# CANNOT INTUBATE - CANNOT VENTILATE IN A NEONATE DUE TO GIANT SUBLINGUAL CYST: A SIMPLE APPROACH TO AIRWAY MANAGEMENT

# INCAPACITE D'INTUBER – INCAPACITE DE VENTILER CHEZ UN NOUVEAU-NÉ EN RAISON DE KYSTE SUBLINGUAL GÉANT: UNE APPROCHE SIMPLE POUR LA GESTION DES VOIES RESPIRATOIRES

*E.S. ISAMADE[1], C.T SOO[2] , M. E. EFU[3]

**Abstract**

Congenital sublingual/lingual cysts are rare, and may present with feeding difficulty; and rarely with respiratory distress in the neonate. A seven days old male neonate weighing 2.6kg was referred to a teaching hospital in Nigeria with a swelling in the oral cavity noticed at birth; associated with symptoms of inability to breastfeed, close the mouth and partial airway obstruction. Complete airway obstruction occurred, with cannot intubate- cannot ventilate situation during inhalational anaesthesia for surgical treatment, which was successfully managed.

We report the case to highlight the simple but life saving approach of needle aspiration in airway management for a cannot intubate - cannot ventilate situation due to a giant neonatal sublingual cyst.

**Key words:** Neonatal sublingual cyst, Airway obstruction, Needle aspiration, Management.

**Résumé**

Les kystes sublingualaux/ linguaux congénitaux sont rares et peuvent se présenter avec des difficultés d'alimentation ; et, dans des cas rares, avec des désordres respiratoires chez le nouveau-né. Un nouveau-né mâle de sept jours, pesant 2,6 kg a été référé à un centre hospitalier universitaire au Nigeria avec un gonflement de la cavité buccale remarqué à la naissance ; associé à des symptômes d'incapacité de téter, de fermer la bouche et l'obstruction partielle des voies aériennes. Une obstruction complète des voies respiratoires s'est produite, avec une condition d'incapacité d'intuber le malade – incapacité de ventiler au cours de l'anesthésie par inhalation pour le traitement chirurgical, lequel a été géré avec succès.

Nous rapportons ce cas pour mettre en évidence l'approche simple, mais salvatrice de ponction à l'aiguille dans la gestion des voies aériennes dans la situation d'une incapacité d'intuber – incapacité de ventiler due à une kyste de sublingual néonatale géante.

**Mots clés :** kyste sublingual, Obstruction des voies respiratoires, Ponction à l'aiguille, gestion, Nouveau-né.

## Introduction

Congenital sublingual/lingual cysts in neonates is rare, and most are small in size (<1cm) and asymptomatic, but giant cysts causing feeding and respiratory difficulty have been reported[1-5]. The differential diagnosis usually includes

[2] Department of Surgery, Benue State University Teaching Hospital, Makurdi, Nigeria.
[3] Department of Anaesthesia, Benue State University Teaching Hospital, Makurdi, Nigeria.

***Correspondence**

**Grant support: None**
**Subvention: Aucun**

**Conflict of interest: None**
**Conflit d'intérêts: Aucun**

## Introduction

Les kystes sublinguaux/linguaux congénitaux chez les nouveau-nés sont rare et la plupart sont de petite taille (< 1cm) et des kystes asymptomatiques, mais géants causant des difficultés alimentaires et respiratoires ont été signalés[1-5]. Le diagnostic différentiel inclut habituellement le Lymphangiome, le tératome, la Grenouillette, le kyste dermoïde le kyste de duplication entérique et le kyste thyroglosssal[3]. Des études d'aspiration cytologique et d'enzyme, les investigations radiologiques (CT et IRM) et l'histologie après la biopsie de l'excision confirmeront le diagnostic dans la

lymphangioma, teratoma, ranula, dermoid cyst, enteric duplication cyst and thyroglossal cyst[3]. Aspiration cytology and enzyme studies, radiological investigations (CT and MRI) and histology after excision biopsy will confirm diagnosis in majority of cases. Prenatal diagnosis using 2- and 3- dimensional sonography, with guided aspiration has also been reported[6, 7]. However, in poor resource areas, with limited investigative facilities, a definitive diagnosis may be difficult.

The treatment protocol for congenital oral cysts ranges from observation in asymptomatic lesions for spontaneous resolution, to needle aspiration, cryosurgery, marsupialisation, placement of silk suture in the dome of the cyst and excisional biopsy of the cyst[8-10]. The large symptomatic cysts usually require surgical treatment, and airway management is a challenge, particularly if the cyst is large enough to occlude the oral cavity[11].

**Case Report**

A 7 days old full term male neonate weighing 2.6kg was delivered at home to a 27 year old parturient, and referred to a teaching hospital due to a sublingual swelling from birth. There was associated inability to suck breast. The swelling was 2 x 3cm in size, smooth, immobile, soft/fluctuant and non-tender. The differential diagnosis of a congenital ranula, a sublingual gastric duplication cyst, a dermoid cyst, or a thyroglossal cyst was considered. The baby was scheduled for excision biopsy of the cyst at the age of 20 days.

On admission for the surgery, the swelling had markedly increased in size to 8 x 6cm with inability to close the mouth, severe dypsnoea and restlessness. The baby weighed 2.7kg. The anaesthetic management included premedication with atropine, preoxygenation and inhalational induction with halothane via Mapleson F circuit. However, as induction

majorité des cas. Le diagnostic prénatal à l'aide de l'échographie à 2 - et 3- dimension, avec aspiration guidée a également été signalé[6, 7]. Toutefois, dans les zones à ressources pauvres ressources, avec des facilités d'investigation, un diagnostic définitif peut s'avérer difficile.

Le protocole de traitement pour les kystes congénitaux oraux va de l'observation des lésions asymptomatiques pour la résolution spontanée à la ponction à l'aiguille, la cryochirurgie, la marsupialisation, le placement de suture de soie dans le dôme du kyste et la biopsie excisionnelle du kyste[8-10]. Les gros kystes symptomatiques nécessitent un traitement chirurgical, et la gestion des voies aériennes est un défi, surtout si le kyste est assez grand pour occlure la cavité buccale[11].

**Rapport de cas**

Un nouveau-né mâle non prématuré de sept mois et pesant 2,6 kg a été accouché à domicile par une parturiente de 27 ans et référé à un centre hospitalier universitaire en raison d'un gonflement sublingual à la naissance. Il était associé à une incapacité à sucer les seins. Le gonflement était 2 x 3cm de taille, lisse, immobile, soft/fluctuant et pas douloureux. Le diagnostic différentiel d'une Grenouillette congénitale, un kyste de duplication gastrique sublingual, un kyste dermoïde ou un kyste thyréoglosse était considéré. Le bébé était programmé pour la biopsie de l'excision du kyste à l'âge de 20 jours.

A l'hospitalisation pour l'intervention chirurgicale, le gonflement avait nettement augmenté en taille jusqu'à 8 x 6cm avec impossibilité de fermer la bouche, une dypsnoea sévère et de l'agitation. Le bébé pesait 2,7 kg. La gestion anesthésique incluait une prémédication par l'atropine, la pré oxygénation et l'induction par inhalation avec l'halothane par l'intermédiaire de circuits de Mapleson F. Cependant, à mesure que

Fig 1: Showing giant sublingual cyst in the neonate
Montrant un kyste sublingual géant chez le nouveau-né.

Fig 2: Bébé intubé avec succès après une aspiration de kyste.
Baby successfully intubated after cyst aspiration

progressed, the upper airway obstruction worsened, and attempts to insert an oropharyngeal airway failed, as the swelling completely occupied the oral cavity (figure 1); which also made intubation practically impossible. The baby became cyanosed and bradycardic, with the oxygen saturation dropping rapidly below 40%, and the baby became apnoeic. IV atropine 0.1mg was administered, and in spite of a tight face mask, ventilation was not possible resulting in a cannot intubate- cannot ventilate situation.

The surgeon quickly aspirated 40mls of milky fluid from the cyst, which collapsed, allowing an oropharyngeal airway to be inserted, and air entry improved. The cyanosis resolved and oxygen saturation rose to 100%. Induction progressed and successful tracheal intubation with size 2.5mm ID non-cuffed endotracheal tube was achieved and the throat packed with a wet gauze bandage (figure 2). Intra-operative analgesia was achieved with paracetamol 40mg IV, and anaesthesia was maintained with oxygen-isoflurane mixture and manual assisted ventilation. Monitoring included $SPO_2$, Pulse rate, and a precordial stethoscope to monitor heart sounds and air entry into the lungs. Marsupialisation of the cyst was done, and at the end of surgery, isoflurane was discontinued, the throat pack was removed, the throat suctioned, 100% administered and the baby extubated awake. He was transferred to the ward after post-operative care in PACU. The baby recovered and was discharged home 4 days later, to be followed up in the clinic.

Amylase detection in the aspirate could not be done due to lack of facilities, and the cyst wall was not biopsied for histology to confirm the diagnosis. Other radiological investigations such as CT and MRI in the phase of respiratory compromise were considered unwise, as sedation would worsen it.

l'induction progressait, l'obstruction des voies aériennes supérieures s'est aggravé et les tentatives d'insertion d'une oropharyngée ont échoué, car l'enflure occupait complètement la cavité buccale (Fig. 1) ; ce qui a rendu aussi l'intubation pratiquement impossible. Le bébé est devenu cyanosée et bradycardisants, avec une baisse rapide de la saturation en oxygène à moins de 40 %, et le bébé est devenu apnéique. Une atropine IV 0,1 mg a été administrée, et en dépit d'un masque serré, la ventilation n'était pas possible, ce qui a entraîné une situation d'incapacité d'intuber – incapacité de ventiler le malade.

Le chirurgien a rapidement aspiré 40 ml de liquide laiteux du kyste qui s'est effondré, permettant l'insertion d'une entrée aérienne oropharyngée et l'amélioration de l'entrée d'air. La cyanose est résolue et la saturation en oxygène est passée à 100 %. L'induction a progressé et l'intubation trachéale avec taille 2,5 mm ID sans manchettes endotrachéale a été accomplie et la gorge emballé avec un bandage de gaze humide (figure 2). Une analgésie peropératoire a été réalisée avec du paracetamol 40 mg IV, et l'anesthésie a été maintenue avec des mélange oxygène-isoflurane et ventilation manuellement assistée. La surveillance a inclus $SPO_2$, fréquence du pouls et un stéthoscope précordiale pour surveiller les bruits cardiaques et l'entrée d'air dans les poumons. La marsupialisation du kyste a été faite et à la fin de la chirurgie, l'isoflurane a été abandonnée, le pack de la gorge a été enlevé, la gorge aspiré, 100 % administré et l'extubé bébé éveillé. Il a été transféré à la salle d'hôpital après des soins postopératoires en USPA. Le bébé a récupéré et a est sorti de l'hôpital 4 jours plus tard, pour être suivi à la clinique.

La détection d'amylase dans l'aspiration ne pouvait se faire à cause d'un manque d'équipments, et on a fait une biopsie de la paroi du kyste pour l'histologie confirme le diagnostic. D'autres examens radiologiques tels que CT et IRM dans la phase de compromis respiratoire ont été jugées imprudentes d'autant plus que la sédation l'aurait aggravé.

The case report is to highlight the simple life saving approach of needle aspiration of the cyst to aid airway management.

**Discussion**

Congenital Sublingual/lingual cysts in neonates are usually benign tumours of the oral cavity and are rare; hence there is marked paucity of the literature on the subject[3]. They are usually less than 1cm in size, and may resolve spontaneously over a period of time. However a large symptomatic congenital ranula has been reported by Singh et al[3] where the swelling in a full term neonate increased in size causing difficulty in feeding and noisy breathing; with failure to thrive as in the case presented.

Congenital cysts are usually diagnosed soon after birth, but prenatal diagnosis by sonography is possible and ex- utero intrapartum treatment (EXIT) may be done[6]. Confirmation of diagnosis may be by cytology and enzyme studies of aspirate or histology after excision of the cyst. In the case reported, diagnosis could not be confirmed, as facilities for amylase detection was unavailable, and the cyst was marsupialised, rather than excised for histology.

Treatment of large congenital oral cysts is usually surgical by marsupialisation or surgical excision of the cyst. Huge cysts may fill the entire oral cavity and render tracheal intubation extremely difficult or impossible. In this case report, marsupialisation was planned, however anaesthetic challenge in securing the airway was a major problem. A cannot intubate, cannot ventilate situation occurred, and a common sense approach of collapsing the cyst by needle aspiration was adopted to save the situation, reduce morbidity and prevent mortality.

Le rapport de cas est de mettre en évidence l'approche simple et salvatrice de ponction à l'aiguille du kyste afin d'aider la gestion de la voie aérienne.

**Discussion**

Les kystes Sublinguaux/linguaux congénitaux chez les nouveau-nés sont habituellement des tumeurs bénignes de la cavité buccale et sont rares d'où la rareté marquée de publications sur le sujet[3]. Ils sont généralement moins de 1cm de taille et peuvent disparaître spontanément pendant une période de temps. Cependant une grande Grenouillette congénitale symptomatique a été rapportée par Singh et al.[3] où le gonflement chez un nouveau-né né à terme a augmenté en taille, causant des difficultés d'alimentation et une respiration bruyante ; avec une non croissance comme dans le cas présenté.

Les kystes congénitaux sont généralement diagnostiquées tôt après la naissance, mais le diagnostic prénatal par échographie est possible et un traitement ex-utero intrapartum (sortie) peut se faire[6]. La confirmation du diagnostic peut être par des études cytologique et d'enzyme d'aspirat ou histologie après l'excision du kyste. Dans le cas signalé, le diagnostic ne pouvait pas être confirmé puisque des équipements pour la détection d'amylase n'étaient pas disponibles et le kyste a été marsupialised, et non excisé pour l'histologie.

Le traitement de gros kystes oraux congénitaux est habituellement chirurgical par marsupialisation ou exérèse chirurgicale du kyste. Des kystes énormes peuvent remplir toute la cavité buccale et rendere l'intubation trachéale extrêmement difficile, voire impossible. Dans ce rapport de cas, la marsupialisation était prévu, mais le défi anesthésique dans la sécurisation de la voie aérienne a été un problème majeur. Une situation d'incapacité d'intuber, de ventiler s'est produite, et une approche reduction maximale du kyste par ponction à l'aiguille a été adoptée pour sauver la situation, réduire la morbidité et prévenir la mortalité.

Some literature has highlighted the safety of this simple approach and recommends it for any huge cystic lesion of the oral cavity irrespective of its pathology[2, 12, 13]. This approach was adopted in the case presented, and was found to be very rewarding, so we recommend it as a temporary measure, but definitive treatment should be surgical. This can be marsupialisation or excision of the cyst; and a strong point has been made for surgical excision to prevent recurrence [3]. Histology of the excised cyst will contribute to definitive diagnosis of the nature of the cyst. Marsupialisation was done in this case report, rather than excision biopsy; hence we lost the opportunity of confirming diagnosis by histology.

We conclude that in large symptomatic sublingual/lingual cysts occluding the oral cavity or causing airway obstruction, pre-operative needle aspiration of the cyst is a simple safe approach of assisting airway management.

## References

1. Karam O, Pfister R.E, Extarmaun P, La Scala G.C. Congenital Lingual Cysts. J Pediatr Surg 2007; 42 (4):25-27.

2. Kumar K.V, Joshi M, Vishwanath N, Akhtar T, Oak S.N. Neonatal lingual gastric duplication cyst: a rare case report. J Indian Assoc Pediatr Surg 2006; 11 (2): 97-98.

3. Singh G.B, Rai A.K, Arora R, Garg S, Abbey P, Shukla S. A rare case of Congenital simple cystic Ranula in a neonate. Case Reports in Otolaryngology 2013; 841930:1-3.

4. Soni A, Suyal P, Suyal A. Congenital Ranula in a newborn: a rare presentation. Indian Journal of Otolaryngology and Head and Neck Surgery 2012; 64 (3): 295-297.

5. Ameh E.A, Jimoh A.O, Rafindadi A.H, Shehu S.M. Sublingual gastric duplication cyst causing respiratory obstruction: case report. East Afr Med J 2007; 77: 394-395.

Certaines publications ont mis en évidence la sécurité de cette approche simple et la recommande pour toute lésion kystique énorme de la cavité buccale, quels que soient sa pathologie le[2, 12, 13]. Cette approche a été adoptée dans le cas présenté et s'est avérée très enrichissante, alors nous la recommandons comme mesure temporaire, mais un traitement définitif doit être chirurgical. Il peut s'agir de marsupialisation ou d'excision du kyste ; et l'emphase a été mise sur l'excision chirurgicale pour prévenir les récidives [3]. L'histologie du kyste excisé contribuera à un diagnostic définitif de la nature du kyste. La marsupialisation a été faite dans ce cas signalé plutôt que la biopsie de l'excision. C'est pourquoi nous n'avons pas pu confirmer le diagnostic par l'histologie.

Nous concluons qu'en cas de gros kystes symptomatiques sublinguaux/linguaux obstruant la cavité buccale ou provoquant une obstruction des voies aériennes, la ponction à l'aiguille préopératoire du kyste est une approche simple et sûre d'aider la gestion des voies respiratoires.

## Références

1. Karam O Pfister R.E, Extarmaun P, La Scala G.C. congénitales kystes linguales. J Pediatr Surg 2007 ; 42 (4): 25-27.

2. Kumar kakou, Joshi M, Vishwanath N, T Akhtar, chêne S.N. néonatale kyste lingual duplication gastrique : un rapport de cas rare. J indien Assoc Pediatr Surg 2006 ; 11 (2): 97-98.

3. Singh gaeremynck, Rai Brinda, Arora R, S Garg, Abbaye P, S. Shukla Un cas rare de congénitale Ranula kystique simple chez un nouveau-né. Rapports de cas en oto-rhino-laryngologie 2013 ; 841930:1-3.

4. Soni A, Suyal P, Suyal A. Grenouillette congénitale chez un nouveau-né : une présentation rare. Indian Journal d'oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervico-faciale 2012 ; 64 (3): 295-297.

5. Kyste de duplication gastrique Ameh E.A, Sublingual Shehu S.M. Jimoh A.O, Rakotomanga A.H, provoquant une obstruction respiratoire : rapport de cas. East Afr J Med 2007 ; 77 : 394-395.

6. Pires P, Pereira M, Machado L, Bonilla-Musoles F. Prenatal diagnosis of a Ranula with 2- and 3-Dimensional Sonography and Sonographically guided Aspiration. J Ultrasound Med 2006; 25:1499-1502.

7. Hall N.J, Ade-Ajayi N, PeeblesD, Pierro A. Antenatally Diagnosed duplication cyst of the tongue: modern imaging modalities assist perinatal management. Pediatric Surgery International 2005; 21 (4): 289-291.

8. Ugboko V.I, Hassan O, Prasad S, Amole A.O. Congenital Ranula: a case report. Journal of Dentistry for children 2009; 76 (1): 78-81.

9. Pandit R.T, Park A.H. Management of Paediaric Ranula. Otolaryngology- Head and Neck Surg. 2002; 127 (1): 115-118.

10. Crysdale W.S, Mendelsohn J.D, Conley S. Ranulas-Mucoceles of the oral cavity:Experience in 26 children. Laryngoscope 1988; 98 (3): 296-298.

11. Chen M.K, Gross E, Lobe T.E. Perinatal management of enteric duplication cysts of the tongue. Am J Perinatol 1997; 14:161-163.

12. Raveenthiran V, Sam C.J, Srinivasan K.S. A simple approach to airway management for a giant sublingual dermoid cyst. Can J Anesth 2006; 53(12): 1265-1266.

13. King R.C, Smith B.R, Burk J.L. Dermoid cyst in the floor of the mouth: Review of literature and case reports. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1994; 78:567-576.

6. Pires P, M Pereira, L Machado, le diagnostic prénatal de Bonilla-Musoles F. d'une Grenouillette avec 2 - et 3-Dimensional Sonography et Aspiration Sonographically guidée. J Ultrasound Med 2006 ; 25:1499-1502.

7. Hall mame fatim, Ade-Ajayi N, PeeblesD, Pierro A. diagnostiquées avant la naissance de kyste de duplication de la langue : les modalités d'imagerie modernes aider la direction périnatale. Chirurgie pédiatrique internationale 2005 ; 21 (4): 289-291.

8. Ugboko V.I, Hassan O, Prasad S, Grenouillette Amole A.O. congénitale : un rapport de cas. Journal de médecine dentaire pour enfants 2009 ; 76 (1): 78-81.

9. Pandit T.A, gestion du parc A.H. de grenouillette Paediaric. Oto-rhino-laryngologie - tête et cou Surg. 2002 ; 127 (1): 115-118.

10. Cavité Crysdale WS, Mendelsohn J.D, S. Ranulas-mucocèles de Conley de l'oral : expérience en 26 enfants. Laryngoscope 1988 ; 98 (3): 296-298.

11. Chen M.K, E brut, gestion Lobe T.E. périnatale des kystes entériques double emploi de la langue. Suis J Perinatol 1997 ; 14:161-163.

12. Raveenthiran V, Sam Cadoret, Srinivasan K.S. Une approche simple pour la gestion des voies aériennes pour un kyste dermoïde sublingual géant. Pouvez J Anesth 2006 ; 53 (12): 1265-1266.

13. Roi R.C, Smith B.R, kyste dermoïde de J.L. Burk dans le plancher de la bouche : examen des rapports de cas et de la littérature. Oral Surg Oral Pathol orale Med 1994 ; 78:567-576.