

Tỷ lệ kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh và các yếu tố liên quan tại bệnh viện Từ Dũ

Hồ Bảo Trân^{1*}, Bùi Văn Hoàng¹, Nguyễn Châu Trí¹

¹Bệnh viện Từ Dũ, Thành phố Hồ Chí Minh, Việt Nam

Tóm tắt

Đặt vấn đề: Dị tật tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh ở thai nhi (CPAM) là một dị tật bẩm sinh hiếm gặp thường được chẩn đoán trước sinh qua siêu âm. Tỷ lệ hiện mắc đối với CPAM là 1/8.300-1/35.000 các thai nhi. Tồn thương CPAM lớn có thể gây ra biến chứng phù thai. Tỷ lệ sống sót của thai nhi bị phù thai chỉ là 3%. Can thiệp sớm nhóm có nguy cơ cao, có thể giúp giảm tỷ lệ phù thai cũng như cải thiện kết cục thai kỳ.

Mục tiêu: Xác định tỷ lệ kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh và các yếu tố liên quan tại bệnh viện Từ Dũ.

Đối tượng và phương pháp nghiên cứu: Thiết kế nghiên cứu cắt ngang trên 150 trường hợp thai nhi CPAM được sinh tại bệnh viện Từ Dũ từ 1/1/2020 đến 30/6/2024. Phân tích hồi quy logistic đa biến được dùng để đánh giá mối liên hệ giữa các yếu tố về quản lý thai kỳ CPAM, các đặc điểm trên siêu âm tiền sản trước sinh, liệu pháp steroid với kết cục thai kỳ tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh.

Kết quả: Tỷ lệ kết cục xấu ở thai nhi có CPAM: 23,3% (KTC 95%: 17,2-30,8). Tỷ lệ phù thai trong CPAM: 10,7% (KTC 95%: 6,7-16,8). Các yếu tố liên quan đến kết cục xấu ở thai kỳ CPAM: sử dụng steroid là yếu tố bảo vệ với $OR^*=0,06$ (KTC 95%: 0,01-0,37, $p^*=0,003$), chỉ số CVR > 1,6 là yếu tố nguy cơ kết cục xấu, với $OR^*=13,6$ (KTC 95%: 6,69-27,63, $p^*=0,001$). Diện tích dưới đường cong ROC về chỉ số CVR với kết cục xấu là 0,84 (KTC 95%: 0,76-0,92). Ngưỡng cắt tối ưu của chỉ số CVR là 1,0 cm^2 , với độ nhạy 80%, độ đặc hiệu 72,1%, giá trị tiên đoán dương 46,3% và giá trị tiên đoán âm 92,1%.

Kết luận: CVR là chỉ số siêu âm hữu ích cho thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh. CVR < 1 cm^2 có thể dự đoán kết cục tốt. Ngược lại, CVR > 1,6 cm^2 có nguy cơ kết cục bất lợi cho bé sau sinh. Sử dụng steroid ở nhóm CPAM nguy cơ cao có tỷ lệ kết cục xấu giảm có ý nghĩa thống kê, và cần thêm những nghiên cứu có kiểm chứng.

Từ khóa: tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh (CPAM); phù thai; sử dụng steroid

Abstract

THE PREVALENCE OF ADVERSE OUTCOME OF PREGNACIES WITH PRENATALLY DIAGNOSED CONGENITAL PULMONARY AIRWAY MALFORMATION AND ASSOCIATED FACTORS AT TU DU HOSPITAL

Ho Bao Tran, Bui Van Hoang, Nguyen Chau Tri

Background: Congenital pulmonary airway malformation (CPAM) is a rare congenital lung lesion often diagnosed by prenatal ultrasound. The current incidence of CPAM is approximately 1/8.300 – 1/35.000 in fetuses. Large CPAM lesions can cause fetal hydrops. The survival rate of fetuses with fetal hydrops is only 3%. Early intervention in high-risk CPAM cases can help reduce the rate of fetal hydrops and improve pregnancy outcomes.

Objectives: The aim of this study was to determine the prevalence of adverse outcome of pregnancies with prenatally diagnosed CPAM and to assess the association factors in outcome of pregnancies with CPAM.

Methods: A retrospective cross-sectional study on 150 fetuses with prenatal diagnosis of CPAM were born at Tu Du hospital, from January 1, 2020 to June 30, 2024. Multivariate logistic regression analysis was used to assess the association between CPAM pregnancy management factors, prenatal ultrasound characteristics, steroid therapy and outcome of pregnancies with CPAM.

Results: Prevalence of adverse outcome of pregnancies with CPAM: 23.3% (CI 95%: 17.2-30.8), hydropic fetuses 10.7% (CI 95%: 6.7-16.8). Receiver operator characteristics curve for the congenital pulmonary airway malformation-volume ratio (CVR) and adverse outcome was 0.84 (CI 95%: 0.76-0.92). The optimal threshold for CVR is 1.0 cm², with a sensitivity of 80% and a specificity of 72.1%, a positive predictive value of 46.3% and a negative predictive value of 92.1%. Factors associated with outcomes in CPAM pregnancies: Steroid Therapy was a protective factor with OR*=0.06 (CI 95%: 0.01-0.37, p*=0.003). CVR > 1.6 cm² is an increased risk for adverse outcome with OR*=13.6 (CI 95%: 6.69-27.63, p*=0.001).

Conclusions: CVR is a useful ultrasound index for fetuses with CPAM. CVR of < 1 cm² seems to be effective to predict a favorable outcome. On the contrary, CVR > 1.6 cm² is an increased risk for adverse outcome. Steroid therapy in high-risk CPAM cases has a statistically significant reduced rate of adverse outcomes, but further controlled studies are needed.

Keywords: congenital pulmonary airway malformation; fetal hydrops; steroid therapy

1. ĐẶT VẤN ĐỀ

Dị tật tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh (CPAM) là những tổn thương phổi bẩm sinh hiếm gặp thường được chẩn đoán bằng siêu âm trước sinh. Nó được tạo nên từ mô phổi bất thường bao gồm các yếu tố nang và u tuyến, phát sinh từ mô khí quản, phế quản, hoặc phế nang, dẫn đến phát triển bất thường của đường hô hấp dưới và không có chức năng phù hợp, nhưng vẫn tiếp tục phát triển. Bên cạnh đó,

CPAM là một trong những tổn thương phổi phổ biến nhất được chẩn đoán trước khi sinh (59% tổn thương phổi trước khi sinh) [1]. Cùng với sự phát triển và những tiến bộ của siêu âm, CPAM có thể được chẩn đoán bằng sàng lọc trước sinh ở tuần thai thứ 18-20 [2]. Các trường hợp có nguy cơ cao có thể dẫn đến phù thai và tử vong trước hoặc sau khi sinh. Tỷ lệ mắc đối với các bệnh lý CPAM là 1/8.300-1/35.000 các thai nhi, và 1/25.000-1/35.000 trẻ sơ sinh sống [3,4].

Trong một số các trường hợp, CPAM phát triển lớn, nó có thể chiếm một không gian đáng kể ở trong ngực. Điều này có

thể làm cản trở sự phát triển bình thường của phổi và làm cho phổi kém phát triển, không có đầy đủ chức năng lúc sinh. Bên cạnh đó, khối tổn thương CPAM lớn cũng có thể đẩy lệch tim và làm cản trở sự hồi lưu của tĩnh mạch và rối loạn dòng chảy tuần hoàn, từ đó gây ra biến chứng suy tim, đặc biệt là phù thai. Các nghiên cứu đã chỉ ra rằng tỷ lệ sống sót của thai nhi bị phù chỉ là 3% [5].

Vì vậy, việc dự đoán, phát hiện nguy cơ bất lợi do CPAM gây ra giúp bác sĩ tiền sản thực hiện các biện pháp can thiệp, điều trị dự phòng cho các nhóm có nguy cơ cao, cũng như giảm tỷ lệ phù thai. Tại Việt Nam, chưa có nghiên cứu nào khảo sát tỷ lệ kết cục xấu của CPAM và các yếu tố liên quan trước sinh với kết cục xấu ở thai kỳ CPAM. Từ đó, tìm ra các yếu tố nào thực sự bất lợi trong tiên lượng kết cục ở thai kỳ CPAM. Vì vậy, nghiên cứu này được thực hiện với mục tiêu xác định tỷ lệ kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh và phân tích các yếu tố nguy cơ liên quan đến kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh tại bệnh viện Từ Dũ.

2. ĐỐI TƯỢNG VÀ PHƯƠNG PHÁP NGHIÊN CỨU

2.1. Đối tượng nghiên cứu

Tất cả các thai phụ có thai nhi được chẩn đoán trước sinh tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh tại khoa Chăm sóc trước sinh bệnh viện Từ Dũ. Nghiên cứu được thực hiện từ ngày 01/01/2020 đến ngày 30/6/2024.

2.1.1. Tiêu chuẩn chọn

Tất cả các thai phụ có thai nhi được chẩn đoán trước sinh tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh thỏa các tiêu chuẩn sau:

- Đơn thai.
- Có tuổi thai rõ ràng.
- Thai sống trong thai kỳ.
- Chẩn đoán thai tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh: dựa vào siêu âm tiền sản trước sinh tại bệnh viện Từ Dũ do các bác sĩ siêu âm tiền sản phụ trách (là các bác sĩ đã được đào tạo về lĩnh vực siêu âm thai bất thường và được bệnh viện trao thẩm quyền kết luận thai có dị tật bẩm sinh).
- Quản lý diễn tiến thai kỳ tại khoa Chăm sóc trước sinh

bệnh viện Từ Dũ.

- Thai phụ sinh tại bệnh viện Từ Dũ.

2.1.2. Tiêu chuẩn loại trừ

Tất cả các thai phụ có thai nhi được chẩn đoán trước sinh tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh trong thời gian nghiên cứu trở về trước, nhưng mắc một trong các vấn đề sau:

- Đa thai.
- Không chẩn đoán được tuổi thai.
- Đa dị tật bẩm sinh (thêm một hay nhiều dị tật bẩm sinh khác ngoài tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh).
- Mất dấu trong quá trình theo dõi (không khám thai hoặc không sinh tại bệnh viện Từ Dũ).

2.2. Phương pháp nghiên cứu

2.2.1. Thiết kế nghiên cứu

Nghiên cứu cắt ngang hồi cứu.

2.2.2. Cỡ mẫu

Công thức tính cỡ mẫu trong thiết kế nghiên cứu cắt ngang hồi cứu như sau:

$$n = \frac{Z_{1-\alpha/2}^2 \times p \times (1-p)}{d^2}$$

n: cỡ mẫu cần thiết phải nghiên cứu.

p: tỷ lệ kết cục xấu ở thai kỳ CPAM. Theo nghiên cứu của Hong Tran (2005) tại Melbourne, tỷ lệ kết cục xấu trong các trường hợp được chẩn đoán CPAM là 10,5% [6].

α : độ tin cậy.

Z: trị số từ phân phối chuẩn

d: sai số cho phép, chúng tôi chọn $d=0,05$.

Với $\alpha=0,05$ (độ tin cậy 95%), do đó $Z_{(1-\alpha/2)}=1,96$.

Thay vào công thức trên, ta được:

$$n = \frac{1,96^2 \times 0,105 \times (1-0,105)}{0,05^2} = 144,4$$

Vậy cỡ mẫu tối thiểu cần cho nghiên cứu là 145.

2.2.3. Phương pháp thực hiện

Chúng tôi chọn mẫu thuận tiện, lấy mẫu toàn bộ tất cả các trường hợp tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh đơn thuần đã được tư vấn tiền sản, quản lý thai kỳ tại khoa chăm sóc trước sinh, được sinh tại bệnh viện Từ Dũ thỏa tiêu chuẩn chọn mẫu trong thời gian nghiên cứu trở về trước cho đến khi

đủ mẫu.

Thông tin quá trình khám thai định kỳ của sản phụ được theo dõi qua phần mềm khám thai tại đơn vị tiền sản. Mỗi bệnh nhân sẽ có một mã số khám thai tiền sản theo từng năm. Khi nhập mã số này, chúng tôi có thể ghi nhận được toàn bộ quá trình khám thai từ siêu âm đến xét nghiệm được liệt kê theo trình tự thời gian. Từ mã bệnh nhân, chúng tôi ghi nhận được số nhập viện ở những trường hợp CPAM có đến sinh tại bệnh viện Từ Dũ. Từ đó thu thập thông tin lúc sinh qua phần mềm vi tính tại phòng sanh, kết hợp với thông tin trên phần mềm tại khoa sơ sinh để ghi nhận kết cục bé cho đến khi bé được xuất viện.

2.2.4. Biến số nghiên cứu

Biến số độc lập: đặc điểm chung của dân số- xã hội, tiền căn sản phụ khoa, đặc điểm quản lý thai kỳ CPAM (nơi đầu tiên phát hiện CPAM, tuổi thai lần đầu phát hiện CPAM, kết quả chọc ối bất thường nhiễm sắc thể, có sử dụng steroid), đặc điểm khối CPAM trên siêu âm (vị trí, dạng tổn thương CPAM, chỉ số CVR, đẩy lệch trung thất, tràn dịch màng phổi, tràn dịch màng bụng, đa ối).

Biến số phụ thuộc: kết cục xấu khi có 1 trong các đặc điểm sau: phù), Apgar 1 phút < 4 điểm, Apgar 5 phút < 7 điểm, thở máy, có chuyển viện bé vì lý do của CPAM gây biến chứng, tử vong.

2.2.5. Xử lý và phân tích dữ liệu

Số liệu thu thập từ bộ câu hỏi được thu hồi và kiểm tra tính phù hợp ngay bởi người nghiên cứu. Số liệu được nhập, xử lý và phân tích bằng phần mềm thống kê Stata 11.1.

Phân tích đơn biến bằng Logistic regression, sau đó mô hình hồi quy Logistic đa biến nhằm kiểm soát yếu tố gây nhiễu để tính OR hiệu chỉnh (OR*) cho các biến số. Các phép tính toán thống kê được thực hiện với độ tin cậy 95%.

3. KẾT QUẢ

3.1. Đặc điểm về quản lý thai kỳ CPAM

Tuổi thai lần đầu phát hiện CPAM: trung bình: 22,5 + 3,1, sớm nhất: 17 tuần, muộn nhất: 32,5 tuần. Trong 81 trường hợp CPAM đồng ý chọc ối, phần lớn không có bất thường nhiễm sắc thể chiếm 95,1%. Tỷ lệ can thiệp nội khoa với steroid

chiếm 21,3% (Bảng 1).

Bảng 1. Đặc điểm về quản lý thai kỳ CPAM

Đặc điểm	N=150	Tỷ lệ (N%)
Tuổi thai lần đầu phát hiện CPAM		
< 22 tuần	66	44,0
22 - 26 tuần	65	43,3
> 26 tuần	19	12,7
Kết quả chọc ối bất thường nhiễm sắc thể (N=81)		
Bình thường	77	95,1
Bất thường	4	4,9
Can thiệp nội khoa (steroid)		
Không	118	78,7
Có	32	21,3

CPAM bên trái chiếm ưu thế (59,3%). Tổn thương vi nang chiếm ưu thế (60,7%), tổn thương nang lớn chiếm 39,3%. Phân nhóm CPAM có chỉ số CVR < 1 (tiền lượng tốt) chiếm tỷ lệ 60%, nhóm CVR > 1,6 (tiền lượng xấu) chiếm 16% (Bảng 2).

Bảng 2. Đặc điểm về khối CPAM

Đặc điểm	N=150	Tỷ lệ (N%)
Vị trí khối CPAM		
Phải	61	40,7
Trái	89	59,3
Tổn thương nang		
Vi nang	91	60,7
Nang lớn	59	39,3
Chỉ số CVR		
< 1	90	60,0
1-1,6	36	24,0
> 1,6	24	16,0

Bảng 3. Đặc điểm về hiệu ứng của khối CPAM

Đặc điểm	N=150	Tỷ lệ (N%)
Đẩy lệch trung thất		
Không	60	40,0
Có	90	60,0
Tràn dịch màng phổi		
Không	140	93,3
Có	10	6,7
Tràn dịch màng bụng		
Không	130	86,7
Có	20	13,3
Đa ối		
Không	124	82,7
Có	26	17,3

Phần lớn các trường hợp có đẩy lệch trung thất chiếm

60%. Tỷ lệ có tràn dịch màng phổi chiếm 6,7%, có tràn dịch màng bụng chiếm 13,3%. Tình trạng đa ôi chiếm tỷ lệ 17,3% (Bảng 3).

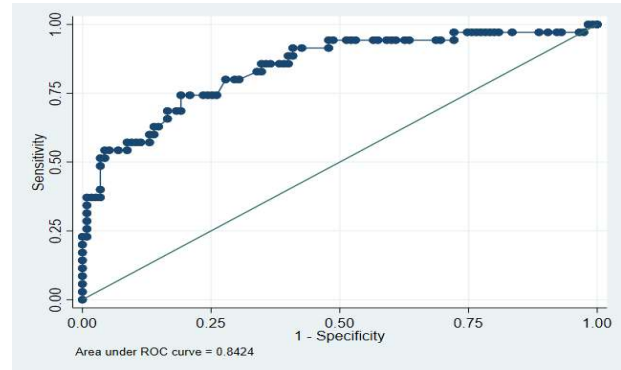
Tỷ lệ phù thai ở thai kỳ CPAM chiếm 10,7%, không bị phù thai chiếm 89,3%. Trong 16 trường hợp phù thai, thời điểm phát hiện phù thai sớm nhất 19 tuần, muộn nhất 29,2 tuần, trung bình $24,6 \pm 3,5$ tuần (Bảng 4).

Bảng 4. Đặc điểm về phù thai

Biến số	N= 150	Tỷ lệ (%)
Phù thai		
Không	134	89,3
Có	16	10,7
Thời điểm phù thai		
< 27 tuần	13	81,2
≥ 27 tuần	3	18,8

3.2. Yếu tố về chỉ số CVR của khối CPAM trước sinh

Diện tích dưới đường cong ROC về chỉ số CVR với kết cục xấu là 0,84 (KTC 95%: 0,76-0,92). Ngưỡng cắt tối ưu của chỉ số CVR là 1,0 cm², với độ nhạy 80%, độ đặc hiệu 72,1%, giá trị tiên đoán dương 46,3% và giá trị tiên đoán âm 92,1% (Hình 1).



Hình 1. Đường cong ROC về chỉ số CVR với kết cục xấu ở thai kỳ CPAM

Nhằm kiểm soát yếu tố gây nhiễu, chúng tôi đưa các biến số có $p < 0,02$ trong phân tích đơn biến vào phương trình hồi quy Logistic đa biến để tìm ra yếu tố liên quan đến tỷ lệ kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh. Vì vậy, có tổng cộng 6 yếu tố độc lập được đưa vào phương trình hồi quy Logistic đa biến (Bảng 5).

Nhóm có sử dụng steroid có tỷ lệ kết cục xấu giảm gấp 16,7 lần so với nhóm không sử dụng steroid ($OR^*=0,06$, KTC 95%: 0,01-0,37, $p^*=0,003$). Nhóm thai nhi CPAM có chỉ số CVR > 1,6 liên quan có ý nghĩa đến thống kê kết quả bất lợi so với nhóm thai nhi có chỉ số CVR < 1 ($OR^*=13,6$, KTC 95%: 6,69-27,63, $p^*=0,001$).

Bảng 5. Phân tích hồi quy đa biến các yếu tố liên quan với kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh

Đặc điểm	Kết cục xấu		OR*	KTC 95%	p*	VIF
	Có	Không				
Sử dụng steroid						
Không	32(27,1%)	86(72,9%)	1			
Có	3(9,4%)	29(90,6%)	0,06	0,01-0,37	0,003	1,77
Tổn thương nang						
Vĩ nang	14(15,4%)	77(84,6%)	1			
Nang lớn	21(35,6%)	38(64,4%)	3,05	0,78-11,86	0,106	1,14
Chỉ số CVR						
< 1	7(7,8%)	83(92,2%)	1			
1-1,6	9(25%)	27(75%)	9,93	2,20-44,79	0,003	1,73
> 1,6	19(79,2%)	5(20,8%)	13,6	6,69-27,63	0,001	2,74
Đầy lệch trung thất						
Không	5(8,3%)	55(91,7%)	1			
Có	30(33,3%)	60(66,7%)	1,43	0,35-5,78	0,608	1,43
Tràn dịch màng phổi						
Không	28(20%)	112(80%)	1			
Có	7(70%)	3(30%)	2,16	0,02-17,37	0,731	2,22
Tràn dịch màng bụng						
Không	20(15,4%)	110(84,6%)	1			
Có	15(75%)	5(25%)	2,47	0,15-31,58	0,572	2,59

(*) Logistic Regression với OR hiệu chỉnh

4. BÀN LUẬN

4.1. Tỷ lệ kết cục xấu ở thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh và các yếu tố liên quan tại bệnh viện Từ Dũ

Phù thai là dấu hiệu tiên lượng nặng ở thai nhi và nhiều trường hợp sẽ không sống sót đến đủ tháng. Thai nhi bị phù có nguy cơ cao tử vong sau sinh [7]. Trong nghiên cứu của chúng tôi, các trường hợp phù thai đều tử vong sau sinh. Cũng theo nghiên cứu của tác giả Adzick NS, tiên lượng kết cục thai kỳ xấu nếu có liên quan phù thai, các trường hợp thai nhi CPAM không có phù thai có cơ hội sống sót cao nhờ kế hoạch chăm sóc theo dõi sau sinh, hồi sức sau sinh kịp thời [8].

Trong nghiên cứu của chúng tôi, tỷ lệ phù thai là 10,7% (16/150 trường hợp), thấp hơn so với nghiên cứu của tác giả Astrid H (2016) với tỷ lệ phù thai là 16,4% (11/67 trường hợp) [9]. Đối tượng trong nghiên cứu của chúng tôi có nơi cư ngụ đa phần là các tỉnh. Nên nhiều trường hợp siêu âm phát hiện có biến chứng phù thai, sau khi tư vấn về tình trạng nặng, sản phụ đã xin về địa phương để kết thúc thai kỳ. Những trường hợp này không được chúng tôi đưa vào mẫu nghiên cứu. Vì vậy tỷ lệ phù thai trong nghiên cứu chúng tôi thấp hơn. Tỷ lệ kết cục xấu ở thai kỳ tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh trong nghiên cứu của chúng tôi là 23,3%. Kết quả của chúng tôi cao hơn nghiên cứu của Hong Tran [6], với tỷ lệ 10,5%. Do đối tượng trong nghiên cứu của tác giả khảo sát tập trung về phù thai và các trường hợp tử vong sau sinh, nghĩa là không bao gồm các trường hợp Apgar xấu hoặc chuyển viện như trong nghiên cứu của chúng tôi.

4.2. Các yếu tố liên quan đến kết cục xấu ở thai nhi có CPAM

Cromblehome TM đã tính toán tỷ lệ thể tích CPAM trên chu vi vòng đầu (CVR), từ đó tạo ra tỷ lệ thể tích hiệu chỉnh theo tuổi thai để dự đoán nguy cơ [7,10]. Thai nhi có CVR > 1,6 được coi là có nguy cơ cao bị phù thai. Các tác giả nêu rằng mặc dù CVR ban đầu > 1,6 khiến thai nhi có nguy cơ cao kết cục bất lợi hơn nói chung, nhưng ngưỡng 1,6 không đủ nhạy để xác định thai nhi có nguy cơ. Do đó, một số tác giả đề xuất giá trị ngưỡng CRV < 1,0 để tiên lượng, gần như 100% không có triệu chứng khi sinh. Yong PJ phát hiện ra rằng ngay cả CVR < 0,56 cũng có thể dự đoán tiên lượng tốt

sau khi sinh (giá trị tiên đoán âm là 100%) [11]. Theo như dữ liệu trong nghiên cứu của chúng tôi, CVR > 1,6 có liên quan đến kết quả bất lợi, nhưng CVR < 1 dường như có ý nghĩa để tiên lượng tốt với tỷ lệ kết cục tốt chiếm 92,1%. Tóm lại với kết quả nghiên cứu, CVR < 1 được tính khi khoảng tuổi thai trung bình 22,5 tuần có thể dự đoán kết cục tốt. Bên cạnh đó, cần theo dõi siêu âm chặt chẽ, cũng như báo động nguy cơ kết cục bất lợi với các trường hợp có CVR > 1,6. Kết quả chúng tôi tương tự với nghiên cứu của Crombleholme TM (2002), Yong PJ (2012), Shulman R (2018) cho thấy CVR > 1,6 có liên quan đáng kể đến phù thai cũng như kết cục bất lợi sau sinh [10-12].

Cơ chế tác dụng của steroid được Curran PF, đưa ra giả thuyết rằng steroid kích thích sự trưởng thành của các tế bào phổi, làm giảm sự phát triển của CPAM [13]. Trong nghiên cứu của chúng tôi ghi nhận có 32 trường hợp sử dụng steroid, vì lý do có nguy cơ cao như tràn dịch màng phổi hoặc tràn dịch màng bụng, chiếm tỷ lệ 21,3%. 32 trường hợp này ghi nhận chỉ sử dụng một đợt steroid (2 liều Betamethasone 12mg cách nhau 24 giờ hoặc 4 liều Dexamethasone 6 mg cách nhau 12 giờ). Khi đưa vào phương trình hồi quy đa biến, tỷ lệ kết cục xấu ở nhóm có sử dụng steroid (9,4%) giảm gấp 16,7 lần. Sự khác biệt này có ý nghĩa thống kê (KTC 95% 0,01-0,37, $p = 0,003$) (Bảng 3). Việc sử dụng steroid làm giảm đáng kể kết cục xấu ở thai nhi CPAM.

Thời điểm sử dụng steroid trong nghiên cứu của chúng tôi được sử dụng trong các CPAM xuất hiện có đặc điểm nguy cơ cao trên siêu âm như: có tràn dịch màng phổi, hoặc tràn dịch màng bụng, hoặc CVR cao > 1,6 cm², hoặc đa ổ do chèn ép thực quản.

Cũng như theo kết quả nghiên cứu của William HP ghi nhận hiệu quả việc điều trị bằng steroid trước khi sinh đối với sự phát triển của CPAM là khác nhau, nhưng khả năng cải thiện sống sót ở những nhóm có nguy cơ cao là đáng kể [14]. Tương tự với kết quả của tác giả Liliam CR [15], betamethasone trước sinh là liệu pháp điều trị đầu tay có ý nghĩa cải thiện kết cục trong những trường hợp CPAM nguy cơ cao. Tuy nhiên, việc sử dụng steroid trong nghiên cứu của chúng tôi không phải ngẫu nhiên mà được thực hiện trên nhóm nguy cơ cao, do đó cần thêm những nghiên cứu có kiểm chứng.

Với thời hạn và khả năng đề tài cho phép, chúng tôi đã tiến hành nghiên cứu cắt ngang hồi cứu. Vì vậy không thể theo dõi thêm diễn tiến sau khi xuất viện hoặc chuyển viện ở trẻ CPAM.

Đây cũng là hạn chế của đề tài. Tuy nhiên nghiên cứu của chúng tôi giúp đưa ra cái nhìn khái quát, với mong muốn có thể góp phần cung cấp thông tin cho những nghiên cứu về sau.

5. KẾT LUẬN

CVR là chỉ số siêu âm hữu ích cho thai nhi có tăng sinh tuyến dạng nang ở phổi bẩm sinh. $CVR < 1 \text{ cm}^2$ có thể dự đoán kết cục tốt. Ngược lại, $CVR > 1,6 \text{ cm}^2$ có nguy cơ kết cục bất lợi cho bé sau sinh. Sử dụng steroid ở nhóm CPAM nguy cơ cao có tỷ lệ kết cục xấu giảm có ý nghĩa thống kê, và cần thêm những nghiên cứu có kiểm chứng.

Lời cảm ơn

Nhóm tác giả trân trọng cảm ơn Ban giám đốc, Phòng Kế hoạch tổng hợp, Khoa Chăm sóc trước sinh, Phòng sanh và Khoa sơ sinh Bệnh viện Từ Dũ đã hỗ trợ chúng tôi trong nghiên cứu này.

Nguồn tài trợ

Nghiên cứu không nhận tài trợ.

Xung đột lợi ích

Không có xung đột lợi ích tiềm ẩn nào liên quan đến bài viết này được báo cáo.

ORCID

Hồ Bảo Trân

<https://orcid.org/0009-0006-2955-3233>

Bùi Văn Hoàng

<https://orcid.org/0009-0008-5883-3749>

Nguyễn Châu Trí

<https://orcid.org/0009-0009-2989-2771>

Đóng góp của các tác giả

Ý tưởng nghiên cứu: Hồ Bảo Trân

Đề cương và phương pháp nghiên cứu: Hồ Bảo Trân, Bùi Văn Hoàng, Nguyễn Châu Trí

Thu thập dữ liệu: Hồ Bảo Trân, Nguyễn Châu Trí

Giám sát nghiên cứu: Hồ Bảo Trân, Bùi Văn Hoàng, Nguyễn Châu Trí

Nhập dữ liệu: Hồ Bảo Trân, Nguyễn Châu Trí

Quản lý dữ liệu: Hồ Bảo Trân

Phân tích dữ liệu: Hồ Bảo Trân

Viết bản thảo đầu tiên: Hồ Bảo Trân, Bùi Văn Hoàng, Nguyễn Châu Trí

Góp ý bản thảo và đồng ý cho đăng bài: Hồ Bảo Trân, Bùi Văn Hoàng, Nguyễn Châu Trí

Cung cấp dữ liệu và thông tin nghiên cứu

Tác giả liên hệ sẽ cung cấp dữ liệu nếu có yêu cầu từ Ban biên tập.

Chấp thuận của Hội đồng Đạo đức

Nghiên cứu đã được thông qua Hội đồng Đạo đức trong nghiên cứu y sinh học bệnh viện Từ Dũ, số 29/BVTD-HĐĐĐ ngày 04/01/2024.

TÀI LIỆU THAM KHẢO

- Swarr DT, Peranteau W, Pogoriler J, et al. Novel Molecular and Phenotypic Insights into Congenital Lung Malformations. *Am J Respir Crit Care Med* 2018;197(10):1328-1339.
- Ben-Ishay O, Nicksa GA, Wilson JM, Buchmiller TL. Management of giant congenital pulmonary airway malformations requiring pneumonectomy. *Ann Thorac Surg*. 2012;94:1073-8.
- Gautam MS, Satya SM, Prathyusha IS, Reddy KHC, Mayilvaganan KR, Raidu D. An atypical presentation of congenital pulmonary airway malformation (CPAM): a rare case with antenatal ultrasound findings and review of literature. *Pol J Radiol*. 2017;82:299-303.
- Laberge JM, Puligandla P, Flageole H. Asymptomatic congenital lung malformations. *Semin Pediatr Surg*. 2005;14:16-33.
- Pei Z, Kaisheng C, Mingsheng H, Yutong W, Pengyue S, Kanglin H, et al. Diagnostic value of congenital pulmonary airway malformation volume ratio for fetal hydrops due to congenital lung malformations: a systematic review and meta-analysis. *Orphanet journal of Rare Diseases*. 2022;17:213.
- Hong T, Fink MA, Cramer J, Cullinane F. Congenital cystic adenomatoid malformation: monitoring the

- antenatal and short-term neonatal outcome. Aust N Z J Obstet Gynaecol. 2008;48(5):462-6.
7. Alexia E, Dorothy IB. Prenatal diagnosis and management of congenital pulmonary airway malformation. uptodate version 23.0. 2018;Topic 14207.
 8. Adzick NS, Harrison MR. Management of the fetus with a cystic adenomatoid malformation. World Journal of Surgery 1993;17:342-9.
 9. Astrid H, Christoph B, Annegret G, Meike B, Andreas H, Haitham B, et al. Prenatal Diagnosis and Evaluation of Sonographic Predictors for Intervention and Adverse Outcome in Congenital Pulmonary Airway Malformation. PLoS One. 2016;11(3):e0150474.
 10. Crombleholme TM, Coleman BC, Hedrick H, Liechty K, Howell L, Flake AW, et al. Cystic adenomatoid malformation volume ratio predicts outcome in prenatally diagnosed cystic adenomatoid malformation of the lung. J Pediatr Surg. 2002;37(3):331-8.
 11. Yong PJ, Dadelszen PV, Carpara D, Lim K, Kent N, Francine T, et al. Prediction of Pediatric Outcome after Prenatal Diagnosis and Expectant Antenatal Management of Congenital Cystic Adenomatoid Malformation. Fetal Diagnosis Therapy. 2012;31(2):94-102.
 12. Shulman R, Sparks TN, Gosnell K, Blat C, Norton ME, Lee Hanmin, et al. Fetal Congenital Pulmonary Airway Malformation: The Role of an Objective Measurement of Cardiomedastinal Shift. Am J Perinatol. 2019;36(3):225-32.
 13. Curran PF, Jelin EB, Rand L, Hirose S, Feldstein VA, Goldstein RB, et al. Prenatal steroids for microcystic congenital cystic adenomatoid malformations. Journal of Pediatric Surgery. 2010;45:145-50.
 14. William HP, Wilson RD, Kenneth WL, Mark PJ, Bebbington MW, Hedrick HL, et al. Effect of maternal betamethasone administration on prenatal congenital cystic adenomatoid malformation growth and fetal survival. Fetal diagnosis and therapy. 2007;22(5):365-71.
 15. Liliam CR, Giovana DR, Jacomele CJV, Luiza GC, Thalita DM, Edward AJ, et al. Perinatal outcomes of prenatal diagnosis of congenital pulmonary airway malformation: an experience. Rev Assoc Med Bras. 2022;68(11):1582-6.