

Comorbilidades y evolución de la función pulmonar de pacientes con atresia esofágica congénita

Comorbidities and course of lung function in patients with congenital esophageal atresia

Dra. Ana Jové Blanco^a, Dra. Ana Gutiérrez Vélez^a, Dr. Gonzalo Solís-García^a,
Lic. Antonio Salcedo Posadas^a, Lic. Sara Bellón Alonso^a y Lic. Juan L. Rodríguez Cimadevilla^a

RESUMEN

Objetivo. Describir las características epidemiológicas, el seguimiento hospitalario y la evolución de los pacientes intervenidos por atresia esofágica y su repercusión en la función pulmonar.

Población y métodos. Estudio retrospectivo, longitudinal y analítico. Se revisaron las historias clínicas de pacientes con atresia esofágica nacidos entre 1996 y 2017. Se registraron datos perinatales, tipo de atresia, malformaciones asociadas, complicaciones respiratorias y digestivas, y los datos espirométricos durante tres años.

Resultados. Se incluyeron 97 pacientes. El tipo de atresia más frecuente fue el III y el síndrome más frecuente, la trisomía 21. El 13,4% fallecieron en el período neonatal. El 23,8% de los pacientes estuvo en seguimiento por Neumología y presentó como complicaciones respiratorias exacerbaciones (el 46,4%), sibilancias o asma (el 36%), neumonías (el 26,8%). El reflujo gastroesofágico fue factor de riesgo de sibilancias (OR 5,31; p = 0,002), exacerbaciones (OR 4,00; p = 0,009) y neumonías (OR 3,24; p = 0,02). En la primera espirometría (n = 20), un 65% presentaba patrón normal; un 30%, restrictivo, y un 5%, mixto. En la segunda espirometría (n = 19), un 42,1% presentaba patrón normal; un 31,6%, restrictivo; un 15,8%, obstructivo, y un 10,5%, mixto. En la tercera espirometría (n = 14), el 50% presentaba un patrón espirométrico normal; el 21,4%, restrictivo; el 14,3%, obstructivo, y un 14,3%, mixto.

Conclusiones. En nuestra muestra de pacientes, una importante proporción presentó comorbilidades respiratorias y digestivas. La función pulmonar empeoró progresivamente.

Palabras clave: atresia esofágica, pruebas de función respiratoria, niños, estudios de seguimiento, comorbilidad.

a. Sección de
Neumología
Pediátrica,
Hospital General
Universitario
Gregorio Marañón,
Madrid, España.

Correspondencia:

Dra. Ana Jové Blanco:
ana.jove@salud.madrid.
org

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 7-2-2019
Aceptado: 1-8-2019

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2020.25>
Texto completo en inglés:
<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2020.eng.25>

Cómo citar: Jové Blanco A, Gutiérrez Vélez A, Solís-García G, Salcedo Posadas A, et al. Comorbilidades y evolución de la función pulmonar de pacientes con atresia esofágica congénita. *Arch Argent Pediatr* 2020;118(1):25-30.

INTRODUCCIÓN

La atresia esofágica congénita es una enfermedad relativamente frecuente, presente en uno de cada 2500-4500 nacidos vivos.¹ Gracias a los avances en el campo de los cuidados intensivos neonatales, la generalización de la nutrición parenteral y la anticipación del tratamiento quirúrgico, la supervivencia de estos pacientes ha aumentado exponencialmente en los últimos años.² Este hecho ha permitido el conocimiento y el estudio de las comorbilidades asociadas a esta patología, a pesar de lo cual el seguimiento de estos pacientes aún no está estandarizado.

En, aproximadamente, la mitad de los pacientes, la atresia esofágica se asocia a otras malformaciones anatómicas (cardíacas, genitourinarias, gastrointestinales, músculo-esqueléticas o del sistema nervioso central).³ En ocasiones, estas malformaciones se agrupan en síndromes-asociaciones, como VACTERL (*vertebral defects, anal atresia, cardiac defects, tracheo-esophageal fistula, renal anomalies, and limb abnormalities*) o CHARGE (*coloboma, heart defects, choanal atresia, growth retardation, genital abnormalities, and ear abnormalities*). Asimismo, está presente, con frecuencia, en las trisomías de los cromosomas 18 (síndrome de Edwards) y 21 (síndrome de Down), en el síndrome de Di George y en el síndrome de Pierre-Robin.⁴

El seguimiento de estos pacientes se realiza desde el punto de vista

clínico, pero también desde el punto de vista funcional, mediante pruebas complementarias, como la espirometría forzada. Las complicaciones respiratorias están presentes a corto plazo, determinadas por la propia cirugía, y a largo plazo, condicionadas por la implicación del tracto respiratorio y el sistema gastrointestinal, que facilita la presencia de aspiraciones o disfagia.⁵ Los estudios realizados hasta el momento, en población pediátrica, demuestran alteraciones de las pruebas funcionales respiratorias, y el patrón restrictivo es el más frecuentemente encontrado, aunque los datos publicados al respecto son escasos.^{1,6}

Por todo esto, el objetivo principal de este estudio es describir las características epidemiológicas, el seguimiento hospitalario y la evolución de los pacientes intervenidos por atresia esofágica en nuestro Hospital, así como su repercusión en la función pulmonar.

MATERIAL Y MÉTODOS

Se trata de un estudio longitudinal retrospectivo, descriptivo y analítico, realizado en un hospital infantil español de referencia nacional en Neonatología y Cirugía Pediátrica. Se revisaron las historias clínicas de los pacientes con diagnóstico de atresia esofágica congénita nacidos entre enero de 1996 y diciembre de 2017.

Se incluyeron en el estudio todos aquellos pacientes que fueron intervenidos por atresia esofágica en nuestro Centro durante el período de estudio, con independencia del centro de nacimiento, de los que hubiera registro en las historias clínicas electrónicas o en papel. Se excluyeron, para el estudio de la función pulmonar, los pacientes que fallecieron en el período neonatal, a los que no se realizó seguimiento y aquellos que no podían realizar la espirometría por edad o patología de base. Se registraron datos perinatales, entre los que se incluían edad gestacional, presencia de polihidramnios, pauta de maduración pulmonar y peso al nacer, así como también datos de anomalías cromosómicas y malformaciones asociadas. Se recogió el tipo de atresia según la

clasificación de Ladd⁷ (Tabla 1), el tipo de cirugía y el tiempo desde el diagnóstico hasta esta. Con respecto a las complicaciones respiratorias, se cuantificó el número de exacerbaciones respiratorias, neumonías, episodios de sibilancias recurrentes o asma y la presencia de traqueomalacia. Las complicaciones digestivas consideradas fueron reflujo gastroesofágico y síndrome aspirativo.

Se consideraron exacerbaciones respiratorias aquellos episodios de empeoramiento respiratorio diagnosticados clínicamente por incremento de la tos o dificultad respiratoria, cambios en el esputo o empeoramiento de la auscultación pulmonar. Se definieron como neumonía solo aquellos episodios en los que se identificara radiológicamente una consolidación. En la categoría de episodios de sibilancias/asma, se incluyeron tanto los broncoespasmos agudos como todos aquellos procesos respiratorios en los que aparecieran sibilancias en la auscultación. Los diagnósticos de traqueomalacia, reflujo gastroesofágico y síndrome aspirativo se evaluaron en aquellos pacientes en los que figuraba así reflejado en el seguimiento por parte de los distintos médicos especialistas.

Se registraron los pacientes que habían estado en seguimiento por la Unidad de Neumología Pediátrica de nuestro Hospital, así como los resultados de tres de las espirometrías realizadas durante este. Los datos espirométricos evaluados fueron los correspondientes al volumen espiratorio forzado en el primer segundo (VEF1), la capacidad vital forzada (CVF) y el cociente entre ambos (VEF1/CVF). Se recogieron los datos de la primera espirometría que hubiera realizado el paciente que cumpliera con los estándares de aceptabilidad y reproducibilidad necesarios para considerar la prueba como válida, y de otras dos realizadas 1 y 3 años tras la primera. Se consideró patrón obstructivo una $VEF1/CVF < \text{límite inferior de la normalidad (LIN)}$ y patrón restrictivo una $CVF < 80\%$ del valor teórico. Se obtuvieron datos acerca del tratamiento que habían precisado estos pacientes (aerosolterapia

TABLA 1. Clasificación de Ladd.⁷ Tipos de atresia

Atresia	Características
I	Atresia de esófago con ambos cabos esofágicos ciegos sin fístula traqueoesofágica
II	Atresia de esófago con fístula traqueoesofágica superior y cabo inferior ciego
III	Atresia de esófago con fístula traqueoesofágica inferior y cabo superior ciego
IV	Atresia de esófago con fístula traqueoesofágica en ambos cabos del esófago
V	Fístula traqueoesofágica sin atresia de esófago (fístula en H)

y tratamiento antirreflujo).

El estudio fue aprobado para su realización por el Comité de Ética en Investigación Clínica de nuestro Centro y fue realizado siguiendo los principios establecidos por la Declaración de Helsinki.

Para la descripción de las variables cuantitativas, se utilizaron la mediana y el rango y, para las cualitativas, porcentajes. Para la comparación de proporciones, se utilizó la prueba de χ^2 de Fisher y, para la obtención de medidas de fuerza de asociación (*odds ratio*, OR), la regresión logística binaria. Para la comparación de medias, se usó la prueba T de Student. Se estableció el nivel de significación estadística en

$p < 0,05$ y, para las comparaciones múltiples, se realizó el ajuste según la corrección de Bonferroni-Holm. El análisis estadístico se llevó a cabo con el programa SPSS versión 18.

RESULTADOS

Se incluyeron 97 pacientes, el 57,7 % de los cuales fueron varones. La media de peso al nacer fue de 2307 gramos. El tipo de atresia y de síndrome malformativo asociado se detallan en las *Tablas 1 y 2*, respectivamente. Se encontró fístula traqueoesofágica en 77 pacientes (el 79,4 %). Los datos perinatales de edad gestacional, polihidramnios y maduración pulmonar se resumen en la *Tabla 3*.

TABLA 2. Frecuencia de tipos de atresia y síndromes asociados

Tipo de atresia (n = 97)	I	18 (18,6 %)
	II	1 (1 %)
	III	72 (74,2 %)
	IV	3 (3,1 %)
	V	1 (1 %)
	Desconocido	2 (2,1 %)
Síndromes asociados (n = 97)	Síndrome de Down	9 (9,3 %)
	VACTERL*	8 (8,2 %)
	Síndrome de Edwards	3 (3,1 %)
	Otro	6 (6,2 %)
	Ninguno	71 (72,2 %)

La secuencia VACTERL incluye defectos vertebrales, atresia anal, defectos cardíacos, fístula traqueoesofágica, anomalías renales y anomalías en las extremidades.

TABLA 3. Datos perinatales

Polihidramnios (n = 38)	Total	38 (39,2 %)
	I	14 (77,7 %)
	II	0
	III	20 (27,8 %)
	IV	0
	V	0
Edad gestacional (n = 97)	< 28 semanas	2 (2,1 %)
	29-31	9 (9,3 %)
	32-36	29 (29,9 %)
	RNT	57 (58,8 %)
Maduración pulmonar (n = 97)	Completa	14 (43,8 %)
	Incompleta	3 (9,4 %)
	No	5 (15,6 %)
	Desconocido	10 (31,3 %)
Peso al nacer (n = 97)	< 1000 g	5 (5,2 %)
	1000-2000 g	30 (30,9 %)
	2000-3000 g	43 (44,3 %)
	3000-4000 g	17 (17,5 %)
	> 4000 g	1 (1 %)

RNT: recién nacido de término.

Se muestra el porcentaje de polihidramnios en cada tipo de atresia. La maduración pulmonar se refiere a los recién nacidos < 34 semanas.

De los 97 pacientes incluidos, 13 fallecieron en el período neonatal (el 13,4 %). La mortalidad fue mayor en los pacientes polimalformados o con anomalías cromosómicas (el 34,6 %) que en el resto (el 5,7 %, $p < 0,001$). Fallecieron todos los pacientes con síndrome de Edwards (3), 2 de los 8 pacientes con síndrome de VACTERL y 1 paciente de los 10 con síndrome de Down. Los pacientes fallecidos tuvieron un peso al nacer menor que los pacientes que sobrevivieron (1705 vs. 2402 g, $p = 0,002$).

En cuanto a la cirugía, la vía de acceso más empleada fue la toracotomía (71 pacientes, el 73,2 %), seguida por la toracoscopía en 6 pacientes, y no se encontraron diferencias significativas de mortalidad entre ellas ($p = 0,44$). En un 20,6 % (20) de los pacientes, no se encontraron datos sobre el tipo de abordaje quirúrgico. La mediana de días hasta la primera cirugía fue de 1 (rango: 0-163) con una mediana de días de ingreso en Neonatología de 24 días (rango: 0-223).

De los 84 pacientes que sobrevivieron, 20 (el 23,8 %) estuvieron en seguimiento por el Servicio de Neumología Infantil. Los supervivientes presentaron las siguientes complicaciones respiratorias en orden de frecuencia: exacerbaciones respiratorias (42 pacientes, el 50 %), episodios de sibilancias o asma (38 pacientes, el 45,2 %), neumonías (26 pacientes, el 30,9 %; 5 presentaron un único episodio y 21,

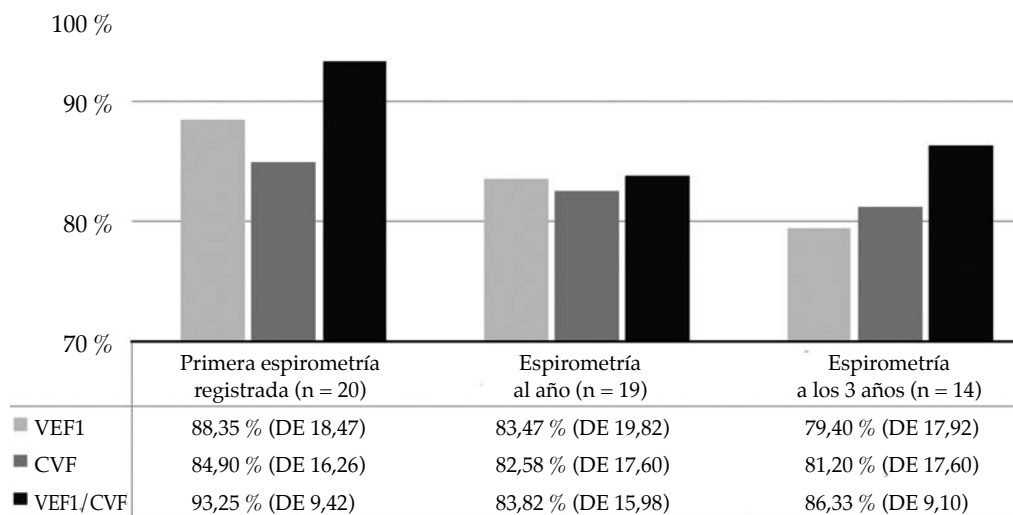
dos o más) y traqueomalacia (21 pacientes, el 25 %). En cuanto a las complicaciones digestivas, 56 (el 66,7 %) presentaron reflujo gastroesofágico y 5 (el 5,9 %), síndrome aspirativo recurrente. Los pacientes con reflujo gastroesofágico tuvieron mayor riesgo de presentar episodios de sibilancias (OR 5,31, $p = 0,002$), exacerbaciones respiratorias (OR 4,00, $p = 0,009$) y neumonías (OR 3,24, $p = 0,02$).

Con respecto al tratamiento, 40 pacientes (el 41,4 %) tenían tratamiento inhalado de rescate o mantenimiento. Precisarons tratamiento antirreflujo con ranitidina o inhibidores de la bomba de protones 65 pacientes (el 67 %). Hasta el 30,9 % (30 pacientes) recibieron tratamiento para ambas patologías. Se produjo la recurrencia de la fístula en 19 pacientes (el 22,6 %).

De aquellos pacientes a los que se realizó el seguimiento, se efectuaron estudios espirométricos evaluables en 20 (el 23,8 %). No se obtuvieron datos de la función pulmonar de los 64 (el 76,2 %) pacientes restantes por la incapacidad para realizar la técnica espirométrica adecuada (edad, patología de base, falta de colaboración) o por el alta en Neumología previa a la primera espirometría, por buena evolución o por el traslado a otro centro. Los datos de la función pulmonar relativos al VEF1, CVF y el cociente entre ambos se resumen en la *Figura 1*.

En la primera espirometría realizada ($n = 20$), 13 pacientes (el 65 %) presentaban un patrón

FIGURA 1. Parámetros de función pulmonar



Medias de capacidad vital forzada (CVF), volumen espiratorio forzado en el primer segundo (VEF1) y cociente VEF1/CVF, en las espirometrías basales, al año y a los tres años.

DE: desvío estándar.

espirométrico normal, mientras que 6 (el 30 %) presentaban un patrón restrictivo y 1 paciente (el 5 %), uno mixto. Los pacientes que habían tenido algún episodio de neumonía obtuvieron un VEF1 disminuido en esta primera espirometría respecto a los pacientes sin episodios de neumonía (79,7 vs. 98,9, $p = 0,016$). En la segunda espirometría, realizada 1 año tras la primera ($n = 19$), 8 pacientes (el 42,1 %) presentaban un patrón espirométrico normal; 6 (el 31,6 %), uno restrictivo; 3 (el 15,8 %), obstructivo, y 2 (el 10,5 %), un patrón mixto. En la tercera espirometría, realizada 3 años tras la primera ($n = 14$), 7 pacientes presentaban un patrón espirométrico normal; 3, restrictivo; 2, obstructivo, y otros 2, mixto. En esta espirometría, de nuevo los pacientes con episodios de neumonía presentaron menor VEF1, pero los resultados no alcanzaron la significación estadística (72,2 vs. 90,2, $p = 0,053$).

DISCUSIÓN

El presente estudio describió una cohorte de pacientes intervenidos de atresia esofágica en un hospital pediátrico de referencia, a lo largo de los últimos 20 años. Tanto las características clínicas y epidemiológicas al momento del diagnóstico como la supervivencia y las asociaciones con síndromes polimalformativos fueron similares a las encontradas en estudios previos.^{5,8}

En nuestro estudio, un porcentaje importante de los pacientes presentó complicaciones digestivas y respiratorias a lo largo del seguimiento. La complicación más frecuente a nivel global fue el reflujo gastroesofágico, hecho que ya había sido descrito anteriormente.⁹ Dos tercios de los pacientes requirieron tratamiento antirreflujo. La segunda complicación en frecuencia fueron las infecciones respiratorias. Presentaron exacerbaciones casi la mitad de los pacientes; neumonías, un 27,4 %, y patología relacionada con síndrome aspirativo, hasta un 5 %. Cabe destacar que un 21,4 % de los pacientes presentó, al menos, dos episodios de neumonía; este alto porcentaje de neumonías recurrentes ya había sido descrito en otros estudios¹⁰ y subrayaba la importancia de un diagnóstico y tratamiento agresivo y precoz en estos pacientes cuando presentaban una exacerbación respiratoria. Además, nuestro estudio encontró relación entre la patología gastroesofágica y la respiratoria, y presentaron mayor riesgo de sibilancias, exacerbaciones y neumonías los pacientes con diagnóstico de reflujo gastroesofágico, lo cual apoyó la

necesidad de un abordaje multidisciplinar de estos pacientes.

Más de un tercio de los pacientes tenían un patrón funcional alterado en el momento de la primera espirometría, y, con el paso del tiempo, el porcentaje de pacientes con función pulmonar alterada fue aún mayor. Las alteraciones del desarrollo del sistema respiratorio y las complicaciones precoces condicionaron, por tanto, la evolución de la función pulmonar de estos pacientes, lo que dio lugar, frecuentemente, a patrones patológicos en la espirometría.⁴ Algunos de los mecanismos que justificaron esta variabilidad en el patrón de función pulmonar fueron las deformidades de la caja torácica secundarias a la operación quirúrgica, la hiperreactividad bronquial, la inflamación persistente y la presencia de traqueomalacia.⁶

En nuestra cohorte de pacientes, predominaba el patrón restrictivo frente al obstructivo y al mixto. En estudios previos, los resultados habían sido dispares, con trabajos que describían mayor prevalencia de patrones restrictivos⁵ y otros en los que predominaba el patrón obstructivo.^{6,10} Sin embargo, en nuestro caso y dado el bajo porcentaje de pacientes en los que se disponía de estos datos, las conclusiones al respecto debieron extraerse con cautela, ya que era posible que los pacientes en los que se esperaba una alteración más importante de la función pulmonar fueran, precisamente, aquellos en los que no fue posible realizar pruebas con una técnica adecuada.

Tanto la capacidad pulmonar forzada como el VEF1 disminuyeron con el tiempo durante el seguimiento de los pacientes, lo que pareció traducir un deterioro progresivo desde los primeros años. En este sentido, y aunque la muestra de pacientes con función pulmonar en edad pediátrica fuera reducida, nuestros resultados concordaron con los publicados previamente, en los que el deterioro de la función pulmonar y la aparición de patrones alterados comenzaba ya en los primeros años de vida. Aunque los datos publicados antes sobre la función pulmonar en los pacientes pediátricos con atresia esofágica se redujeron a estudios con pocos pacientes,¹⁰⁻¹² en los adultos sí había sido descrita una mayor prevalencia de asma, alergias, complicaciones infecciosas y menor calidad de vida, relacionada con problemas respiratorios¹³ a largo plazo. Pese a ello, llamó la atención que menos de la cuarta parte de los pacientes hubieran recibido seguimiento por el neumólogo pediátrico de nuestro centro, y no se pudo precisar si se

debió a la ausencia de síntomas en los primeros años o a que continuaban el seguimiento en su hospital de referencia tras la intervención. Esta circunstancia, unida a la alta prevalencia de complicaciones en los primeros años de vida, debe hacer reflexionar sobre la necesidad de un enfoque multidisciplinar de esta patología desde su inicio.^{14,15}

Entre las limitaciones de este estudio, se encontraron su carácter unicéntrico y la recogida de datos de manera retrospectiva, que pudo haber dado lugar a distintos sesgos que influyeron en las conclusiones del estudio. Además, como ya se comentó, de los casos de atresia esofágica investigados, únicamente, se dispuso de datos de la función pulmonar de un 25 % de los pacientes, lo que dificultó la obtención de conclusiones significativas. Esto pudo deberse tanto a la baja tasa de seguimiento como a la dificultad de realización de una maniobra espirométrica en pacientes que, por lo general, se presentaron con pluripatología.

Como fortalezas del estudio, se pudo destacar la amplia muestra de pacientes, que supuso una de las mayores series recogidas en la literatura sobre este tema, así como la recogida de datos de las historias clínicas, epidemiológicos, perinatales, y de seguimiento posterior por la Unidad de Neumología Pediátrica.

La supervivencia de estos pacientes ha aumentado en las últimas décadas, aunque con un importante impacto en la calidad de vida en relación con la morbilidad respiratoria y digestiva, por lo que son necesarios nuevos estudios prospectivos para implantar un protocolo de seguimiento multidisciplinar que permita la detección de las complicaciones de forma precoz y evite el deterioro de la función pulmonar.

CONCLUSIONES

En nuestra muestra, se observó una relación entre la patología gastroesofágica y la respiratoria, y presentaron mayor riesgo de sibilancias, exacerbaciones y neumonías los pacientes con diagnóstico de reflujo gastroesofágico. Asimismo, predominaba el patrón restrictivo frente al obstructivo y el mixto en el estudio de la función

pulmonar. Tanto la capacidad pulmonar forzada como el VEF1 disminuyeron con el tiempo durante el seguimiento de los pacientes, lo que pareció traducir un deterioro progresivo desde los primeros años. ■

REFERENCIAS

1. Pedersen RN, Calzolari E, Husby S, Garne E. Oesophageal atresia: prevalence, prenatal diagnosis and associated anomalies in 23 European regions. *Arch Dis Child.* 2012; 97(3):227-32.
2. Kovesi T, Rubin S. Long-term complications of congenital esophageal atresia and/or tracheoesophageal fistula. *Chest.* 2004; 126(3):915-25.
3. Shaw-Smith, C. Oesophageal atresia, tracheo-oesophageal fistula, and the VACTERL association: Review of genetics and epidemiology. *J Med Genet.* 2006; 43(7):545-54.
4. Patria MF, Ghislanzoni S, Macchini F, Lelii M, et al. Respiratory Morbidity in Children with Repaired Congenital Esophageal Atresia with or without Tracheoesophageal Fistula. *Int J Environ Res Public Health.* 2017; 14(10):E1136.
5. Olbers J, Gatzinsky V, Jönsson L, Friberg LG, et al. Physiological studies at 7 years of age in children born with esophageal atresia. *Eur J Pediatr Surg.* 2015; 25(5):397-404.
6. Dittrich R, Stock P, Rothe K, Degenhardt P. Pulmonary outcome of esophageal atresia patients and its potential causes in early childhood. *J Pediatr Surg.* 2017; 52(8):1255-9.
7. Ladd WE. The surgical treatment of esophageal atresia and tracheoesophageal fistulas. *N Engl J Med.* 1944; 230(21):625-37.
8. Deurloo JA, Ekkelkamp S, Schoorl M, Heij HA, et al. Esophageal atresia: historical evolution of management and results in 371 patients. *Ann Thorac Surg.* 2002; 73(1):267-72.
9. Tovar JA, Frago AC. Gastroesophageal reflux after repair of esophageal atresia. *Eur J Pediatr Surg.* 2013; 23(3):175-81.
10. Pedersen RN, Markow S, Kruse-Andersen S, Qvist N, et al. Long-term pulmonary function in esophageal atresia-A case-control study. *Pediatr Pulmonol.* 2017; 52(1):98-106.
11. Agrawal L, Beardsmore CS, MacFadyen UM. Respiratory function in childhood following repair of oesophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *Arch Dis Child.* 1999; 81(5):404-8.
12. Beucher J, Wagnon J, Daniel V, Habonimana E, et al. Long-term evaluation of respiratory status after esophageal atresia repair. *Pediatr Pulmonol.* 2013; 48(2):188-94.
13. Sistonen S, Malmberg P, Malmström K, Haahntela T, et al. Repaired oesophageal atresia: respiratory morbidity and pulmonary function in adults. *Eur Respir J.* 2010; 36(5):1106-12.
14. DeBoer EM, Prager JD, Ruiz AG, Jensen EL, et al. Multidisciplinary care of children with repaired esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *Pediatr Pulmonol.* 2016; 51(6):576-81.
15. Thakkar HS, Hewitt R, Cross K, Hannon E, et al. The multi-disciplinary management of complex congenital and acquired tracheo-oesophageal fistulae. *Pediatr Surg Int.* 2019; 35(1):97-105.