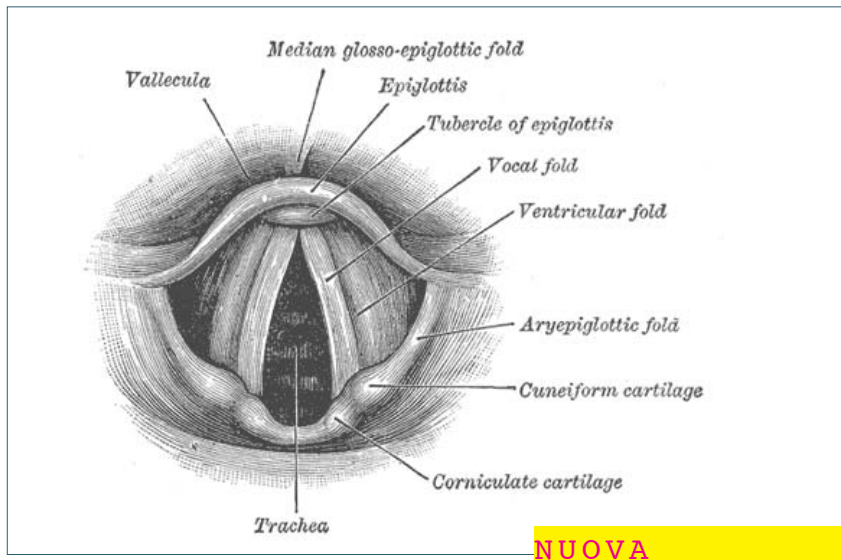


Fig. 1 Normal vocal chords.

Class II, and the molars on the left side a half unit Class III. The canines on the right were class II and on the left a half unit class III. Crossbites were present on the UR34 and UL3467.

A medical history revealed that the patient had a heart murmur.

Treatment provided

Orthodontic treatment was commenced and at the pre-orthognathic consultation, it was agreed that the patient was to have a bi-maxillary osteotomy, and the surgery was performed approximately 9 months after the start of orthodontic treatment. During the procedure, the maxilla was advanced by 3.5 mm and the mandible was moved back 1.5 mm on the right and 4.0 mm on the left with

a centreline shift of 4.0 mm to the left. It was necessary to place the patient in intermaxillary fixation as there was an unfavourable mandibular sagittal split on the left side and fixation with osteosynthesis plates alone was not possible. The patient underwent a four hour general anaesthetic.

Post operative problem

Whilst the patient was in IMF she was unusually reluctant to speak at all claiming "it was too much effort". A few weeks after the osteotomy, the patient attended for review complaining of persistence of her 'weak and croaky voice'. It was assumed at this stage that there had been some trauma to the vocal cords and the patient was reassured that this would resolve sponta-

neously. Two weeks later she returned still complaining of a 'very husky voice' which was becoming increasingly 'weak' and breathing was reported to be difficult. An immediate referral to ENT was made and she was seen on the same day.

ENT examination

On examination it was noticed that the patients voice was hoarse but with no stridor. Fibre optic laryngoscopic examination **did not reveal normal vocal cords as depicted in figure 1. Rather, there was a smooth sessile swelling arising from the medial aspect of both vocal cords posteriorly (Fig.2).** The airway anterior to the swelling was reduced but adequate. A clinical diagnosis of "contact granuloma" of both vocal cords was made

and this was thought to be secondary to ischaemic necrosis of the mucosa overlying the vocal process of the arytenoid cartilage. The patient was placed on a course of oral Prednisolone for a week and advised to carry out regular steam inhalation.

The patient was seen two weeks later where no improvement in the symptoms was reported. She therefore underwent microlaryngoscopic examination and excision of the "contact granulomas" under general anaesthesia (Fig. 3). Histology of the lesions removed was reported as consistent with "intubation granuloma" with no evidence of atypia or malignancy. When the patient was reviewed two weeks following the surgery, breathing was found to be much easier and the voice was becoming stronger daily. A further fibre optic laryngoscopic examination was carried out which revealed possible residual or recurrent granuloma and therefore another course of Prednisolone and steam inhalation was prescribed.



Fig. 2 Small sessile swellings on vocal chords.

Three weeks later the patient was reviewed and a further residual/recurrent granuloma involving both vocal cords was confirmed during laryngoscopic examination (Fig. 4) the lesion on the right side was on the inferior surface with a contact type lesion of the left vocal cord. The patient was then referred to another Otolaryngologist for further opinion. The patient went on to receive further treatment in the form of regular oral lansoprazole 30 mg for 6 weeks followed by a general anaesthetic and a laryngoscopy for excision of a second large granuloma on the posterior end of the right cord. Speech therapy was initiated following the second operation and the patients' voice was 'reasonable' though still weak. The larynx on further examination 6 weeks after the second operation appeared to be healed and free of granuloma.

The patient was more than happy with both the facial and dental results achieved and once her vocal cords had fully recovered she was happy with the entire outcome of her rather prolonged treatment.



Fig. 3 Vocal chords immediately after granuloma removal.

Discussion

For informed consent, risks that occur in more than 1% of cases are fully discussed with patients and relevant relatives. In patients undergoing this surgery this should always include pain, swelling, decreased mouth opening, bleeding, infection and altered nerve function. Other post-operative complications occur rarely however it is incumbent upon all clinicians to be aware of all possible sequelae.

"Contact granulomas" are exceedingly rare; however they must be considered as part of the differential diagnosis in any post-surgical patients complaining of "hoarseness, a weak voice or difficulty breathing".

Conclusion

The granulomas might have been picked up sooner was it not for the fact the patient was in intermaxillary fixation for six weeks and was therefore unable to talk normally.

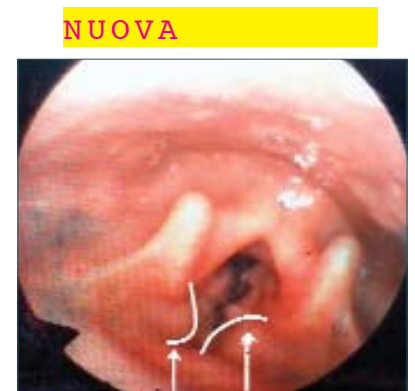


Fig. 4 Recurrence of contact granuloma.

When IMF was released her voice was significantly weaker than normal and did not recover as expected. The patient initially ascribed this to "not having used it very much" however there was indeed a rarely seen organic cause for the problem.

Patients concerns must always be taken seriously and fully investigated to allow the most favourable outcome to be achieved.

References

1. Kramer FJ et al. Intra- and perioperative complications of the Le Fort Osteotomy: A prospective evaluation of 1000 patients. *J Craniofac Surg* 2004 Nov; 15(6):971-7. discussion 978-9.
2. Kaplan PA, Tu HK, Koment MA, Ruskin JD, Bennion J. Radiography after orthognathic surgery. Part II. Surgical complications. *Radiology* 1988 Apr; 167(1):195-8.
3. Baker SB, Weinzwieg J, Bartlett SP, Whitaker LA. Brain abscess as a complication of orthognathic surgery: diagnosis, management, and pathophysiology. *Plast Reconstr Surg* 1999 Aug; 104(2):480-2; discussion 483. Review.
4. Lanigan DT, Romanchuk K, Olson CK. Ophthalmic complications associated with orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg* 1993 May; 51(5):480-94.
5. Giroto JA et al. Blindness as a complication of Le Fort osteotomies: role of atypical fracture patterns and distortion of the optic canal. *Plast Reconstr Surg* 1998 Oct; 102(5):1409-21; discussion 1422-3.
6. Havas TE, Priestley J, Lowinger DS. A management strategy for vocal process granulomas. *Laryngoscope* 1999 Feb; 109(2 pt 1):301-6.
7. Naito K, Iwata S, Nishimura T, Takasu A, Kuwauchi T, Yaida M. Nine cases with post-intubation granuloma of the larynx. *Auris Nasus Larynx* 1982; 9(2):111-5.
8. Benjamin B, Croxson G. Vocal cord granulomas. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1985 Nov-Dec; 94(6 Pt 1):538-41.
9. Feder RJ, Michell MJ. Hyperfunctional, hyperacidic and intubation granulomas. *Arch Otolaryngol* 1984 Sep; 110(9):582-584.
10. Ward PH, Zwitman D, Hanson D, Berci G. Contact ulcers and granulomas of the larynx: new insights into their etiology as a basis for more rational treatment. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1980 May-Jun; 88(3):262-9.
11. Brodnitz F. Contact ulcer of the larynx. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1961 month; 74:70-80.
12. Mans EJ, Kuhn AG, Lamprecht Dinnesen A. Personality characteristics in patients with vocal cord granuloma. *Laryngorhinootologie* 1993 May; 72(5):225-230. German.
13. Keiser GJ, Bozentka NE, Gold BD. Laryngeal granuloma: a complication of prolonged endotracheal intubation. *Anesth Prog* 1991 Nov-Dec; 38(6): 232-4.

Difficoltà nella fonazione: una rara sequela della chirurgia ortognatica.

Weeh Chua*, BDS, MFDS Eng, Alagappan Chidambaram**, FRCS Ed, FRCS (ORL-HNS), Peter T Doyle***, FDSRCS, FRCS MaxFac, Jonathan Sandler****, BDS Hons, MSc, FDSRCS, MOrth RCS Eng

Introduzione

La chirurgia ortognatica in combinazione con il trattamento ortodontico è oggi di routine nei trattamenti di chirurgia maxillo facciale. Questo non vuole però dire che sia priva di rischi. Le complicazioni di cui il paziente è informato includono dolore, gonfiore, diminuzione dell'apertura della bocca, sanguinamento, infezioni, alterazioni della sensibilità nervosa della lingua, delle labbra e delle guance anche permanenti. Altre complicanze meno frequenti riportate in letteratura¹ sono la deviazione del setto nasale, l'errata unione o la mancata unione dei frammenti osteotomici, gravi processi infiammatori come ascessi o sinusiti del mascellare e complicazioni ischemiche. In uno studio follow-up² sono state valutate le radiografie post chirurgia ortognatica di 100 pazienti, nel 10% di queste erano presenti i segni di complicazioni chirurgiche tra cui fratture, dislocazione del ATM, resezione di radici, necrosi avascolari e osteomieliti.

Le complicazioni rare sono per definizione poco frequenti ma è importante che il clinico ne sia a conoscenza. Un esempio è il caso di un ascesso cerebrale come complicanza della chirurgia ortognatica riportato da Backer³.

Laioning ed altri⁴ descrivono le complicanze oftalmologiche conseguenti ad una osteotomia mascellare, tra cui la diminuzione del visus, disfunzioni del muscolo extraoculare, cheratiti neuroparalitiche, problemi naso lacrimali con l'aumento o la diminuzione della lacrimazione. Giroto e coll.⁵ descrivono la più grave ed estrema delle complicazioni che è la cecità. In questo articolo gli Autori riportano un'altra complicanza rara il granuloma da contatto delle corde vocali. Il granuloma da contatto è una rara ma riconosciuta complicanza dell'intubazione endotracheale⁶⁻⁸.

Potenziali cause del granuloma da contatto sono l'intubazione, condizioni di stress delle corde vocali come ad esempio per i cantanti ed il reflusso gastroesofageo^{9,10}.

Il fumo¹¹, le infezioni, le allergie, lo scolo nasale posteriore, e problemi psicosociali¹² sono considerati potenziali cofattori. Questi granulomi sono notoriamente difficili da curare e il loro incidenza lascia perplessi gli otorinolaringoiatri. Il trattamento include l'escissione chirurgica, la logopedia, il trattamento con farmaci antireflusso e modificazioni dello stile di vita. Esiste solo un caso riportato da Keizer e coll.¹³ di granuloma da contatto conseguente a chirurgia ortognatica.

Case report

Una donna di 40 anni, caucasica si era presenta in quanto non soddisfatta dell'aspetto della sua mandibola. Aveva una III Classe scheletrica con un angolo Piano di Franco-

forte - Piano Mandibolare alto ed una ipoplasia del mascellare. Le sue labbra erano moderatamente spesse e competenti con una linea labiale bassa ed un angolo naso labiale nella norma. La paziente presentava sia zone di edentulia che alcune protesi dentali.

C'era una relazione incisiva di III classe senza overbite ma con un overjet di -2 mm dal incisivo superiore di destra e di -3 mm dall'incisivo superiore di sinistra. Durante il sorriso non espose gli incisivi superiori. Erano presenti dei diastemi nell'arcata superiore e tra i due incisivi che presentavano una inclinazione nella norma. L'arcata inferiore aveva un lieve affollamento e gli incisivi inferiori erano retro inclinati. La curva di Spee era moderata. La linea mediana superiore era centrata ma la linea mediana inferiore era scivolata verso destra di 3 mm. I rapporti i molari a destra erano di II classe, e i rapporti molari a sinistra erano per metà unità di III classe. I canini a destra erano in II Classe e a sinistra di metà unità in III classe. Il canino ed il primo premolare superiori di destra e il canino, il primo premolare ed i molari superiori di sinistra erano morso inverso. La storia medica rivelava che la paziente aveva dei soffi cardiaci.

Trattamento effettuato

Fu avviato il trattamento ortodontico ed alla prima consultazione pre-chirurgica fu deciso che la paziente sarebbe stata sottoposta ad una osteotomia bimascellare e fu operata circa 9 mesi dopo l'inizio del trattamento ortodontico. Durante l'intervento, il mascellare fu avanzato di 3,5 mm, e la mandibola fu arretrata di 1,5 mm a destra e di 4,0 mm a sinistra con uno scivolamento della linea mediana verso sinistra di 4,0 mm. Fu necessario praticare un bloccaggio intermascellare in quanto non era stato possibile eseguire una fissazione solo con placche di osteosintesi dell'osteotomia sagittale mandibolare di sinistra. La paziente era stata 4 ore in anestesia generale.

Problemi post-operatori

Mentre la paziente aveva la fissazione intermascellare rifiutava di parlare perché "faceva troppa fatica". Durante la visita di controllo poche settimane dopo l'osteotomia la paziente lamentava che la voce era "flebile e gracchiate". Si è ipotizzato che ci fosse stato un trauma alle corde vocali e la paziente fu tranquillizzata, il problema si sarebbe risolto spontaneamente. Due settimane dopo la paziente lamentava che la sua voce era sempre più "roca e flebile e che aveva difficoltà a respirare". Ci fu un rapido consulto con l'endoscopista e il giorno stesso la paziente fu rivisitata.

Esito dell'endoscopia

La voce della paziente era rauca ma senza stridore. L'esame con la laringoscopia a fibre ottiche non rilevava delle corde vocali normali, come si vede nella figura 1. Piuttosto evidenziava la presenza di un gonfiore liscio sessile localizzato nell'aspetto mediano posteriore di tutte e due le corde vocali (Fig. 2). Lo spazio aereo anteriormente al gonfiore era ridotto, ma sufficiente. Fu fatta una diagnosi di granuloma da contatto per tutte e due le corde vocali, esso era probabilmente secondario ad una necrosi ischemica della mucosa sovrastante il processo vocale della cartilagine aritenoidale. Alla paziente fu prescritto del Prednisolone per bocca per una settimana e regolari inalazioni con vapore.

La paziente fu rivista due settimane dopo e non presentava alcun miglioramento dei sintomi. A questo punto fu sottoposta a un esame con microlaringoscopia e all'escissione del granuloma da contatto in anestesia generale (Fig. 3).

In base all'esame istologico il prelievo fu catalogato come granuloma da intubazione, e non fu riscontrata alcuna atipicità o malignità delle cellule.

Al controllo, due settimane dopo la chirurgia, la paziente respirava meglio e la voce era di giorno in giorno più forte. Fu eseguito un nuovo esame con laringoscopia a fibre ottiche e si vide la presenza di un residuo o di una recidiva del granuloma per cui fu prescritta nuovamente la terapia con Prednisolone ed inalazioni.

Tre settimane dopo la paziente fu sottoposta ad una nuova laringoscopia che confermava la presenza di un ulteriore residuo o di una recidiva del granuloma (Fig. 4). La lesione sul lato di destra era localizzata sulla superficie inferiore e provocava una lesione da contatto sulla corda vocale di sinistra. La paziente fu inviata da un altro laringoiatra per un consulto.

L'ulteriore terapia a cui fu sottoposta la paziente comportò l'assunzione di Lansoprazole 30 mg per bocca per sei settimane, una nuova anestesia generale con laringoscopia per l'escissione di un secondo grosso granuloma dal capo posteriore della corda vocale di destra.

Dopo il secondo intervento la paziente iniziò una riabilitazione

con il logopedista e la sua voce era "accettabile" anche se ancora debole. Ad un successivo esame, sei settimane dopo il secondo intervento, la laringe era finalmente guarita e non vi era traccia di granuloma.

La paziente fu più che felice del risultato estetico del viso e dei denti e quando finalmente anche la sua voce tornò normale fu felice del risultato del prolungato trattamento.

Discussione

Per il consenso informato le complicanze che accadono anche solo nell'1% dei casi sono ampiamente discusse con il paziente e con i parenti coinvolti. Tra le complicanze che dovrebbero sempre essere presentate ai pazienti che si sottopongono a questo tipo di chirurgia sono inclusi il gonfiore, una diminuzione dell'apertura della bocca, il sanguinamento il rischio di infezioni, ed alterazioni della funzionalità nervosa.

È tassativo per il clinico conoscere tutte le possibili complicanze che possono capitare.

I granulomi da contatto sono eccezionalmente rari; essi devono comunque essere presi in considerazione nella diagnosi differenziale in tutti i paziente che lamentano dopo la chirurgia "una voce roca e debole o difficoltà a respirare"

Conclusioni

Il granuloma poteva essere diagnosticato più precocemente se non fosse stato per il bloccaggio intermascellare tenuto per sei settimane dalla paziente che quindi non era in grado di parlare normalmente. Quando il bloccaggio intermascellare era stato tolto la voce era notevolmente più debole del previsto e non migliorava come ci si aspettava. La paziente inizialmente motivava la cosa dicendo che "aveva parlato poco" ma comunque esisteva una causa organica rara che spiegava il problema.

Per il raggiungimento del miglior risultato le lamentele del paziente devono essere sempre prese sul serio e accuratamente indagate.