RODRIGO BADOTTI ANTUNES

Avaliação do volume orbitário nos avanços frontofaciais

Tese apresentada à Faculdade de Medicina
da Universidade de São Paulo para obtenção
do título de Doutor em Ciências

Programa de Clínica Cirúrgica

Orientador: Prof. Dr. Nivaldo Alonso

SÃO PAULO
2014

Dados Internacionais de Catalogação na Publicação (CIP)

Preparada pela Biblioteca da
Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo

©reprodução autorizada pelo autor

Antunes, Rodrigo Badotti

Avaliação do volume orbitário nos avanços frontofaciais / Rodrigo Badotti
Antunes. -- São Paulo, 2014.

Tese(doutorado)--Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo.
Programa de Clínica Cirúrgica.
Orientador: Nivaldo Alonso.

Descritores: 1.Órbita/anormalidades 2.Anormalidades craniofaciais
3.Craniossinostoses 4.Osteotomia 5.Osteotomia de Le Fort 6.Tomografia
computadorizada por raios X 7.Imagem tridimensional/métodos

USP/FM/DBD-411/14

Certeza

De tudo ficaram 3 coisas:

A certeza de que estamos sempre começando...

A certeza de que precisamos continuar...

A certeza de que seremos interrompidos antes de terminar...

Portanto devemos:

Fazer da interrupção um novo caminho...

Da queda, um passo de dança...

Do medo, uma escada...

Do sonho, uma ponte...

Da procura, um encontro...

Fernando Pessoa

*Para a minha querida esposa Geísa Louzada Badotti,
seu amor torna minha vida mais feliz.*

AGRADECIMENTOS

Tudo começou com a preparação de um artigo para publicação internacional, quando numa indagação surgiu a possibilidade de ser mais. Foi desta forma que o Prof. Dr. Nivaldo Alonso despertou em mim o desejo de concluir um doutorado. E é justamente esta orientação e incentivo que venho hoje agradecer em especial. Foram muitas horas de conversa, muitas dúvidas esclarecidas e muita generosidade em dividir seu conhecimento comigo. Isto é inestimável. Sempre permanecerá em minha memória sua nobre habilidade de propagar o saber.

Ao Prof. Dr. Marcus Castro Ferreira, por permitir a execução deste trabalho.

Sem dúvida muitas pessoas me auxiliaram nesta caminhada para tornar este dia possível, pessoas às quais venho prestar minha homenagem e gratidão.

Aos membros que participaram da banca do Exame de Qualificação: Prof. Dr. Cassio Eduardo Raposo do Amaral, Prof. Dr. Max Domingues Pereira, Prof. Dr. Victor Diniz Pochat e Prof. Dr. José Carlos Marques de Faria. Agradeço pela atenção e pelas inúmeras sugestões adequadas que enriqueceram ainda mais esta tese.

Aos amigos do Centro de Tecnologia da Informação Renato Archer, na divisão do Laboratório de Tecnologias Tridimensionais: Dr. Jorge Vicente Lopes da Silva, Anderson Aparecido Camilo, Ailton Moreira da Silva, Paulo Henrique Amorim, Dr. Pedro Yoshito Noritomi, Daniel Takanori Kemmoku, e aos demais integrantes da equipe, pelo auxílio com as tecnologias tridimensionais que tornaram viáveis as medidas utilizadas neste trabalho.

Aos meus pais, Zildemir e Maria Regina, pelo amor incondicional.

Aos meus sogros, Joaquim Manoel e Cirlene, pelo apoio, compreensão e carinho.

Às bibliotecárias da Universidade Federal Fluminense: Ana Lúcia Torres Marinho e Verônica Esteves, pela colaboração na busca dos artigos utilizados na bibliografia.

Ao amigo Aristides Tadeu Correa, pelos seus esclarecimentos nas análises estatísticas.

À grande amiga Maria Helena Vargas, pela sua dedicação exemplar, apoio incondicional, entusiasmo para a concretização deste trabalho e por todas as nossas conversas engrandecedoras.

À Eliane Falconi Monico Gazetto, pela acolhida e direcionamento durante todas as etapas.

À Gisela Edith Dietrich Damião, por sempre ter uma palavra de incentivo e motivação.

Ao amigo Cristiano Tonello, por compartilhar comigo desta jornada, com votos de sucesso em seus caminhos.

Esta tese está de acordo com as seguintes normas, em vigor no momento desta publicação:

Referências: adaptado de *International Committee of Medical Journals Editors* (Vancouver).

Universidade de São Paulo. Faculdade de Medicina. Serviço de Biblioteca e Documentação.
Guia de apresentação de dissertações, teses e monografias.

Elaborado por Anneliese Carneiro da Cunha, Maria Julia de A. L. Freddi, Maria F. Crestana, Marinalva de Souza Aragão, Suely Campos Cardoso, Valéria Vilhena. 3ª ed. São Paulo: Divisão de Biblioteca e Documentações; 2011.

Abreviatura dos títulos dos periódicos de acordo com *List of Journals Indexed in Index Medicus*.

SUMÁRIO

Lista de abreviaturas e siglas	
Lista de quadros	
Lista de tabelas	
Lista de figuras	
Lista de gráficos	
Resumo	
Summary	
1 INTRODUÇÃO	1
1.1 Osteotomias do Terço Médio da Face Convencional	3
1.2 Histórico do Alongamento Ósseo Gradual	4
1.3 Vantagens do Alongamento Ósseo Gradual	7
1.4 Métodos de Imagem para Avaliação: Tomografia Computadorizada <i>versus</i> Cefalometria	9
1.5 Volume Orbital nos Pacientes Portadores de Craniofaciossinostose Sindrômica e Índices de Volumes Orbitais Normais	11
1.6 Avanços Craniofaciais nos Pacientes Portadores de Craniofaciossinostose Sindrômica	12
2 OBJETIVOS	15
3 MÉTODOS	17
3.1 Casuística	18
3.1.1 Critérios de inclusão	20
3.2 Técnica Operatória	20
3.2.1 Osteotomia Le Fort III	21
3.2.2 Osteotomia Frontofacial Monobloco	22
3.3 Protocolo para Alongamento Ósseo Gradual	23
3.4 Protocolo para Realização dos Exames Tomográficos	23
3.5 Técnica de Volumetria Orbital	24
3.5.1 Imagens DICOM importadas no programa InVesalius	24
3.5.2 Segmentação de imagens no programa InVesalius	26
3.5.3 Superfície 3D	29
3.5.4 Arquivo STL	30
3.5.5 Modelagem 3D no Programa Magics	31
3.5.5.1 Etapas necessárias para proceder ao fechamento da cavidade orbital	32
3.6 Aferição dos avanços craniofaciais lineares e seus vetores - Programa Rhinoceros	42
3.6.1 Protocolo 3D (Rhinoceros)	42
3.6.1.1 Definição dos pontos craniométricos e planos de referência	42
3.6.2 Mensurações dos movimentos craniofaciais lineares e seus vetores	47

3.7	Avaliação Tomográfica Tridimensional	48
3.8	Análise Estatística	49
4	RESULTADOS	50
4.1	Volume Orbital	51
4.2	Variação dos Volumes Orbitais	53
4.3	Simetria dos Volumes Orbitais	54
4.3.1	Simetria dos volumes orbitais Grupo LF	54
4.3.2	Simetria dos volumes orbitais Grupo MB	55
4.4	Volume Orbital Pré-Operatório (Relação aos Valores Normais)	55
4.5	Volume Orbital Pós-Operatório (Relação aos Valores Normais)	56
4.6	Variações do Volume Orbital (Relação aos Valores Normais)	57
4.7	Avanços Orbitais - Avaliação Entre Grupos	59
4.7.1	Ponto OD e OE	59
4.8	Avanços Orbitais - Avaliação Intra Grupos	61
4.8.1	Ponto OD e OE	61
4.9	Ponto A	64
4.10	Ponto F	64
4.11	Correlação	65
4.12	Pacientes no Pré e Pós-Operatórios	66
5	DISCUSSÃO	69
5.1	Volume Orbital	71
5.1.1	Volume orbital: grupos LF e MB	72
5.1.2	Grupo LF e MB: comparação aos índices normais de volumes orbitais	75
5.2	Avanços Craniofaciais	76
5.3	Resultante dos Movimentos Craniofaciais	78
5.3.1	Movimento horizontal	78
5.3.2	Movimento vertical	79
5.3.3	Movimento lateral	80
5.4	Correlação dos avanços craniofaciais com a variação dos volumes orbitais nos Grupos LF e MB	81
5.4.1	Protocolo: definindo parâmetros cirúrgicos quantitativos aos avanços craniofaciais	81
6	CONCLUSÕES	86
7	ANEXOS	88
8	REFERÊNCIAS	97
	APÊNDICE	112

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

A	- Ponto maxila
Ba	- Básio
CAPPesq	- Comissão de Ética para Análise de Projetos de Pesquisa
CS	- Craniofaciossinostose síndrômica
DICOM	- <i>Digital Imaging and Communications in Medicine</i>
DO	- Distração osteogênica
F	- Ponto frontal
HC-FMUSP	- Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo
HU	- Hounsfield Unit
LF	- Grupo Le Fort III
MB	- Grupo monobloco
Na	- Násio
OD	- Ponto orbital direito
OE	- Ponto orbital esquerdo
RED	- <i>Rigid external device</i>
S	- Sela turca
SAHOS	- Síndrome da apneia e hipopneia obstrutiva do sono
STL	- Arquivo StereoLithography

LISTA DE FIGURAS

Figura 1 - Visão esquemática da osteotomia Le Fort III	21
Figura 2 - Visão esquemática da osteotomia frontofacial em monobloco.....	23
Figura 3 - Imagens sendo carregadas e pré-visualizadas no InVesalius.....	25
Figura 4 - Exemplos de imagens incorretas: com ruídos (esquerda); espaçamento incorreto (direita)	26
Figura 5 - Segmentação do osso (crânio-face)	28
Figura 6 - Sem preencher e adicionando segmentação (cavidade orbital).....	29
Figura 7 - Modelo 3D	29
Figura 8 - Processo de segmentação concluído em 3D.....	30
Figura 9 - Falhas ósseas em paredes orbitais	32
Figura 10 - Falha óssea selecionada e expandida	33
Figura 11 - Área expandida deletada	34
Figura 12 - Falha óssea preenchida.....	34
Figura 13 - Limite anterior selecionado	35
Figura 14 - Cavidade orbital destacada em verde.....	35
Figura 15 - Margens orbitais selecionados.....	36
Figura 16 - Órbitas separadas do crânio	37
Figura 17 - Área destacada em vermelho: região interna das órbitas.....	37
Figura 18 - Órbitas unidas; esquerda selecionada	38
Figura 19 - Órbitas separadas.....	38
Figura 20 - Margens irregulares - Criando triângulos.....	39
Figura 21 - Regularizando as margens pela criação triângulos	39
Figura 22 - Margens regularizadas - Vista inferior	40
Figura 23 - Margens regularizadas - Vista anterior	40

Figura 24 - Fechamento abertura anterior - Formação estrutura sólida e aferição dos volumes orbitais.....	41
Figura 25 - Pontos craniométricos	43
Figura 26 - Ponto S (Sela turca).....	44
Figura 27 - Plano sagital mediano.....	44
Figura 28 - Plano axial	45
Figura 29 - Plano coronal	45
Figura 30 - Sistema de coordenadas	46
Figura 31 - Sobreposição de imagens, nos momento pré-operatório e pós-operatório.....	47
Figura 32 - Paciente submetido à osteotomia frontofacial em monobloco e uso de distrator interno.....	66
Figura 33 - Paciente submetido à osteotomia frontofacial em monobloco e uso de distrator interno.....	67
Figura 34 - Paciente submetido à osteotomia Le Fort III e uso de RED	68

LISTA DE GRÁFICOS

Gráfico 1 -	Avaliação dos momentos pré e pós-operatório dos grupos LF e MB do volume da órbita direita	51
Gráfico 2 -	Avaliação dos momentos pré e pós-operatório dos grupos LF e MB do volume da órbita esquerda	52
Gráfico 3 -	Avaliação dos grupos LF e MB dos momentos pré e pós-operatório do volume da órbita direita	52
Gráfico 4 -	Avaliação dos grupos LF e MB dos momentos pré e pós-operatório do volume da órbita esquerda	53
Gráfico 5 -	Avaliação dos grupos LF e MB da variação do volume da órbita direita	53
Gráfico 6 -	Avaliação dos grupos LF e MB da variação do volume da órbita esquerda	54
Gráfico 7 -	Avaliação das órbitas direita e esquerda, quanto à simetria pré-operatória e pós-operatória, para o Grupo LF	54
Gráfico 8 -	Avaliação das órbitas direita e esquerda, quanto à simetria pré e pós-operatória, para o Grupo MB	55
Gráfico 9 -	Volume OD - Pré-operatório (relação aos valores normais)	56
Gráfico 10 -	Volume OE - Pré-operatório (relação aos valores normais).....	56
Gráfico 11 -	Volume OD - Pós (relação aos valores normais).....	57
Gráfico 12 -	Volume OE - Pós (relação aos valores normais)	57
Gráfico 13 -	Variação do Volume OD comparados aos índices normais de volumes orbitais	58
Gráfico 14 -	Variação do volume OE comparados aos índices normais de volumes orbitais	58
Gráfico 15 -	Avaliação das OD e OE da resultante da magnitude dos avanços orbitais	59
Gráfico 16 -	Avaliação dos grupos LF e MB nas OD e OE do avanço horizontal	60
Gráfico 17 -	Avaliação dos grupos LF e MB nas órbitas direita e esquerda do avanço vertical	60

Gráfico 18 - Avaliação dos grupos LF e MB nas órbitas direita e esquerda do avanço lateral	61
Gráfico 19 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB da resultante	62
Gráfico 20 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB do avanço horizontal	62
Gráfico 21 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB do avanço vertical	63
Gráfico 22 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB do avanço lateral	63
Gráfico 23 - Avanço da maxila (A) nos grupos LF e MB	64
Gráfico 24 - Correlação da variação do volume orbital x resultante avanço OD (A = LF e B = MB)	65
Gráfico 25 - Correlação da variação do volume orbital x resultante avanço OE (A = LF e B = MB)	65

RESUMO

Antunes RB. *Avaliação do volume orbitário nos avanços frontofaciais* [tese]. São Paulo: Faculdade de Medicina, Universidade de São Paulo; 2014.

Craniofaciossinostose sindrômica (CS) é uma desordem congênita associada às mutações dos genes FGFR1, FGFR2 e FGFR3. Ocasiona uma fusão prematura das suturas craniofaciais, levando à deficiência no crescimento do crânio e terço médio da face. A severidade dos sintomas relacionados à hipertensão intracraniana, aparelho respiratório (síndrome da hipopneia-apneia do sono) e ocular (órbitas rasas, proptose ocular, exorbitismo e falta de proteção do globo ocular), são parâmetros para indicar o procedimento cirúrgico. A tomografia-3D é uma opção atual e pouco utilizada para avaliar os volumes orbitais e a magnitude dos avanços craniofaciais e seus vetores; esse método permite melhor definição das estruturas anatômicas sem distorção das imagens, promovendo uma avaliação adequada dos resultados. Os objetivos do presente estudo foram avaliar os volumes orbitais, os avanços craniofaciais e seus vetores nas osteotomias Le Fort III e Monobloco com uso de aparelhos distratores, a correlação entre os avanços craniofaciais e a variação dos volumes orbitais e determinar a eficácia dos avanços craniofaciais por meio da comparação com índices normais de volumes orbitais. No período de janeiro de 2001 a dezembro de 2012, foram selecionados 20 pacientes submetidos ao alongamento ósseo gradual do terço médio da face, divididos em dois grupos. Grupo LF (n = 9), submetidos à osteotomia Le Fort III e Grupo MB (n = 11), submetidos à osteotomia frontofacial monobloco. A avaliação constou da revisão de prontuários e exames tomográficos, em que foram mensurados o volume orbital pela segmentação de imagens no programa InVesalius e modelagem 3D no programa Magics, e a magnitude dos avanços craniofaciais, e seus vetores, foram medidos no programa Rhinoceros. Os resultados foram submetidos à análise estatística: teste *t*-Student e ANOVA. No Grupo MB, houve aumento de 8,94 mm³ e 9,84 mm³ para a variação do volume orbital, nas órbitas direita e esquerda, respectivamente; no Grupo LF: 5,70 mm³ e 5,77 mm³, respectivamente, para esses parâmetros. A resultante do avanço médio, para a órbita direita e esquerda no Grupo LF foi 11,36 ± 3,80 mm e 11,11 ± 3,45 mm, respectivamente; já no Grupo MB, foi 14,22 ± 4,12 mm e 14,48 ± 4,49 mm,

respectivamente. A correlação entre a resultante do avanço e a variação dos volumes orbitais foi significativa no Grupo LF e para a órbita esquerda no Grupo MB. Em conclusão, o procedimento cirúrgico foi eficaz, tanto para o Grupo LF como para o Grupo MB, pois, houve aumento estatisticamente significativo do volume orbital no período pós-operatório; não houve diferença estatisticamente significativa, na avaliação da simetria, entre os volumes orbitais pós-operatórios, direito e esquerdo. Ainda, não houve diferença estatisticamente significativa entre os volumes orbitais pós-operatórios quando comparados aos índices de normalidade.

Descritores: Órbita/anormalidades. Anormalidades craniofaciais. Craniossinostoses. Osteotomia. Osteotomia de Le Fort. Tomografia computadorizada por raios X. Imagem tridimensional/métodos.

SUMMARY

Antunes RB. *Evaluation of the orbit volume in craniofacial advancements* [thesis]. São Paulo: Faculdade de Medicina, Universidade de São Paulo; 2014.

Syndromic craniofacial synostosis (CS) is a congenital disorder, which is most often, an autosomal dominant mutation associated to FGFR1, FGFR2 and FGFR3 genes. It causes a premature fusion of craniofacial sutures, leading to deficiency in skull growth and middle-third of the face. The severity of the intracranial hypertension related, respiratory syndrome (hypopnea-apnea) and eye (shallow orbits, ocular proptosis, exorbitism and lack of protection of the eyeball) symptoms, are parameters that indicate the surgical procedure. Distraction osteogenesis of the middle-third of the face is currently the chosen technique for the treatment of patients with Craniofacial Synostosis syndrome candidates for the advancement of the middle-third of the face. The 3D-tomography is a current option and seldom used for this purpose; this method allows better definition of anatomical structures without image distortion, providing a more accurate assessment of the results. The objectives of the present study, were to assess quantitatively the craniofacial advancement and its vectors through 3D tomographic images, the osteotomy Le Fort III and Monobloc with use of distractor devices; Also, to evaluate the correlation between the craniofacial advances and the variation of orbital volumes and determine the effectiveness of craniofacial advances through the comparison with normal levels of orbital volumes. From January 2001 to December 2012, 20 patients underwent distraction osteogenesis of the middle-third of the face, divided into two groups. LF group (n = 9) underwent a Le Fort III osteotomy and MB group (n = 11) underwent a monobloc frontal-facial osteotomy. The evaluation consisted of the reviewing of the records and tomographic exams; measured is the orbital volume by image segmentation on the InVesalius software and 3D modeling on Magics software and the magnitude of facial advances, and their vectors, were measured on Rhinoceros software. The results were subject to statistical analysis: *t*-Student test and ANOVA. In the MB group, there was an increase of 8.94 mm³ and 9.84 mm³ for the variation of the orbital volume, the right and left orbits, respectively; in Group LF: 5.70 mm³ and 5.77 mm³ for these parameters. The resulting of average advance, for right and left orbit in

Group LF was of 11.36 ± 3.80 mm, 11.11 ± 3.45 mm, respectively; as for group MB it was 14.22 ± 4.12 mm and 14.48 ± 4.49 mm, respectively. Correlation between the results from the progress and the variation of orbital volume was significant in Group LF and left orbit in MB Group. In conclusion, the surgical procedure was effective for both the LF group as for the MB Group because: there was a statistically significant increase in orbital volume on the postoperative period; there was no statistically significant difference in the evaluation of symmetry between the postoperative period left and right orbital volumes. Still, there was no statistically significant difference between the postoperative orbital volumes when compared to normal ranges.

Descriptors: Orbit/abnormalities. Craniofacial abnormalities.
Craniosynostoses. Osteotomy. Osteotomy Le Fort.
Tomography X-ray computed. Imaging three-dimensional/methods.

1 INTRODUÇÃO

Craniofaciossinostose síndrômica (CS) é uma desordem congênita, na maioria dos casos autossômica dominante, associada a mutações dos genes FGFR1, FGFR2 e FGFR3¹⁻⁵. Caracteriza-se pela fusão prematura das suturas craniofaciais, levando a alterações morfológicas que impõem grave deficiência no crescimento do terço médio da face e/ou crânio^{2,5-14}.

Os pacientes portadores de craniofaciossinostose síndrômica, além dos defeitos estéticos, possuem hipertensão intracraniana e disocclusão esquelética classe III de Angle. A severa retrusão maxilar presente nestes pacientes também é responsável pelos sintomas respiratórios (Síndrome da apneia e hipopneia obstrutiva do sono [SAHOS]). Em relação ao aparelho ocular, os pacientes portadores de CS apresentam órbitas rasas e acentuada redução do volume orbital, conduzindo a alterações oculares como exorbitismo, falta de proteção do globo ocular, estrabismo divergente, proptose ocular, ceratite de exposição, úlceras de córnea, atrofia óptica e, até mesmo, cegueira. Estas anormalidades clínicas, e suas consequências adversas, são indicações absolutas para instituir o tratamento cirúrgico^{5,8,9,11,12,14-22}.

O alongamento ósseo gradual tem sido utilizado com êxito na correção das deformidades craniofaciais (congênitas ou adquiridas), permitindo tanto o alongamento dos tecidos ósseos e moles. Atualmente, é

considerado o tratamento de eleição nos pacientes portadores de craniofaciossinostoses sindrômica^{6,8,9,14,16-20,23-38}. A utilização desta técnica cirúrgica tem se propagado, sendo amplamente utilizada nos centros de referências mundiais. Atualmente, inúmeros trabalhos científicos têm sido publicados na literatura mundial^{6-8,25}.

1.1 Osteotomias do Terço Médio da Face Convencional

O primeiro avanço do terço médio da face em um paciente portador de craniofaciossinostose sindrômica foi descrito por Gillies e Harrison³⁹, em 1950, em um paciente com Síndrome de Crouzon submetido à osteotomia Le Fort III convencional. Este procedimento foi abandonado, uma vez que os riscos e morbidades eram demasiado elevados para justificar sua utilização^{7,19,23,26,38}.

A técnica, que permite a mobilização e o avanço do terço médio da face, foi modificada mais tarde pelo cirurgião plástico Paul Tessier, na década de 1960, com abordagem intracraniana, como citam vários autores^{7,17,23,26,27,33,38}. Em 1971, Paul Tessier⁴⁰ também descreveu o avanço do terço médio da face associadamente ao avanço fronto-orbital, em estágio único.

A primeira descrição da técnica convencional de avanço frontofacial em monobloco foi publicada em 1978, por Ortiz-Monastério *et al.*⁴¹, que, ao avançar o terço médio da face, também avançou a região frontal e as órbitas em um único segmento, abordando, assim, todos os potenciais problemas em uma operação. O procedimento envolvia o avanço imediato da

osteotomia e sua fixação, bem como a interposição de enxerto ósseo no segmento mobilizado. Além dos resultados estéticos superiores, esta modalidade de tratamento cirúrgico proporcionava redução da pressão intracraniana, melhora da obstrução das vias aéreas superiores e do severo grau de exorbitismo que acometem os pacientes portadores de CS^{22,41}.

Apesar do entusiasmo inicial, esta modalidade de tratamento cirúrgico deixou de ser aplicada nos pacientes portadores de craniofaciossinostose sindrômica, pois esteve associada a elevadas taxas de complicações, entre elas a possibilidade de reabsorção, com risco de necrose, do osso frontal. Outra complicação comumente relatada eram os índices elevados de infecção intracraniana pela exposição das cavidades nasal e etmoidal à fossa craniana anterior^{14,17,19,22,26,27,42}.

1.2 Histórico do Alongamento Ósseo Gradual

Deve-se à Codivilla⁴³, em 1904, a primeira publicação sobre alongamento ósseo gradual, utilizando esta técnica para o alongamento de membros encurtados por meio da utilização de aparelhos gessados.

Ao nível do esqueleto craniofacial, a descrição inicial do alongamento ósseo gradual para a correção da má oclusão foi relatada por Wassmund (1926) e Rosenthal (1927) *apud* Shetye *et al.*⁷ A técnica foi abandonada até o início dos anos 1970, ressurgindo com trabalhos realizados inicialmente em modelos animais²⁷.

Vários autores citam Snyder *et al.* (1973), como os primeiros a utilizarem a técnica de distração em ossos membranosos, aplicando-a no

alongamento mandibular por meio de estudos experimentais na região craniofacial em cães^{24,33,44-47}.

Ilizarov⁴⁸, em 1988, baseado nos princípios de Codivilla⁴³, popularizou este método na ortopedia e desenvolveu distratores para correção de deformidades ósseas (pseudoartroses e alongamento de ossos longos), como afirmam vários autores. Seus trabalhos tiveram ampla aceitação na comunidade médica e tornaram-se referências para comparações. As pesquisas iniciais em animais e a popularização do método da distração osteogênica (DO) por Ilizarov fizeram com que cirurgiões craniofaciais adaptassem-se à técnica e, a seguir, estimularam pesquisadores a desenvolver sua aplicação (para correção de defeitos e deformidades congênitas ou adquiridas) nos ossos da face, inicialmente em mandíbula de humanos e, posteriormente, no esqueleto craniofacial^{7,38}.

Em 1990, Guerrero⁴⁹, foram os pioneiros na aplicação deste método na mandíbula em humanos, em suas investigações clínicas; utilizaram a osteodistração de sínfise mandibular para o tratamento de discrepâncias transversas deste segmento.

McCarthy *et al.*⁵⁰ publicaram em 1992, trabalho com bons resultados, em que aplicaram os princípios do alongamento ósseo gradual para o tratamento de quatro pacientes portadores de deformidades faciais congênitas (microsomia hemifacial e síndrome de Nager), com deficiência mandibular severa, obtendo uma média de 20 mm de alongamento mandibular.

Em trabalho publicado por Molina e Ortiz-Monastério⁵¹, em 1995, com casuística de 106 pacientes, bons resultados foram apresentados no

alongamento ósseo gradual mandibular, utilizado em pacientes portadores de micrognatia.

Em 1996, Rachmiel *et al.*⁵² realizaram alongamento ósseo gradual segmentar da maxila, por meio de osteotomia LeFort II e circunferencial da órbita. Concluíram em seu manuscrito que o procedimento aplicado pela distração pode fornecer um melhor controle tridimensional na correção de defeitos e deformidades complexas neste segmento da face.

Uma vez demonstrado o sucesso do alongamento ósseo gradual sobre o esqueleto craniofacial³³, inicialmente ao nível mandibular, sua aplicabilidade foi estendida, em pouco tempo, para o terço médio da face³⁸.

Uma das primeiras aplicações clínicas para a distração da face em humanos, em 1993, foi relatada por Polley *et al.*¹³ em um paciente com síndrome de Pfeiffer e severa exoftalmia, sendo submetido à osteotomia em monobloco com uso de distrator interno. A partir deste estudo, Cohen *et al.*⁵³ também utilizaram os distratores internos, empregando-os em seus avanços faciais em monobloco. Inicialmente, esse autor relatou estudo preliminar com uso de distratores internos para correção de defeitos maxilomandibulares em duas crianças com fissura labiopalatina.

Em 1995, Polley *et al.*¹³, dando continuidade aos trabalhos de alongamento ósseo gradual, idealizaram um sistema de distrator externo (*Rigid external device* [RED]), ancorado ao crânio na região frontoparietal e ligado a um aparato dento-suportado, para alongar o terço médio da face, em osteotomias Le Fort I. O êxito no tratamento da grave retrusão maxilar,

associada aos pacientes com fissura palatina, ampliou a aplicação deste dispositivo para tratar outras anomalias craniofaciais.

Este dispositivo foi adaptado, sendo possível utilizá-lo em distrações do terço médio da face em pacientes com CS, tanto em osteotomias Le Fort III, como nas osteotomias monobloco^{16,17,29,44,54,55}.

A primeira osteotomia LeFort III relatada para o avanço do terço médio da face, por meio do alongamento ósseo gradual, foi realizada por Chin e Toth⁵⁶, que utilizaram distratores internos em uma série de cinco pacientes com diagnóstico de síndrome Crouzon, Apert e Pfeiffer.

Devido aos vários estudos realizados nestes últimos anos e à constatação dos resultados promissores em relação ao esqueleto craniofacial, o alongamento ósseo gradual tornou-se uma técnica aceita para avançar a região do terço médio da face, com ou sem a frente, nos pacientes portadores de craniofaciossinostose sindrômica^{21,26,57,58}.

1.3 Vantagens do Alongamento Ósseo Gradual

Existem vários benefícios do alongamento ósseo gradual em relação aos procedimentos convencionais. Os enxertos ósseos não são mais utilizados para manter o avanço. Isto é particularmente importante, pois as áreas doadoras dos enxertos ósseos não são mais necessárias, o que contribui para reduzir a morbidade do procedimento cirúrgico e das complicações pós-operatórias^{15,17,22}.

Com o alongamento ósseo gradual, também não há mais necessidade de usar as placas para fixação. Essa condição verificada nos

procedimentos convencionais, num esqueleto craniofacial em crescimento (osso com maior plasticidade e baixa resistência intrínseca), torna mais difícil manter a fixação rígida, contribuindo para as elevadas taxas de recidivas associadas aos procedimentos convencionais²².

Como vantagens adicionais associadas ao método, podemos citar a possibilidade do alongamento gradual, tanto dos tecidos ósseos quanto dos moles (pele, vasos, músculos, nervos, tendões), permitindo, ao mesmo tempo, a progressiva regeneração óssea, e as promoções da adaptação e expansão gradual dos tecidos moles, reduzindo as forças elásticas que atuam sobre a maxila que contrapõem o alongamento ósseo^{19,32-34}. De acordo com Fearon³², distração do tecido mole que acompanha o alongamento ósseo reduz significativamente as forças elásticas que agem sobre a maxila.

A técnica oferece, ainda, maior estabilidade esquelética, além de reduzir a possibilidade de procedimentos adicionais^{6-10,14,16,17,23,25,29,30,32,34,38,54,55}. As evidências atuais também apontam uma pequena taxa de recidiva quando comparada aos procedimentos convencionais^{19,55}. A neoformação óssea, que ocorre na região do násion e na junção pterigomaxilar, é estável o suficiente para evitar recidiva após o período de consolidação, de acordo com os estudos de Fearon³².

Quando se avaliam as vantagens do alongamento ósseo gradual nas osteotomias monobloco em relação à técnica convencional, segundo Cohen *et al.*⁵³, há um risco menor de complicações, pois com o alongamento ósseo gradual: (a) o espaço morto retrofrontal é menor; (b) permite a

remucosalização da área nasofrontal, entre quatro e sete dias, antes de iniciar o processo de avanço gradual; (c) a taxa de recidiva é menor, como resultado da expansão gradual e simultânea dos tecidos moles; (d) resulta em menor perda sanguínea durante o procedimento cirúrgico e (e) permite a possibilidade de hipercorreção do avanço ósseo e, talvez, uma menor taxa de reoperações.

1.4 Métodos de Imagem para Avaliação: Tomografia Computadorizada versus Cefalometria

A cefalometria é empregada, atualmente, como um dos mais importantes métodos para avaliação de pacientes portadores de CS submetidos aos avanços faciais. Geralmente é utilizada para quantificar a magnitude dos avanços faciais e seus vetores, entretanto, esta ferramenta de avaliação possui uma série de limitações que podem conduzir a falhas de interpretação das imagens a serem estudadas. Contribuem para isso, podendo conduzir à limitação deste método, a posição desalinhada da cabeça do paciente para a obtenção das radiografias, a magnificação da imagem, especialmente relacionadas às estruturas do terço médio da face e a sobreposição das imagens causada pela representação bidimensional de um objeto tridimensional⁵⁹.

Para superar estas restrições, a tomografia computadorizada vem sendo utilizada como fonte de avaliações pré e pós-operatórias, agregando valor ao diagnóstico, auxiliando no planejamento cirúrgico e avaliações no período pós-operatório nas deformidades craniofaciais⁶⁰.

Atualmente, diante do grande desenvolvimento tecnológico, deparamo-nos com técnicas digitais capazes de reproduzir estruturas anatômicas tridimensionais de um paciente com adequada definição. É possível realizar a reconstrução tridimensional de regiões anatômicas a partir de imagens bidimensionais, por meio da utilização de programas específicos, aplicando-os em imagens obtidas por tomografia computadorizada (formato *Digital Imaging and Communications in Medicine* [DICOM])⁶¹⁻⁶³.

A tomografia computadorizada 3D, em conjunto com avançados programas de reconstrução e manipulação de imagens, trouxeram para a cirurgia craniofacial novos recursos propedêuticos que interferem diretamente na terapêutica e conseqüentemente na melhora dos resultados cirúrgicos⁶⁴.

A utilização das imagens tridimensionais vem sendo cada vez mais difundida na literatura científica por se caracterizar como um método confiável e reprodutível na avaliação das anomalias craniofaciais. A tomografia computadorizada 3D é considerada um método que nos permite determinar as estruturas anatômicas da forma mais próxima do real, conferindo precisão em relação à definição das estruturas a serem estudadas⁶⁵.

1.5 Volume Orbital nos Pacientes Portadores de Craniofaciossinostose Síndrômica e Índices de Volumes Orbitais Normais

Avaliação do volume orbital é comumente descrita em patologias que envolvem fraturas da região orbital, orbitopatia de Graves, principalmente em faixas etárias adultas⁶⁶⁻⁷³.

Entretanto, é limitado o número de publicações que analisam o resultado do tratamento cirúrgico do exorbitismo em pacientes portadores de craniofaciossinostoses síndrômicas. Ao revisar a literatura, verifica-se que trabalhos atuais vêm utilizando este método para avaliação de seus resultados nas deformidades craniofaciais, particularmente em relação aos pacientes portadores de CS submetidos aos avanços craniofaciais, por meio das osteotomias Le Fort III ou Monobloco, tanto para as medidas dos avanços craniofaciais, bem como para a aferição dos volumes orbitais^{10,11,74}.

Bender *et al.*¹⁰ relatam 50% de aumento no volume orbital (com avanços médio de 13,9 mm à direita e 13,6 mm à esquerda) em seus resultados, onde os pacientes portadores de craniossinostose síndrômica (n = 7) foram submetidos ao avanço frontofacial.

Nout *et al.*¹¹ demonstraram aumento de 28,4 % para a órbita direita e 27,2 % para a órbita esquerda (com avanços médio de $12,8 \pm 4,9$ mm à direita e $12,0 \pm 4,2$ mm para à esquerda) nos pacientes de seu estudo (n = 18) submetidos à osteotomia Le Fort III.

Em relação aos estudos publicados por Festa *et al.*⁷⁴, seus pacientes (n = 12) foram submetidos à osteotomia Le Fort III, apresentando valores $22,70 \text{ mm}^3$ na órbita direita e de $26,25 \text{ mm}^3$ na esquerda no pós-operatório. Entretanto, não mencionaram a magnitude do avanço do terço médio da face.

Em relação ao crescimento e desenvolvimento craniofacial normal, Bentley *et al.*^{75,76} publicaram trabalhos que servem de referência para estudos comparativos de condições que acometem o crescimento orbital. Referem que, no momento em que a criança atinge cinco anos de idade, o volume para os lados direito e esquerdo das órbitas atinge, em média, 77% do volume verificado aos 15 anos, em ambos os gêneros. Furuta *et al.*⁷⁷ referem que 95% do crescimento da órbita adulta já foi concluída ao atingir a adolescência. Segundo artigo publicado por Meazzini *et al.*²⁸, o complexo maxilozigomático atinge a conclusão de crescimento, em condições normais, nos pacientes gênero masculino aos 18 anos de idade e, nos pacientes do gênero feminino, aos 17 anos.

1.6 Avanços Craniofaciais nos Pacientes Portadores de Craniofaciossinostose Sindrômica

Vários autores afirmam que o alongamento gradativo no esqueleto facial superior a 20 mm pode ser obtido seguramente apenas com a técnica do alongamento ósseo gradual, correndo riscos de recidiva e, conseqüentemente, procedimentos subsequentes no terço médio da face caso sejam operados com a técnica cirúrgica convencional, situação comumente observada no passado^{18,21,36,38,55}. Portanto, conforme apontam os autores, caso essa técnica seja utilizada, seguramente caracterizará o insucesso do tratamento, com elevadas taxas de procedimentos adicionais. Desta forma, para que os tecidos sejam capazes de avançar e estabilizar em sua nova posição, os casos mais graves que exigem maior magnitude de

avanço facial (severas hipoplasias do terço médio da face e acentuados exorbitismos) não podem ser alcançados com êxito pela cirurgia convencional, sendo seguramente operados pela técnica do alongamento ósseo gradual^{5,21,28,38,55}.

Inúmeros trabalhos vêm sendo descritos na literatura mundial, que nos servem de parâmetros para estudos comparativos, sendo comum os autores publicarem suas experiências com o alongamento ósseo gradual em osteotomias para avanço do terço médio da face em grupos isolados de pacientes Le Fort III (LF III)^{16,28,29,32,33,36} ou Monobloco (MB)^{12,17,18,20,22}. Outras publicações comparam grupos de pacientes submetidos ao alongamento ósseo gradual aos procedimentos convencionais, tanto nas osteotomias LF III (LF IIIC x LF IIIDO)^{38,55}, como Monobloco (MBC x MB modificado x MBDO)¹⁹.

Fearon *et al.*³², publicaram trabalho avaliando o alongamento gradual do terço médio da face (n = 41) com dispositivos externos (RED); verificou, pelo número de giros realizados pelo distrator, um avanço médio horizontal de 26 mm (variando de 14 a 44 mm). A análise cefalométrica revelou que o ponto A avançou 17 mm, e o avanço vertical foi de 7 mm.

Meazzini *et al.*²⁸, publicaram trabalho (n = 40) demonstrando que é possível obter e manter avanço significativo do terço médio da face por meio de osteotomia Le Fort III com uso de aparelhos distratores externos (RED). Em seu estudo, os pacientes operados em fase de crescimento apresentaram avanço médio, para de análise cefalométrica, a partir do ponto A de $16,6 \pm 4,9$ mm (variando de 10 a 28 mm) e a partir do ponto O de $14,7 \pm 3,8$ mm

(variando de 9 a 22 mm). Para pacientes que excediam esta faixa etária, evidenciaram avanço médio a partir do ponto A de $15,0 \pm 5,1$ mm (variando de 7 a 27 mm) e a partir do ponto O de $11,2 \pm 4,3$ mm (variando de 7 a 21 mm).

De acordo com o estudo publicado por Ko *et al.*¹², em que submeteram uma série de pacientes à osteotomia MB com uso de aparelho distrator externo (n = 5), e avaliados por meio de análise cefalométrica, com idade variando de 4,8 a 18,4 anos, com seguimento de pelo menos um ano (média 24,6 meses), demonstraram avanço horizontal na região supraorbital, para o ponto O e para o ponto A de, respectivamente, 15,3 mm, 17,7 mm e 23,1 mm; para o componente vertical do avanço facial, o autor demonstrou valores de 2 a 3 mm.

Um dos poucos relatos encontrados na literatura comparando grupos de pacientes submetidos ao alongamento ósseo gradual nas osteotomias LF III e MB (LF IIIDO x MBDO), foi publicado por Lima *et al.*²¹. Neste trabalho, com série reduzida de pacientes (n = 11), foram comparados grupos de pacientes submetidos ao alongamento ósseo gradual por meio de osteotomia LF III (n = 4) e MB (n = 7) com o uso de RED. Nesta publicação, ao comparar a magnitude dos avanços faciais pelo estudo cefalométrico, verificou-se aumento médio para o movimento horizontal de 9,2 mm no Grupo LF e 10,5 mm no Grupo MB, estatisticamente significativo.

Com um número grande de publicações, embora muitas com limitado número de pacientes ainda persistem dúvidas sobre a indicação precisa das osteotomias, e a idade ideal para a sua realização. A correlação entre o avanço realizado e o resultado final obtido é sempre difícil de ser precisada no início do tratamento destas deformidades.

2 OBJETIVOS

Avaliar os pacientes portadores de craniofaciossinostose sindrômica submetidos às osteotomias craniofaciais (Le Fort III e Monobloco) com uso de aparelhos distratores, quanto aos seguintes parâmetros:

- a) Aumento, simetria e variação dos volumes orbitais.
- b) Magnitude dos avanços craniofaciais e seus vetores.
- c) Correlação entre a variação dos volumes orbitais e os avanços craniofaciais.
- d) Eficácia dos avanços craniofaciais por meio da comparação com índices normais de simetria e volumes orbitais.

3 MÉTODOS

Trata-se de um estudo retrospectivo, observacional, descritivo e inferencial, o qual foi realizado no Setor de Cirurgia Craniomaxilofacial da Divisão de Cirurgia Plástica e Queimaduras do Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo (HC-FMUSP).

O projeto foi aprovado pela Comissão de Ética para Análise de Projetos de Pesquisa (CAPPesq), da Diretoria Clínica do Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo (CAAE: 01526812.4.0000.0068) (Anexo A).

Todos os pacientes participantes do estudo e/ou responsáveis preencheram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido.

3.1 Casuística

Foram operados 79 pacientes sindrômicos entre janeiro de 2001 a dezembro de 2012, sendo que em 19 casos foi realizado avanço facial tipo Le Fort III e, em 60 casos avanço frontofacial em monobloco. Para este estudo foram selecionados 20 pacientes de acordo com os critérios de inclusão.

Os pacientes foram divididos em dois grupos para comparação dos resultados, sendo: o Grupo LF constituído por nove pacientes, nos quais foi

realizado a osteotomia tipo Le Fort III, e o Grupo MB constituído por 11 pacientes submetidos à osteotomia frontofacial em monobloco. O distrator utilizado durante o estudo foi o RED^{*} ou o distrator interno[†].

Trinta e sete dias e meio (variando de um dia a 15 meses) foi o tempo médio de realização das imagens tomográficas do período pré-operatório do Grupo LF, e 49,5 dias (variando de um dia a 12,5 meses) para o Grupo MB.

O diagnóstico dos pacientes portadores de craniofaciossinostose síndrome no presente estudo no Grupo LF foi: síndrome de Crouzon 4 (44,44 %), síndrome de Apert 4 (44,44 %) e outros 1 (11,11 %), enquanto no Grupo MB, 7 (63,63 %) pacientes eram portadores da síndrome de Crouzon, 2 (18,18 %) síndrome de Apert e 2 (18,18 %) outros.

A idade média, na data da cirurgia, do Grupo LF foi de 21 anos (variando de 12,82 a 26,15) e o Grupo MB de 10 anos (variando de 3,39 a 13,77). Com relação ao gênero, o Grupo LF 2 (22 %) pacientes eram masculino e 7 (78 %) feminino, enquanto que no Grupo MB 5 (45 %) pacientes eram masculino e 6 (55 %) feminino.

Para realizar o alongamento ósseo gradual, foi utilizado distrator interno em 1 (11,11 %) paciente e externo em 8 (88,88 %) casos no Grupo LF, enquanto no Grupo MB foi utilizado distrator interno em 2 (18,18 %) pacientes e externo em 9 (81,81 %) casos.

Com relação às cirurgias prévias, para o Grupo LF obteve-se: remodelação craniana em 1 (11,11 %) paciente, avanço fronto-orbital 1 (11,11 %) e foram submetidos à osteotomia monobloco com uso de aparelhos

^{*} Rigid External Device - KLS Martin, Alemanha.

[†] KLS Martin - USA.

distratores 2 (22,22 %). Para o Grupo MB obteve-se: remodelação craniana em 5 (45,45 %) pacientes e avanço fronto-orbital 3 (27,27 %).

3.1.1 Critérios de inclusão

Pacientes que tinham exames tomográficos digitais com cortes axiais finos completos no período pré e pós-operatório, para avaliar a variação do volume orbital e a magnitude dos avanços craniofaciais e seus vetores, por meio de imagens tomográficas 3D.

Presença de exorbitismo, assim como o fechamento prematuro das suturas do crânio e base do crânio.

3.2 Técnica Operatória

As indicações das técnicas cirúrgicas empregadas seguiram os critérios já previamente seguidos pelo serviço. Baseados em quadro clínico e sinais radiológicos, sendo a presença de hipertensão intracraniana, a dificuldade respiratória e o exorbitismo, fatores de definição do tipo da osteotomia e a idade da sua realização.

A osteotomia Le Fort III foi realizada nos pacientes com exorbitismo e retrusão da maxila acentuados. Naqueles com retrusão frontal e pouca projeção da margem orbital superior, foi realizada a osteotomia frontofacial em monobloco.

3.2.1 Osteotomia Le Fort III

Foi realizada a exposição da região craniana frontotemporal, orbital-lateral, nasal e arco zigomático, através de incisão bicoronal. Em casos de incisão coronal prévia, esta era utilizada para se obter o acesso às regiões de interesse.

As osteotomias foram realizadas inicialmente na região nasal, ao nível da sutura frontonasal, parede medial da órbita, posteriormente ao osso lacrimal, bilateralmente.

A seguir, procedeu-se com as osteotomias da parede inferior da órbita e lateral, ao nível da sutura frontozigomática. O vômer e a lâmina perpendicular do osso etmoide foram separados da base do crânio na linha média. Dando seguimento, osteotomizou-se o arco zigomático e, seguindo em direção posteroinferior, a sutura pterigomaxilar. Por fim, a disjunção craniofacial foi realizada pelo fórceps de Rowe. Os distratores foram fixados e testados antes da síntese da ferida operatória (Figura 1).

Figura 1 - Visão esquemática da osteotomia Le Fort III, (a) pré-operatório e (b) pós-operatório

3.2.2 Osteotomia Frontofacial Monobloco

A exposição da região frontal e orbitárias foi obtida por uma abordagem bicoronal, aproveitando-se cicatrizes, caso presentes.

Procedeu-se à osteotomia transversa da região frontal inferior, em média 2 cm acima da margem orbital superior. A linha de osteotomia da região frontal superior foi paralela à sutura frontoparietal, bilateralmente.

A osteotomia da parede orbital superior foi determinada na região posterior ao ponto médio do globo, e na região anterior da placa cribiforme, seguindo em direção à parede lateral da órbita, na altura da sutura frontozigomática e na região superior ao longo da borda orbital; dando seguimento às linhas de osteotomias, foram realizadas na parede orbital medial e inferior (caudalmente à sutura frontonasal e crista lacrimal) dirigindo-se inferior e posteriormente através do osso etmoide.

Osteotomizou-se o arco zigomático e, pela continuidade da linha de osteotomia da parede lateral, na direção posteroinferior, procedeu-se osteotomia da sutura pterigomaxilar. Finalmente, a disjunção craniofacial foi realizada por meio do fórceps de Rowe.

Antes do fechamento da ferida operatória, os aparelhos distratores foram fixados e uma adequada mobilização foi testada (Figura 2).

Figura 2 - Visão esquemática da osteotomia frontofacial em monobloco, (a) pré-operatório e (b) pós-operatório

3.3 Protocolo para Alongamento Ósseo Gradual

O protocolo utilizado para ativação da distração foi iniciado após um período de latência de cinco dias, em um ritmo de 1 mm ao dia, finalizando-o após a obtenção adequada da relação entre o conteúdo e o continente orbital e da sobrecorreção oclusal. O período de contenção foi de seis a oito semanas.

3.4 Protocolo para Realização dos Exames Tomográficos

Foram selecionados os pacientes que haviam realizados tomografias[‡] no período pré e pós-operatório, e os exames tinham as características para a sua avaliação detalhada com outros programas gráficos.

As mensurações do volume orbital e dos avanços craniofaciais e seus vetores foram realizadas em dois exames tomográficos (pré e pós-operatório),

de modo a avaliar as alterações volumétricas orbitais numa fase em que a consolidação óssea já estava estabelecida, já finalizado o período de contenção.

A mensuração do volume orbital foi realizada pela segmentação de imagens médicas no programa InVesalius^{® §} e modelagem 3D no programa Magics^{® **}.

A magnitude do avanço orbital, bem como sua análise vetorial, foi realizada pelo programa Rhinoceros^{® †† 78}.

Todas as medidas foram realizadas pelo autor do estudo, tendo auxílio de dois profissionais de engenharia que participaram da pesquisa.

Os volumes orbitais, pré e pós-operatórios, foram comparados aos índices de volume orbital normal publicados por Bentley *et al.*⁷⁵. A porcentagem relativa (pré e pós-operatória) ao volume normal foi calculada.

3.5 Técnica de Volumetria Orbital

3.5.1 Imagens DICOM importadas no programa InVesalius

O InVesalius é um programa de visualização e reconstrução 3D de imagens médicas, desenvolvido desde 2001 pelo CTI-RA e disponibilizado gratuitamente sobre o modelo de programa livre. Atualmente, encontra-se na versão 3, a qual foi utilizada no presente estudo⁶¹.

‡ Tomógrafo Aparelho Aparelho Brilliance 64 Phillips

§ CTI-RA - Centro de Tecnologia da Informação Renato Archer.

** Materialise, Louvain, Bélgica.

†† Software proprietário de engenharia chamado Rhinoceros 4.0 (Robert Mc Neel & Associates[®]).

As imagens com as estruturas anatômicas foram armazenadas no formato DICOM, que é o conjunto de normas para armazenamento e transmissão de informações médicas num formato eletrônico. Essas imagens, ficheiros DICOM, foram importadas, inicialmente, para o programa InVesalius para segmentação e renderização de modelos 2D e 3D (Figura 3).

Figura 3 - Imagens sendo carregadas e pré-visualizadas no InVesalius

O programa InVesalius mostra uma pré-visualização com sua reconstrução multiplanar. Quatro quadros são abertos para a conversão das imagens: axial, sagital, coronal e volume. Nesse caso, o programa interpola automaticamente as várias imagens bidimensionais, formando um volume para manipulação 3D⁶¹.

Primeiramente, as imagens foram verificadas se estavam satisfatórias para garantir a qualidade no processo de montagem do modelo 3D, sendo que em alguns casos podem ocorrer imperfeições causadas por ruídos de materiais metálicos (amálgama, placas de titânio, artefatos metálicos, etc.).

Esses ruídos, também chamados de explosões, podem interferir na segmentação e atrapalhar na distinção do que é osso ou tecido mole (Figura 4).

No programa, está disponível a ferramenta limiar, na qual podem ser estabelecidos valores para minimizar essas imperfeições (caso estejam presentes) e preservar a anatomia do osso do paciente⁶².

Figura 4 - Exemplos de imagens incorretas: com ruídos (esquerda); espaçamento incorreto (direita)

3.5.2 Segmentação de imagens no programa InVesalius

As imagens axiais obtidas foram posteriormente reconstruídas por meio da utilização de programas computadorizados específicos, que permitem a segmentação e a modelagem 3D para a realização de medidas volumétricas. Foram utilizados para esta finalidade, os programas InVesalius® e Magics®^{‡‡}, com apoio do Centro de Tecnologia da Informação Renato Archer, que é uma unidade do Ministério da Ciência e Tecnologia que atua na pesquisa e no desenvolvimento em tecnologia da informação.

Duas técnicas de segmentação são possíveis no InVesalius: semiautomática e manual⁶⁰. Na técnica semiautomática por limiar

^{‡‡} Materialise, Louvain, Bélgica

(*threshold*), apenas os *voxels* com valores entre um mínimo e um máximo são selecionados. Com a segmentação manual, é possível selecionar *voxels* de interesse não selecionados pela técnica de *threshold*, assim como eliminar da seleção *voxels* que não sejam de interesse; para essa finalidade, o programa fornece ferramentas para as funções de limiarização, apagar e desenhar.

A parte de limiarização foi feita pela da escala Hounsfield Unit (HU), que é uma escala quantitativa para descrever radiodensidade (Quadro 1). Esse princípio é utilizado para distinguir ossos de outras estruturas do corpo. Essa tabela tem como princípio, por meio da escala de cinza, saber se a parte selecionada é ar, gordura, água, músculo, contraste ou osso⁶².

Quadro 1 - Escala de Hounsfield

Substância	HU
Ar	-1000
Gordura	-120
Água	0
Músculo	+40
Contraste	+130
Osso	+400 ou mais

Para a seleção do tecido ósseo do crânio-face, foi utilizada a técnica semiautomática, com limiar entre 226 - 3071 HU. Cada fatia do exame foi analisada automaticamente, realizando-se a contagem dos *pixels* segmentados (Figura 5).

Figura 5 - Segmentação do osso (crânio-face)

Uma vez o crânio segmentado, iniciou-se a limiarização manual da cavidade orbital, pois esta apresenta densidade inferior em relação aos demais ossos do corpo (particularmente, na parede inferior e medial das órbitas). Este fato faz com que não seja possível selecioná-la com a técnica utilizada na primeira etapa.

Com a definição de um limiar do pincel (+400 HU ou mais), selecionou-se a cavidade orbitária no plano axial. Uma vez concluída neste eixo de visualização, foi realizado o processo de segmentação manual nos demais planos (sagital e coronal), visto que estes são complementares (Figura 6).

Figura 6 - Sem preencher e adicionando segmentação (cavidade orbital)

3.5.3 Superfície 3D

Terminada a segmentação, iniciou-se a reconstrução 3D (Figura 7).

Figura 7 - Modelo 3D

Aproximando a janela onde está o volume, pode-se rotacioná-lo e verificar dentro das órbitas o processo de segmentação concluído em 3D (Figura 8).

Figura 8 - Processo de segmentação concluído em 3D

3.5.4 Arquivo STL

Baseado nos voxels do exame segmentado, é gerada uma superfície poligonal, constituída por uma malha de triângulos não uniformes, e o modelo é salvo em arquivo *StereoLithography* (STL)⁶⁰.

Esse formato tem como propriedade armazenar as coordenadas dos vértices dos triângulos⁷⁹, permitindo que ele seja aberto pelo programa Magics e Rhinoceros utilizados no presente estudo, na próxima etapa da reconstrução 3D da cavidade orbital, e para medidas quantitativas dos avanços craniofaciais e seus vetores, respectivamente.

3.5.5 Modelagem 3D no Programa Magics

Com as regiões de interesse salvas em formato STL, estas foram importadas para o programa Magics, que é responsável pela modelagem da malha de triângulos geradas pelo InVesalius.

Essas imagens, cujo modelo pode ter centenas a milhares de facetas triangulares, podem ser modeladas com as ferramentas disponíveis no programa. Entre as alternativas, pode-se realizar o refinamento da malha, corrigir imperfeições da superfície (arestas, triângulos suspensos, vértices proeminentes), fechar discontinuidades ósseas ou reconstruir triângulos. Assim, molda-se a malha de triângulos no programa Magics, transformando-a numa superfície manipulável^{60,79}.

Para que fosse possível aferir o volume orbital no programa, foi necessário transformar a cavidade orbital em uma estrutura sólida. Para essa finalidade, inicialmente, foram fechadas (“vedadas”) todas as falhas ósseas (naturais e/ou adquiridas), pois não deve permanecer nenhum tipo de abertura. Todo este procedimento foi realizado respeitando-se o formato geométrico da cavidade orbital.

Estas etapas foram padronizadas, tanto para o período pré-operatório, como no pós-operatório, para as órbitas direita e esquerda. No momento pré-operatório, nas falhas ósseas a serem fechadas foram utilizados os espaços ósseos (imperfeições da segmentação, onde as paredes orbitais eram mais tênues), óstios, fissuras orbitais superior e inferior, forâmes, e aberturas anterior e posterior (abertura anterior da cavidade orbital e forâmen óptico).

No período pós-operatório, além das mencionadas acima, os espaços ósseos oriundos das osteotomias para realizar o avanço das órbitas também foram incluídos.

3.5.5.1 Etapas necessárias para proceder ao fechamento da cavidade orbital

As falhas ósseas das paredes orbitais (superior, inferior, medial e lateral) foram selecionadas, individualmente, com a ferramenta *mark polyline*, que funcionou como uma “caneta” destacando as regiões selecionadas. A seguir, expandiu-se essa seleção com a ferramenta *expand selection* (Figuras 9 e 10).

Figura 9 - Falhas ósseas em paredes orbitais

Figura 10 - Falha óssea selecionada e expandida

A região selecionada e expandida previamente foi deletada e preenchida, para a correção do defeito que foi originado (Figura 11).

Com a ferramenta *fill hole*, foi preenchida essa região de interesse utilizando-se da propriedade tangente de triângulos disponível no programa (Figura 12).

Esse procedimento foi realizado individualmente, nas paredes orbitais onde existiam falhas ósseas naturais e/ou adquiridas (espaços ósseos oriundos das osteotomias). Assim, todas as paredes orbitais tornaram-se completamente fechadas (preenchidas).

Após finalizar o preenchimento (paredes orbitais superior, inferior, lateral e medial), realizou-se o fechamento do ápice orbital (parte mais profunda da órbita, posteriormente), pelos mesmos princípios.

Figura 11 - Área expandida deletada

Figura 12 - Falha óssea preenchida

Das Figuras 9 à 12 foi exemplificado o procedimento para uma falha óssea da parede superior da cavidade orbital. Estas etapas foram realizadas em todas as paredes onde havia espaços ósseos (modelando as áreas de falhas ósseas), inclusive as aberturas anterior e posterior da cavidade orbital.

Na etapa seguinte, os limites anteriores das órbitas foram delimitados com a ferramenta *mark polyline* e, a seguir, selecionou-se a porção interna da órbita com o comando *mark shell*. Assim, ao verificar que toda a cavidade orbital ficou destacada homogeneamente (em verde), certificou-se de que todas as paredes orbitais foram completamente fechadas, inclusive o ápice orbital (Figuras 13 e 14).

Figura 13 - Limite anterior selecionado

Figura 14 - Cavidade orbital destacada em verde

A seguir, para o fechamento da base aberta anterior, delimitou-se seu rebordo em ambas as órbitas (região selecionada em verde), respeitando seus limites anatômicos (plano que se estende desde a margem supraorbital para a infraorbital na direção súpero-inferior, e sutura frontozigomática à crista lacrimal anterior no sentido látero-medial) (Figura 15).

Figura 15 - Margens orbitais selecionados

Antes do fechamento deste plano anterior, e de vedar por completo a cavidade orbital, fez-se necessário separá-la do crânio. Para esta finalidade, utilizou-se a ferramenta *separe marked* (Figura 16).

Figura 16 - Órbitas separadas do crânio

Uma vez as órbitas separadas do crânio, estas foram invertidas com a ferramenta *invert part*. A parte vermelha do modelo corresponde à região interna das órbitas (Figura 17).

Figura 17 - Área destacada em vermelho: região interna das órbitas

A próxima etapa foi a de separar ambas as órbitas. Para isso, selecionou-se uma das órbitas, com a ferramenta *mark shell* (Figura 18). No exemplo, optou-se pela esquerda que, por meio da ferramenta *separe marked*, foi separada da órbita direita. Assim, dois modelos foram gerados e salvos arquivos separados (Figura 19).

Figura 18 - Órbitas unidas; esquerda selecionada

Figura 19 - Órbitas separadas

Para corrigir as irregularidades das margens do limite anterior da órbita, previamente ao seu fechamento, foram criados triângulos, utilizando-se a ferramenta *create triangle* (Figuras 20 e 21).

Figura 20 - Margens irregulares - Criando triângulos

Figura 21 - Regularizando as margens pela criação triângulos

Essas irregularidades foram corrigidas até que todas as extensões das margens anteriores estivessem o mais paralelo possível (Figuras 22 e 23).

Figura 22 - Margens regularizadas - Vista inferior

Figura 23 - Margens regularizadas - Vista anterior

Para concluir, e tornar viáveis as medidas dos volumes orbitais, realizou-se o fechamento das paredes anteriores das órbitas com o comando *fill hole* (planar). Assim, as órbitas tornaram-se uma estrutura maciça (sólida) e gerando o volume orbital, cujo valor foi aferido automaticamente pelo programa Magics (Figura 24).

Figura 24 - Fechamento abertura anterior - Formação estrutura sólida e aferição dos volumes orbitais

3.6 Aferição dos avanços craniofaciais lineares e seus vetores - Programa Rhinoceros

3.6.1 Protocolo 3D (Rhinoceros)

O protocolo utilizado no presente estudo foi descrito por Villela⁷⁸.

3.6.1.1 Definição dos pontos craniométricos e planos de referência

Para a realização das mensurações lineares, fez-se necessário a criação de planos de referência e a definição de pontos craniométricos de interesse.

Inicialmente, foram definidos três pontos cranianos que servirão de orientação para a formação do primeiro plano. São os pontos que definem o plano sagital médio, permitindo-nos identificar a referência de simetria, e são eles:

- Sela turca (S) - Ponto médio do assoalho da cavidade do osso esfenoide.
- Násio (Na) - Ponto mais posterior da curvatura entre o osso frontal e o osso nasal no plano médio sagital.
- Básio (Ba) - Ponto mais anterior do forame magnum.

A partir do primeiro plano, um sistema de coordenadas pode ser definido (um ponto de origem e três planos ortogonais entre si), para medições lineares de pontos específicos de interesse para o estudo: ponto frontal (F), ponto orbital direito (OD), ponto orbital esquerdo (OE) e ponto maxila (A) (Figuras 25 e 26).

Para análise dos movimentos craniofaciais lineares e seus vetores, tanto no momento pré-operatório, como no pós-operatório, pontos anatômicos foram estabelecidos para este estudo, e são eles:

- F: localizado na linha média, 2 cm acima da linha de osteotomia da região frontal. Determinado para avaliar as osteotomias frontais, no Grupo Monobloco.
- OD e OE: ponto mais inferior intermediário entre os limites inferiores das órbitas.
- A: ponto mais profundo da concavidade da maxila situado entre a espinha nasal anterior e o alvéolo dentário.

Figura 25 - Pontos craniométricos - F (Frontal), OD (Orbital direito), OE (Orbital esquerdo), A (Maxila), N (Násio)

Figura 26 - Ponto S (Sela turca)

Com um ponto determinado na origem do sistema de coordenadas (sela) e o segundo ponto no násio, determinou-se o segundo plano, ortogonal ao primeiro, denominado axial. O terceiro plano, ortogonal ao plano sagital e axial, que também passa pela sela, foi denominado como plano coronal (Figuras 27, 28 e 29).

Figura 27 - Plano sagital mediano

Figura 28 - Plano axial

Figura 29 - Plano coronal

Por meio deste sistema de coordenadas, consegue-se obter o adequado alinhamento do crânio do paciente nos períodos pré e pós-operatório, independentemente da posição da cabeça do paciente durante a aquisição das imagens (Figura 30).

Pelos pontos S e N, determinou-se o alinhamento S-N, definindo a melhor direção de interesse para análise da movimentação da face e outras estruturas envolvidas no estudo, e que se manteve do modelo pré-operatório para o pós-operatório.

Figura 30 - Sistema de coordenadas

3.6.2 Mensurações dos movimentos craniofaciais lineares e seus vetores

Para comparação pré e pós-operatória, a origem dos dois sistemas de coordenadas foi sobreposta, os planos sagitais foram alinhados e, posteriormente, os planos axiais foram sobrepostos, nos dois momentos cirúrgicos. Desta forma, obteve-se a posição craniana adequada, nos momentos pré e pós-operatórios, dos pontos de referência escolhidos para proceder às aferições quantitativas e análise vetorial dos movimentos lineares que se pretendeu estudar (Figura 31).

Figura 31 - Sobreposição de imagens, nos momento pré-operatório e pós-operatório (magnitude dos movimentos craniofaciais e seus vetores)

As medidas foram realizadas de forma diferencial (comparativa, pré e pós-operatória). Esta diferença foi transformada num vetor, que parte do ponto pré-operatório e chega ao ponto pós-operatório. Sobre este vetor, foram medidos os componentes horizontal (direção sela-násion, paralela ao

plano axial) e vertical (paralela ao plano sagital, que parte do ponto sela indo para inferior). Como o modelo é 3D, existe um componente lateral do movimento, paralelo ao plano coronal com a origem na sela indo do lado direito ou esquerdo.

Pelo fato da medição ser diferencial, foi possível aferir o real deslocamento da componente horizontal, vertical e lateral da resultante dos movimentos craniofaciais.

3.7 Avaliação Tomográfica Tridimensional

Imagens tomográficas foram realizadas no período pós-operatório em todos os pacientes. O tempo de seguimento para os pacientes do Grupo LF foi de 6,93 meses (variando de 0,4 a 19,47 meses) e o Grupo MB de 8,78 meses (variando de 0,7 a 34,27 meses).

As mensurações do volume orbital e dos avanços craniofaciais e seus vetores foram realizadas em dois exames tomográficos (pré e pós-operatório), de modo a avaliar as alterações volumétricas orbitais em uma fase de consolidação óssea já estabelecida.

Objetivamente, as avaliações 3D interessavam poder determinar os seguintes parâmetros: o volume orbital pós-operatório, a variação do volume orbital, a simetria orbital pós-operatória, a magnitude dos avanços craniofaciais e seus vetores e a comparação dos volumes orbitais obtidos aos índices normais dos volumes orbitais.

3.8 Análise Estatística

Foram avaliadas as variáveis de cada grupo de acordo com a indicação cirúrgica e a faixa etária.

- Para comparação entre os grupos e entre os tempos da média do volume e dos avanços craniofaciais, foi utilizada a Análise de Variância de Duplo Fator de Medidas Repetidas⁸⁰.
- Para comparação entre os grupos da média de variação do aumento de volume e a simetria dos volumes orbitais, foi utilizado o Teste *t*-Student⁸⁰.
- Para verificar se o aumento proporcional entre os avanços craniofaciais e a variação do volume orbital seria positivo, foi utilizada a Correlação de Pearson⁸⁰.
- Foi considerada uma probabilidade de erro do tipo I (α) de 0,05.

O estudo estatístico foi feito por meio do programa SPSS versão 21 (SPSS 21 for Windows) e a identificação do paciente foi mantida em sigilo absoluto.

Os dados completos que deram origem ao estudo estatístico encontram-se no Anexo B.

4 RESULTADOS

4.1 Volume Orbital

O volume médio pós-operatório para os grupos LF e MB (OD e OE) apresentou um aumento estatisticamente significativo em relação ao volume pré-operatório (Gráficos 1 e 2).

Gráfico 1 - Avaliação dos momentos pré e pós-operatório dos grupos LF e MB do volume da órbita direita

Gráfico 2 - Avaliação dos momentos pré e pós-operatório dos grupos LF e MB do volume da órbita esquerda

Na comparação entre os grupos LF e MB, o volume médio das órbitas direita e esquerda foi maior apenas no momento pré-operatório (Gráficos 3 e 4).

Gráfico 3 - Avaliação dos grupos LF e MB dos momentos pré e pós-operatório do volume da órbita direita

Gráfico 4 - Avaliação dos grupos LF e MB dos momentos pré e pós-operatório do volume da órbita esquerda

4.2 Variação dos Volumes Orbitais

A variação do volume nas órbitas direita e esquerda foi maior no grupo MB comparado com o grupo LF, havendo diferença estatisticamente significativa (Gráficos 5 e 6).

Gráfico 5 - Avaliação dos grupos LF e MB da variação do volume da órbita direita

Gráfico 6 - Avaliação dos grupos LF e MB da variação do volume da órbita esquerda

4.3 Simetria dos Volumes Orbitais

4.3.1 Simetria dos volumes orbitais Grupo LF

Na comparação entre as órbitas direita e esquerda, quanto à simetria pré e pós-operatória, não foi encontrada diferença estatisticamente significativa para o Grupo LF (Gráfico 7).

Gráfico 7 - Avaliação das órbitas direita e esquerda, quanto à simetria pré-operatória e pós-operatória, para o Grupo LF

4.3.2 Simetria dos volumes orbitais Grupo MB

Na comparação entre as órbitas direita e esquerda, quanto à simetria pré e pós-operatória, não foi encontrada diferença estatisticamente significativa para o Grupo MB (Gráfico 8).

Gráfico 8 - Avaliação das órbitas direita e esquerda, quanto à simetria pré e pós-operatória, para o Grupo MB

4.4 Volume Orbital Pré-Operatório (Relação aos Valores Normais)

O volume das órbitas direitas e esquerdas pré-operatórios, em relação aos índices de normalidade para os volumes orbitais, foi menor no grupo MB comparado com o grupo LF, havendo diferença estatisticamente significativa (Gráficos 9 e 10).

Gráfico 9 - Volume OD - Pré-operatório (relação aos valores normais) **Gráfico 10 - Volume OE - Pré-operatório (relação aos valores normais)**

4.5 Volume Orbital Pós-Operatório (Relação aos Valores Normais)

O volume das órbitas direitas e esquerdas pós-operatórios, em relação aos índices de normalidade para os volumes orbitais, foi igual no grupo MB comparado com o grupo LF, não havendo diferença estatisticamente significativa (Gráficos 11 e 12).

Gráfico 11 - Volume OD - Pós (relação aos valores normais) **Gráfico 12 - Volume OE - Pós (relação aos valores normais)**

4.6 Variações do Volume Orbital (Relação aos Valores Normais)

Na avaliação entre as variações dos volumes obtidos das órbitas direita e esquerda, em relação à variação esperada para os índices de normalidade, não foi encontrada diferença estatisticamente significativa para o Grupo LF. Para o Grupo MB também não foi encontrada diferença estatisticamente significativa (Gráficos de 13 e 14).

Gráfico 13 - Variação do Volume OD comparados aos índices normais de volumes orbitais

Gráfico 14 - Variação do volume OE comparados aos índices normais de volumes orbitais

4.7 Avanços Orbitais - Avaliação Entre Grupos

4.7.1 Ponto OD e OE

Em relação à magnitude dos avanços orbitais, apesar da resultante não apresentar diferença estatisticamente significativa no avanço entre os grupos, tanto na órbita direita quanto na esquerda (Gráfico 15), foi observada uma diferença estatisticamente significativa no avanço horizontal (Grupo MB > Grupo LF), ao passo que no avanço vertical foi o contrário (Grupo LF > Grupo MB) (Gráficos 16 e 17).

Gráfico 15 - Avaliação das OD e OE da resultante da magnitude dos avanços orbitais

Gráfico 16 - Avaliação dos grupos LF e MB nas OD e OE do avanço horizontal

Gráfico 17 - Avaliação dos grupos LF e MB nas órbitas direita e esquerda do avanço vertical

O avanço lateral não apresentou diferença estatisticamente significativa entre os grupos LF e MB (Gráfico 18).

Gráfico 18 - Avaliação dos grupos LF e MB nas órbitas direita e esquerda do avanço lateral

4.8 Avanços Orbitais - Avaliação Intra Grupos

4.8.1 Ponto OD e OE

Na comparação entre as órbitas direita e esquerda, quanto à magnitude dos avanços orbitais horizontal, vertical, lateral e resultante, não foi encontrada diferença estatisticamente significativa para o Grupo LF. Para o Grupo MB também não foi encontrada diferença estatisticamente significativa com exceção do avanço vertical (Gráficos 19 a 22).

Gráfico 19 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB da resultante

Gráfico 20 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB do avanço horizontal

Gráfico 21 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB do avanço vertical

Gráfico 22 - Avaliação das órbitas direita e esquerda nos grupos LF e MB do avanço lateral

4.9 Ponto A

Não foi encontrada diferença estatisticamente significativa entre os grupos LF e MB quanto ao avanço da maxila (A) no x, y, z e xyz (Gráfico 23).

Gráfico 23 - Avanço da maxila (A) nos grupos LF e MB

4.10 Ponto F

A resultante do avanço médio para o Ponto F no Grupo MB foi de $11,28 \pm 4,25$ mm.

O avanço horizontal médio para a Ponto F no Grupo MB foi de $10,85 \pm 3,79$ mm.

O avanço vertical médio para a Ponto F no Grupo MB foi de $0,46 \pm 0,44$ mm.

O avanço lateral médio para a Ponto F no Grupo MB foi de $0,38 \pm 0,40$ mm.

4.11 Correlação

A correlação entre a resultante do avanço das órbitas e a diferença de volumes orbitais foi significativa para o Grupo LF. No Grupo MB, esta correlação foi estatisticamente significativa para a órbita esquerda (Gráficos 24 e 25).

Gráfico 24 - Correlação da variação do volume orbital x resultante avanço OD (A = LF e B = MB)

Gráfico 25 - Correlação da variação do volume orbital x resultante avanço OE (A = LF e B = MB)

4.12 Pacientes no Pré e Pós-Operatórios

A seguir alguns exemplos de pacientes no pré e pós-operatório (Figuras 32 a 35).

Figura 32 - Paciente submetido à osteotomia frontofacial em monobloco e uso de distrator interno

Pré-operatório

Pós-operatório

Figura 33 - Paciente submetido à osteotomia frontofacial em monobloco e uso de distrator interno

Pré-operatório

Pós-operatório

Figura 34 - Paciente submetido à osteotomia Le Fort III e uso de RED

5 DISCUSSÃO

O alongamento ósseo gradual do terço médio da face representa o tratamento atual para a correção da severa retrusão da maxila, tendo como objetivo primordial restaurar a forma e a função deste defeito tridimensional, que acomete os pacientes portadores de craniofaciossinostose sindrômica. Para obter êxito no tratamento com melhora do exorbitismo e patência das vias aéreas, faz-se necessária a obtenção de avanços faciais de grande magnitude, bem como manter sua estabilidade a longo prazo; assim evitam-se ou diminuem-se os índices de recidivas e, conseqüentemente, o número de reoperações³⁶.

O presente estudo, retrospectivo, seguiu as indicações clínicas já existentes no protocolo do serviço para tratamento destas deformidades, e por esta razão apresentou uma grande variação de faixas etárias. A diferença entre o número de pacientes operados e o número de pacientes selecionados para o estudo deveu-se ao fato de muitos exames radiológicos não seguirem os padrões necessários para a realização da aferição.

O uso de aparelhos para o alongamento facial seguiu dois critérios distintos, a saber: inicialmente apenas aparelhos externos estavam disponibilizados e posteriormente com número limitado de aparelhos internos e dificuldade da utilização dos externos em crianças menores passou a se utilizar os dois de acordo a disponibilidade.

5.1 Volume Orbital

Pacientes portadores de CS submetidos aos avanços craniofaciais possuem várias falhas ósseas na superfície interna das órbitas, principalmente quando se avalia o período pós-operatório. Essas irregularidades alteram a forma geométrica da cavidade orbital, tornando difícil de mensurar o volume orbital pelos métodos disponíveis habitualmente. Diante deste fato, torna-se necessário definir um método que reconstrua as paredes orbitárias de forma fidedigna para poder aferir o volume orbital com precisão, principalmente no momento pós-operatório.

Para avaliação de nossos resultados em relação à volumetria orbital, foram utilizados os programas InVesalius e Magics, por meio da segmentação de imagens e modelagens tridimensionais, respectivamente, permitindo-nos desta forma, efetuar a aferição do volume orbital adequadamente.

Os programas utilizados no presente estudo, empregados para prototipagem, permitem boa definição e reconstrução 3D das estruturas orbitais, tanto no momento pré como no pós-operatório, permitindo uma avaliação confiável das medidas dos volumes orbitais.

Pode-se considerar a associação dos programas um método satisfatório para a aferição do volume orbital utilizado no presente estudo, pois na sua modelagem 3D, a forma geométrica da cavidade orbital foi mantida, e todas as irregularidades da face interna das órbitas foram incluídas ao aferir os volumes, principalmente nos períodos pós-operatórios, situação em que as paredes orbitais apresentavam-se com as maiores deformidades e acentuados espaços ósseos, oriundos das osteotomias. Esses detalhes foram considerados da

maior importância, e nem sempre são levados em consideração por outros métodos que, geralmente, realizam cortes lineares das órbitas para mensurar os volumes, podendo comprometer a precisão dos resultados^{66,69,77,81,82}.

Para o propósito da pesquisa, mensurou-se a variação do volume orbital pela análise 3D. Inicialmente, foram avaliados nossos resultados para os grupos LF e MB; a seguir, nossos dados foram comparados aos valores dos volumes orbitais normais⁷⁵.

5.1.1 Volume orbital: grupos LF e MB

Quando foram avaliadas as aferições volumétricas, verificou-se um maior volume orbital (pré e pós-operatório) para as órbitas direita e esquerda no Grupo LF. De acordo com nosso protocolo, operam-se os pacientes do Grupo LF em uma idade mais desenvolvida em relação ao Grupo MB (idade média de 10 anos para o Grupo MB e de 21 anos para o Grupo LF), ocasião em que o crescimento craniofacial está mais avançado e com maior maturidade esquelética, conduzindo a medidas volumétricas isoladas, pré e pós-operatórias, superiores naquele grupo. Nossa análise evidenciou um aumento estatisticamente significativo do volume médio das órbitas direita e esquerda, tanto para o Grupo LF, como para o Grupo MB.

Verificou-se não somente a melhora do exorbitismo em ambos os grupos de nosso estudo, bem como um aumento importante da cavidade orbital, obtida pelas osteotomias e avanços craniofaciais gradativos, como relatado em outros estudos^{10,11,74}. Pacientes submetidos apenas ao avanço fronto-orbital, mesmo evoluindo com alívio dos sintomas relacionados às

complicações do exorbitismo, apresentaram apenas aumento parcial da cavidade orbital, quando os volumes orbitais pré-operatórios e pós-operatórios foram comparados com os volumes orbitais de nossos pacientes, tanto no Grupo LF como no Grupo MB^{75,83}.

Quando foram comparados nossos resultados aos descritos por Bender *et al.*¹⁰, onde seus pacientes portadores de craniossinostose síndrômica foram submetidos ao avanço frontofacial em monobloco, observou-se maior variação do volume orbitário nos pacientes do nosso Grupo MB para obter a normocorreção dos volumes orbitais, com avanços craniofaciais semelhantes.

Em relação ao estudo publicado por Nout *et al.*¹¹, os valores, do presente estudo, foram maiores para os volumes orbitários, nos pacientes submetidos à osteotomia Le Fort III com aparelho distrator, tanto para a órbita direita, como para a esquerda; com relação aos avanços craniofaciais foram discretamente inferiores, evidenciados nos pacientes do Grupo LF.

Avaliando os resultados de Festa *et al.*⁷⁴, em que os pacientes foram submetidos à osteotomia Le Fort III com aparelho distrator, o presente estudo mostrou resultados semelhantes para a obtenção dos valores absolutos em relação aos volumes orbitários pós-operatórios, porém com melhor simetria entre as órbitas do Grupo LF. Entretanto, os autores acima citados, não mencionaram em seu estudo a magnitude do avanço do terço médio da face, obtidos por meio de seus avanços craniofaciais para o aumento do volume orbital.

Ao avaliarmos os métodos de Bender *et al.*¹⁰, Nout *et al.*¹¹ e Festa *et al.*⁷⁴, pode-se verificar que, para as medições dos volumes orbitários foram

utilizadas técnicas de imagens tomográficas diferentes. Os autores mediram seus volumes orbitais por meio de superposição de imagens tomográficas segmentadas no plano sagital (pré e pós-operatórias) e, para o fechamento dos espaços ósseos, utilizaram cortes lineares nas órbitas, o que pode comprometer a definição precisa dos limites ósseos orbitais, principalmente nas aferições pós-operatórias. Neste trabalho, acredita-se ter sido utilizado um método mais rigoroso para a aferição dos volumes orbitais.

No presente estudo, foi apresentado um menor valor para a variação do volume orbital no Grupo LF (variação média de $29,21\% \pm 16,3965$ e $29,20\% \pm 17,0027$ para as órbitas direita e esquerda, respectivamente). Como é de se esperar, nas situações clínicas mais dramáticas com exuberantes exorbitismos e retrusões severas da maxila, um maior valor médio para o Grupo MB (variação média de $70,06\% \pm 26,0466$ e $82,22\% \pm 36,0135$ para as órbitas direita e esquerda, respectivamente) seria o previsto em relação ao Grupo LF, devido a uma osteotomia orbital mais ampla, envolvendo todas as paredes (circunferencial), propiciando uma maior magnitude de avanço horizontal no segmento fronto-orbital promovido pelo ponto de tração superior durante o período de ativação do distrator. Esta maior variação do volume orbital encontrada no Grupo MB em relação ao Grupo LF, foi estatisticamente significativa.

Quando avaliados os grupos LF e MB, o aumento médio do volume orbital (amplitude e simetria) foi satisfatório em ambos os grupos, evidenciados pela avaliação tomográfica 3D (comparando-se os valores mensurados no período pré-operatório e no pós-operatório para os volumes orbitais direito e

esquerdo). Foi apresentado normocorreção para o aumento médio do volume orbital, com uma diferença de $4,0546 \pm 2,80781$ % entre os lados direito e esquerdo no Grupo LF, e normocorreção com uma diferença de $5,8595 \pm 6,21669$ entre os lados direito e esquerdo da órbita no Grupo MB. Essas diferenças, tanto para o Grupo LF quanto para o Grupo MB, não foram estatisticamente significante.

Essa diferença, verificada em nosso estudo, entre os lados direito e esquerdo na aferição do volume orbital, está dentro dos valores referidos na literatura, onde o volume entre a órbita direita e esquerda pode ser igual ou pode variar em até aproximadamente 7% a 8% conforme alguns estudos^{84,85}. Portanto, nossos pacientes apresentaram além da melhora funcional, boa simetria entre as órbitas direita e esquerda, inclusive apresentando melhora do aspecto estético relacionado ao exorbitismo, tanto para o Grupo LF, como para o Grupo MB.

5.1.2 Grupo LF e MB: comparação aos índices normais de volumes orbitais

Comparando nossos resultados aos trabalhos de Bentley *et al.*^{75,76}, que estabelecem índices normais aos volumes orbitais, e servem de referência para estudos comparativos de condições que afetam o crescimento orbital durante a infância, a partir de um mês aos 15 anos de idade, obtivemos bons resultados pós-operatório, apresentando normocorreção para a média do volume orbital tanto para o Grupo LF, como para o Grupo MB.

A média do volume orbital relativo ao volume normal foi de $73,92\% \pm 8,3249$ e $76,45\% \pm 10,5894$ para a órbita direita e esquerda, respectivamente, no pré-operatório e $95,36\% \pm 14,1966$ e $98,63\% \pm 17,3460$ no pós-operatório para as órbitas direita e esquerda, respectivamente, no grupo LF. Nos pacientes do grupo MB, a média do volume orbital relativo ao volume normal foi de $55,97\% \pm 12,8868$ e $55,99\% \pm 12,9778$ para a órbita direita e esquerda, respectivamente, no pré-operatório e $94,17\% \pm 21,6004$ e $99,57\% \pm 20,3959$ no pós-operatório para as órbitas direita e esquerda, respectivamente. Esses valores obtidos, corroboram com a melhora clínica relacionada à proteção do globo ocular apresentada em nossos pacientes que, além do aumento da cavidade orbital, também evoluíram com a melhora funcional dos sintomas clínicos relacionados ao exorbitismo, tanto para o Grupo LF como para o Grupo MB.

5.2 Avanços Craniofaciais

Vale a pena ressaltar, que durante este trabalho foram encontrados resultados interessantes relacionados aos avanços craniofaciais (magnitude e seus vetores). Porém, neste momento houve interesse somente em avaliar os avanços quantitativos craniofaciais lineares, e seus vetores, que serviram de base para a correlação com a variação dos volumes orbitais em cada grupo de pacientes, no intuito de avaliar os resultados e determinar parâmetros cirúrgicos ao alongamento ósseo gradual com uso de aparelhos distratores.

No trabalho publicado por Fearon *et al.*³², em que avaliaram o alongamento gradual do terço médio da face por meio de osteotomia LF III

com dispositivos externos (RED), pelo número de giros realizados pelo distrator, observamos que os valores do presente estudo foram menores para o avanço horizontal do terço médio da face, sugerindo que a contagem de giros não tenha correspondido às medidas cefalométricas e/ou tridimensionais, uma vez que a resistência dos tecidos moles, contrapondo o movimento resultante anterior da maxila faz com que esta medida não corresponda à verdadeira magnitude do avanço obtido. Ainda como limitação deste método, não é possível realizar uma análise dos componentes vetoriais dos movimentos craniofaciais pela contagem de giros do distrator, como apresentado no presente estudo.

Ao comparar os resultados do presente estudo com os publicados por Meazzini *et al.*²⁸, onde submeteram seus pacientes à osteotomia Le Fort III com distração osteogênica, pode-se observar avanços semelhantes para a resultante dos pontos orbitais, tanto para os pacientes em fase de crescimento craniofacial, bem como para os que se apresentavam com órbitas desenvolvidas. Entretanto, os autores utilizaram análise cefalométrica para avaliar seus resultados, não permitindo realizar interpretação individualizada em relação a cada movimento orbital. Essa limitação dos estudos cefalométricos não foi verificada em nosso trabalho devido ao caráter tridimensional do método utilizado para avaliação dos pacientes, em que apresentamos avanços simétricos para as órbitas, tanto para o Grupo LF, como para o Grupo MB.

5.3 Resultante dos Movimentos Craniofaciais

5.3.1 Movimento horizontal

Evidencia-se que o componente vetorial do movimento horizontal foi estatisticamente significativo em nosso Grupo MB. Acredita-se que nos pacientes deste grupo, com imaturidade esquelética e presença de níveis de exorbitismos mais acentuados em relação ao Grupo LF, inclusive com um caso de perda unilateral do globo ocular no período pré-operatório, a correção da função relacionada ao aparelho respiratório e ocular são os aspectos de maior importância (prioridade absoluta) neste grupo de pacientes, em detrimento do aspecto estético e/ou correção da disocclusão.

Pelas características de nossos pacientes do Grupo MB possuírem as retrusões mais severas da maxila em relação ao Grupo LF, a resultante do movimento apresentou no componente horizontal a maior magnitude do avanço médio, obtido em nosso estudo pela osteotomia frontofacial em monobloco.

Esse fato, por meio deste direcionamento vetorial com o uso de aparelhos distratores, promoveu o acentuado avanço do terço médio da face na direção anterior. Desta forma, obteve-se êxito em nosso tratamento, apresentando melhora substancial na função respiratória (com melhor permeabilidade das vias aéreas superiores) e orbital (promovendo-se a proteção ocular), pois, ao mesmo tempo em que foi aumentada a cavidade orbital, desobstruiu-se as vias respiratórias; além destes aspectos, os pacientes evoluíram com melhora na aparência facial à profiloplastia, promovido pela correção da acentuada retrusão maxilar que se faz presente nos pacientes portadores de CS.

5.3.2 Movimento vertical

O componente do movimento vertical foi estatisticamente significativo em nosso Grupo LF.

Uma vez que a deficiência do terço médio da face é tridimensional, estes pacientes podem apresentar associadamente ao exorbitismo e o defeito horizontal sempre presentes, um déficit vertical no crescimento da face.

Nos pacientes deste grupo, com faixa etária mais elevada que o Grupo MB, foram operados no período da maturidade esquelética do desenvolvimento craniofacial; os sintomas respiratórios e relacionados ao exorbitismo foram menos acentuados em relação ao Grupo MB.

Portanto, neste grupo de pacientes, encontra-se um esqueleto craniofacial maduro com menos sintomas clínicos respiratórios e oculares. Além da preocupação funcional (sempre de aspecto primordial), pode-se proporcionar associadamente ao alongamento horizontal, um componente para o movimento vertical de maior magnitude.

Desta forma, ao mesmo tempo em que os sintomas visuais relacionados ao exorbitismo são corrigidos, proporciona-se ao paciente um aspecto mais harmônico, alongando a face verticalmente de forma mais significativa em relação ao Grupo MB, conforme a necessidade de cada paciente.

5.3.3 Movimento lateral

No presente estudo não houve diferença estatisticamente significativa quando avaliado quantitativamente o movimento lateral (referente ao plano coronal), e sua decomposição vetorial, tanto para o Grupo LF como para o Grupo MB. Como foi uma avaliação tomográfica 3D realizada em nosso estudo, permitiu-nos avaliar os movimentos laterais, que se mostraram com valores desprezíveis.

Em relação a esta decomposição vetorial do movimento craniofacial, é o valor realmente esperado em termos quantitativos, pois, o desejado é que se tenha um aumento significativo no componente predominantemente horizontal, como supracitado no Grupo MB e, significativamente no vertical, como verificado no Grupo LF.

Quanto à simetria dos avanços craniofaciais por meio desta análise vetorial, verifica-se que os alongamentos craniofaciais se deram de forma simétrica, pois não houve diferença estatisticamente significativa na resultante e/ou decomposição vetorial na análise deste movimento. Portanto, em nosso estudo, não houve predomínio de avanço entre as hemifaces direita e esquerda, tanto para o Grupo Le Fort, quanto para o MB, demonstrando a simetria nos avanços graduais obtidos. Fearon *et al.*³², publicaram em sua série de pacientes, avanço facial assimétrico em dois casos, e distração incompleta em três; atribuiu estas complicações à uma disjunção incompleta unilateral.

Sendo assim, para o tratamento da hipoplasia acentuada do terço médio da face para a correção dos sintomas relacionados ao exorbitismo e aparelho respiratório nos pacientes portadores CS, movimentos de avanços

laterais não se fazem necessários e não foram significativos na avaliação dos pacientes de ambos os grupos. Vale à pena ressaltar que, nos foi permitido avaliá-los, devido ao caráter tridimensional da pesquisa utilizada em nosso estudo para análise dos resultados.

5.4 Correlação dos avanços craniofaciais com a variação dos volumes orbitais nos Grupos LF e MB

5.4.1 Protocolo: definindo parâmetros cirúrgicos quantitativos aos avanços craniofaciais

Atualmente, o controle do período de ativação do alongamento ósseo gradual é apenas clínico, dependendo unicamente da sensibilidade do cirurgião^{6-8,10,24,25}. O edema orbital exuberante durante esta fase inicial pode, em alguns casos, dificultar uma avaliação criteriosa do profissional em estabelecer o momento adequado para finalizar o período de ativação, podendo levar, eventualmente, à hipo ou hipercorreção entre o conteúdo e continente orbital, resultados considerados indesejados.

Diante deste fato, torna-se necessário determinar um protocolo cirúrgico, estabelecendo parâmetros quantitativos aos avanços craniofaciais, e seus vetores, para ser utilizado nos pacientes portadores de craniofaciossinostose sindrômica candidatos à cirurgia por meio de osteotomias craniofaciais (Le Fort III ou Monobloco), objetivando determinar o momento exato do término do período de ativação.

Ao correlacionar a magnitude da resultante do avanço do terço médio da face, obtido com o alongamento ósseo gradual e a variação do volume

orbital, observa-se correlação positiva estatisticamente significativa no Grupo LF, e na órbita esquerda no Grupo MB.

No presente estudo no Grupo LF, para aumento de 1 mm na resultante do avanço do terço médio da face, houve o aumento do volume orbital em $0,488 \text{ mm}^3$ para a órbita direita e $0,576 \text{ mm}^3$ para a órbita esquerda. Já para o Grupo MB, para esta relação de proporcionalidade evidencia-se que, para aumento de 1 mm na resultante do avanço do terço médio da face, o volume orbital aumentou em $0,707 \text{ mm}^3$ para a órbita direita e $0,731 \text{ mm}^3$ para a órbita esquerda.

Por meio desta correlação pode-se definir parâmetros quantitativos para os avanços craniofaciais e melhor programar as cirurgias, bem como avaliar e conduzir eventuais intercorrências no período pós-operatório com mais segurança, tanto para o Grupo LF como para o Grupo MB.

Sabendo que, com o avanço do terço médio da face obtém-se aumento proporcional do volume orbital nos valores supracitados, pode-se melhor avaliar os pacientes no período pré-operatório e, conseqüentemente, melhor definir o planejamento cirúrgico, tendo uma estimativa de quanto deveremos avançar a face com o uso de aparelhos distratores para obtermos o aumento dos volumes orbitais compatíveis aos índices de normalidade. Acredita-se que, aplicando esta correlação, conseguir-se-á oferecer melhores resultados pós-operatórios, fundamentalmente nos casos dos exorbitismos e retrusões mais severas da maxila.

No momento pós-operatório, estes parâmetros quantitativos para os avanços craniofaciais, também poderão nos auxiliar nas situações em que,

eventuais intercorrências cirúrgicas e/ou o exuberante edema no período pós-operatório, possam dificultar a avaliação clínica do cirurgião em determinar o momento exato do término do período de ativação do distrator; assim, evitando que o volume orbital seja clinicamente hipocorrigido ou hipercorrigido em relação aos índices de normalidade dos volumes orbitais.

Desta maneira tem-se mais uma ferramenta útil, não apenas a avaliação clínica, que pode nos auxiliar em nossa decisão em definir o momento exato para finalizar o período de ativação, ajudando a evitar resultados indesejados, exorbitismo residual ou enoftalmia pós-operatórios, vindo a caracterizar o insucesso do tratamento.

Na pretensão de definir parâmetros de avanço gradual do terço médio da face, e seus vetores, para determinar o momento exato do término do período de ativação, pode-se sugerir que no Grupo LF, cujos pacientes foram operados por ocasião da maturidade esquelética, que o alongamento ósseo gradual com o uso de aparelhos distratores seja finalizado quando houver normocorreção do volume orbital tendo como referência os índices de valores normais.

Em relação à análise vetorial para os avanços craniofaciais neste grupo de pacientes, além do vetor de avanço anterior, pode-se oferecer um componente de movimento vertical mais significativo para o alongamento com o uso de aparelhos distratores, dependendo da necessidade de cada paciente; assim, ao mesmo tempo em que se corrigem os sintomas respiratórios e relacionados ao exorbitismo, pode-se melhorar a aparência facial, proporcionando melhor equilíbrio à profiloplastia.

Para o Grupo MB, fase em que foram operados por ocasião da imaturidade esquelética, pode-se propor que o término do período de ativação seja estabelecido após obter normocorreção do volume orbital.

Entretanto, deve-se ter cautela quando houver a necessidade de variações acentuadas do volume orbital para a correção, nos casos dos pacientes portadores de craniofaciossinostose com as mais severas retrusões da maxila e acentuados exorbitismos. No presente estudo, para conseguir a normalidade dos volumes orbitais, foi apresentada uma variação média de 70% - 80% do volume orbital; nesses valores, não foi observada qualquer intercorrência em relação ao aparelho ocular no período pós-operatório, tornando-se um procedimento seguro para essas taxas de variações.

Ainda, neste grupo de pacientes, nosso protocolo em relação ao componente vetorial do avanço craniofacial, observou-se que a resultante do movimento do terço médio da face deve apresentar magnitude mais significativa para o vetor horizontal, durante o processo de alongamento gradual com o uso de aparelhos distratores. Como relatado na literatura, e verificado em nossa casuística, o alívio dos sintomas respiratórios e oculares relacionados ao exorbitismo, encontram neste componente vetorial o fator mais importante para obter sucesso no tratamento cirúrgico. A obtenção do aumento da cavidade orbital e melhora da permeabilidade das vias respiratórias, nos casos mais severos de pacientes portadores CS, estão relacionados a uma magnitude de avanço anterior mais significativa em relação aos demais componentes da resultante do alongamento craniofacial.

Com esta padronização, o presente trabalho pode almejar um tratamento individualizado em cada grupo de pacientes. Também, pretende-se com a utilização do nosso protocolo, proporcionar resultados funcionais mais previsíveis, evitando ou diminuindo a indicação de procedimentos recorrentes e/ou adicionais, por ocasião da maturidade esquelética.

Diante dos resultados aqui expostos, fica a proposta para dar seguimento à utilização destes parâmetros na programação cirúrgica dos pacientes portadores de CS, candidatos ao avanço craniofacial com uso de aparelhos distratores e verificar a eficácia deste protocolo sugerido para uma validação futura.

6 CONCLUSÕES

a) Houve aumento significativo da cavidade orbital tanto para o grupo LF como para o grupo MB. A variação média do volume orbital para atingir os índices de normalidade foi maior no grupo MB. Houve simetria nas órbitas após o procedimento cirúrgico realizado nos dois grupos avaliados.

b) Na avaliação quantitativa e vetorial dos movimentos craniofaciais, a magnitude do componente vertical foi maior no Grupo LF, enquanto a magnitude do componente horizontal foi maior no Grupo MB.

c) A correlação entre os avanços craniofaciais e a variação dos volumes orbitais demonstrou aumento proporcional, maior no Grupo MB.

d) O procedimento cirúrgico foi eficaz, tanto para o Grupo LF como para o Grupo MB, pois se verificou simetria e normocorreção dos volumes orbitais quando comparados aos índices de normalidade.

7 ANEXOS

Anexo A - Aprovação CAPPesq

Hospital das Clínicas da FMUSP
Comissão de Ética para Análise de Projetos de Pesquisa - CAPPesq

PROJETO DE PESQUISA

Título: AVALIAÇÃO DO VOLUME ORBITÁRIO NOS AVANÇOS FRONTO-FACIAIS.

Pesquisador Responsável: Nivaldo Alonso

Versão: 1

Pesquisador Executante: Rodrigo Badotti Antunes

CAAE: 01526812.4.0000.0068

Finalidade Acadêmica: Doutorado

Instituição: HCFMUSP

Departamento: CIRURGIA

PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

Registro on-line: 8952

Número do Parecer: 128.381

Data da Relatoria: 17/10/2012

Apresentação do Projeto: O avanço do terço médio da face é o aspecto primordial no tratamento das disostoses faciais, visando à obtenção da aparência facial adequada e melhora funcional. Os novos métodos, com emprego de alongamento gradual dos tecidos, tanto ósseo como cutâneo, são hoje o padrão-ouro do tratamento cirúrgico. Os problemas oculares (com potenciais sequelas irreversíveis) nos pacientes portadores de craniofaciossinostose são variados, sendo os mais comuns as órbitas rasas, proptose ocular bilateral, hipertelorismo, estrabismo divergente, atrofia óptica, conjuntivite ou ceratoconjuntivite de exposição e redução da acuidade visual. A falta de proteção do globo ocular relacionados à retrusão do terço médio da face e os distúrbios respiratórios têm sido utilizados como indicações absolutas para a intervenção na face conjunta com a remodelagem craniana. Nenhum estudo, entretanto têm avaliado objetivamente os resultados do volume orbitário obtido com a distração osteogênica do terço médio da face, para avaliar o resultado do tratamento cirúrgico do exorbitismo. Atualmente, o controle do período de ativação da distração osteogênica é apenas clínico, dependendo unicamente da sensibilidade do cirurgião. O edema orbitário exuberante durante esta fase dificulta uma avaliação criteriosa em prever o término da ativação, podendo levar à hipo ou hipercorreção entre o conteúdo e continente orbitário, resultando em enoftalmia ou exoftalmia residual, resultados considerados indesejáveis. Desta maneira, torna-se necessário adotar um método que avalie objetivamente a aferição do volume orbitário no pré-operatório e pós-operatório nos pacientes portadores de craniossinostose síndrômica, submetidos ao tratamento da hipoplasia do terço médio da face, com a finalidade de estabelecer um protocolo que determine o exato momento do término do período de ativação.

Objetivo da Pesquisa: Comparar a variação de volume orbitário nos avanços fronto-faciais e nas osteotomias Le Fort III, através da aferição do volume orbitário realizada pela análise tomográfica 3D, utilizando os softwares Materialise (Mimics e Magics), para estabelecer protocolo de avanço através do alongamento gradual do terço-médio da face.

Avaliação dos Riscos e Benefícios: Sem riscos, estudo retrospectivo com prontuários

Rua Dr. Ovídio Pires de Campos, 225 - Prédio da Administração - 5º andar
CEP 05403-010 - São Paulo - SP.
55 11 2661-7585 - 55 11 2661-6442 ramais: 16, 17, 18 | marcia.carvalho@hc.fm.usp.br

Hospital das Clínicas da FMUSP
Comissão de Ética para Análise de Projetos de Pesquisa - CAPPesq

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa: Metodologia aceitável

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória: Nenhuma

Recomendações: Nenhuma

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações: Nenhuma

Situação do Parecer: Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP: Não

Considerações Finais a critério do CEP: Aprovado

São Paulo, 25 de Outubro de 2012

Prof. Dr. Luiz Eugênio Garcez Leme
Coordenador
Comissão de Ética para Análise de
Projetos de Pesquisa-CAPPesq

Anexo B - Dados completos que deram origem ao estudo estatístico

Dados da casuística

	Paciente	Grupo	Idade (anos)	Gênero
1	C.E.S.	Le Fort	14,44	Masculino
2	A.C.S.M	Le Fort	12,82	Feminino
3	F.T.	Le Fort	26,15	Feminino
4	K.V.	Le Fort	18,29	Feminino
5	C.S.G.	Le Fort	25,68	Feminino
6	L.S.S.	Le Fort	15,23	Feminino
7	D.Jr.S.D.	Le Fort	25,36	Masculino
8	M.H.S.	Le Fort	14,3	Feminino
9	M.V.S.	Le Fort	13,24	Feminino
10	F.G.M.T.	Monobloco	6,83	Masculino
11	M.H.S.	Monobloco	7,04	Feminino
12	G.T.	Monobloco	13,37	Masculino
13	G.A.M.S.	Monobloco	3,5	Feminino
14	D.L.S.	Monobloco	5,22	Masculino
15	L.C.O.	Monobloco	5,12	Feminino
16	M.E.S.M.	Monobloco	5,14	Feminino
17	C.S.G.	Monobloco	3,39	Feminino
18	R.S.A.	Monobloco	6,15	Feminino
19	B.G.S.	Monobloco	6,01	Masculino
20	H.P.	Monobloco	8,76	Masculino

Volume

	Grupo	Volume órbita direita Pré-op.	Volume órbita direita Pós-op.	Volume órbita esquerda Pré-op.	Volume órbita esquerda Pós-op.
1	Le Fort	22.028.081	26.345.403	22.596.786	28.285.447
2	Le Fort	22.274.581	24.577.830	23.332.352	23.914.107
3	Le Fort	14.879.117	16.338.912	14.699.971	15.848.903
4	Le Fort	19.164.542	28.313.115	21.457.290	30.595.989
5	Le Fort	19.884.282	29.640.872	20.639.305	30.571.986
6	Le Fort	18.478.617	24.613.489	16.367.727	22.876.212
7	Le Fort	18.738.646	28.177.439	19.339.022	28.574.418
8	Le Fort	20.298.525	24.527.282	20.414.926	24.061.590
9	Le Fort	20.696.617	25.234.877	19.443.555	25.510.045
10	Monobloco	13.130.910	16.920.611	13.348.867	16.371.954
11	Monobloco	11.918.691	18.567.086	12.201.252	18.483.671
12	Monobloco	11.379.909	20.061.567	9.654.195	19.017.535
13	Monobloco	8.055.106	15.391.740	8.048.577	18.448.045
14	Monobloco	14.848.297	24.826.177	13.922.145	25.846.108
15	Monobloco	10.613.325	17.025.620	11.073.619	19.603.435
16	Monobloco	12.483.097	26.032.613	10.640.570	25.622.960
17	Monobloco	13.541.396	20.713.370	14.148.292	22.324.216
18	Monobloco	15.854.627	25.923.394	16.324.468	26.035.006
19	Monobloco	19.163.244	28.783.912	16.840.206	27.998.516
20	Monobloco	13.120.718	28.307.001	12.606.389	27.366.519

Órbita Direita

	Paciente	Grupo	Resultante	Avanço horizontal	Avanço vertical	Avanço lateral
1	C.E.S.	Le Fort	10,44	7,56	7,08	1,31
2	A.C.S.M	Le Fort	7,57	3,3	6,8	0,24
3	F.T.	Le Fort	3,87	2,79	1,62	2,13
4	K.V.	Le Fort	15,89	14,14	6,45	3,2
5	C.S.G.	Le Fort	12,59	10,36	6,97	1,57
6	L.S.S.	Le Fort	14,69	7,75	12,29	1,79
7	D. Jr.S.D.	Le Fort	12,44	10,83	6,12	0,26
8	M.H.S.	Le Fort	10,31	10,07	2,20	0,17
9	M.V.S.	Le Fort	14,41	14,11	2,85	0,68
10	F.G.M.T.	Monobloco	15,09	14,81	1,26	2,20
11	M.H.S.	Monobloco	14,25	11,57	8,08	1,90
12	G.T.	Monobloco	17,30	16,68	4,56	0,46
13	G.A.M.S.	Monobloco	14,14	13,41	4,02	1,99
14	D.L.S.	Monobloco	10,49	9,14	5,00	1,02
15	L.C.O.	Monobloco	9,01	8,81	1,84	0,37
16	M.E.S.M.	Monobloco	19,67	18,09	7,27	2,61
17	C.S.G.	Monobloco	12,45	12,4	1,12	0,31
18	R.S.A.	Monobloco	12,49	12,45	1,00	0,30
19	B.G.S.	Monobloco	9,47	9,46	0,20	0,56
20	H.P.	Monobloco	22,01	21,97	1,10	0,78

Órbita Esquerda

	Grupo	Resultante	Avanço horizontal	Avanço vertical	Avanço lateral
1	Le Fort	11,89	9,52	7,10	0,58
2	Le Fort	8,1	1,4	5,6	5,8
3	Le Fort	3,44	2,16	2,70	0,05
4	Le Fort	14,47	12,97	6,38	0,69
5	Le Fort	13,02	10,90	7,12	0,12
6	Le Fort	12,20	7,64	9,38	1,60
7	Le Fort	12,05	10,61	5,61	0,23
8	Le Fort	10,60	10,19	2,77	0,93
9	Le Fort	14,21	12,98	5,42	2,02
10	Monobloco	11,99	11,87	1,6	0,37
11	Monobloco	11,51	11,37	1,93	0,59
12	Monobloco	18,40	18,12	2,20	2,33
13	Monobloco	17,2	17,17	0,65	0,65
14	Monobloco	11,12	9,55	5,69	0,21
15	Monobloco	8,81	8,70	1,31	0,44
16	Monobloco	21,35	21,26	1,77	0,51
17	Monobloco	10,34	10,28	0,05	1,12
18	Monobloco	13,95	13,63	0,26	2,92
19	Monobloco	12,80	12,78	0,85	0,09
20	Monobloco	21,81	21,75	1,42	0,58

Maxila

	Grupo	Resultante	Avanço horizontal	Avanço vertical	Avanço lateral
1	Le Fort	15,44	12,55	8,99	0,14
2	Le Fort	6,1	1,46	5,91	0,45
3	Le Fort	4,26	3,03	2,99	0,23
4	Le Fort	14,8	12,47	7,86	1,32
5	Le Fort	11,52	10,93	13,59	0,6
6	Le Fort	14,34	5,0	13,43	0,6
7	Le Fort	9,94	9,72	2,10	0,10
8	Le Fort	14,08	13,42	4,18	0,90
9	Le Fort	16,57	15,24	6,45	0,64
10	Monobloco	15,19	14,72	3,70	0,28
11	Monobloco	13,84	5,93	12,46	0,97
12	Monobloco	17,16	15,98	6,21	0,45
13	Monobloco	13,22	13,00	1,45	1,13
14	Monobloco	16,40	14,94	6,75	0,14
15	Monobloco	9,18	8,40	3,69	0,04
16	Monobloco	20,67	19,20	7,60	0,88
17	Monobloco	13,8	13,4	2,52	2,00
18	Monobloco	13,04	12,70	2,92	0,45
19	Monobloco	9,93	9,89	0,48	0,01
20	Monobloco	25,25	24,35	6,54	1,29

Frontal

	Grupo	Resultante	Avanço horizontal	Avanço vertical	Avanço lateral
1	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
2	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
3	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
4	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
5	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
6	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
7	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
8	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
9	Le Fort	não se aplica	não se aplica	não se aplica	não se aplica
10	Monobloco	8,21	8,2	0,33	0,21
11	Monobloco	18,80	18,79	0,37	0,59
12	Monobloco	10,47	10,45	0,53	0,25
13	Monobloco	11,82	11,8	0,24	0,20
14	Monobloco	4,43	4,1	0,38	0,08
15	Monobloco	7,72	7,62	1,08	0,48
16	Monobloco	18,40	14,40	0,06	0,14
17	Monobloco	10,43	10,22	1,51	1,37
18	Monobloco	10,84	10,81	0,09	0,78
19	Monobloco	10,22	10,21	0,30	0,03
20	Monobloco	12,75	12,75	0,18	0,08

8 REFERÊNCIAS

1. Yeh E, Fanganiello RD, Sunaga DY, Zhou X, Holmes G, Rocha K M, Alonso N, Matushita H, Wang Y, Jabs EW, Passos-Bueno MR. Novel molecular pathways elicited by mutant FGFR2 may account for brain abnormalities in apert syndrome. *PLoS One*. 2013; 8(4):e6439.
2. Oliveira, NAJ. *Estudo molecular das craniossinostoses sindrômicas: Crouzon, Pfeiffer e Saethre-Chotzen* [dissertação]. São Paulo: Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo; 2006.
3. Fernandes MBL. *Síndromes de Apert e Crouzon: perfil cognitivo e análise molecular* [dissertação]. Bauru: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo; 2011.
4. Lopes VLGS. *Estudos moleculares de craniossinostoses com ênfase na mutação Q289P do gene FGFR2* [dissertação]. Campinas: Faculdade de Ciências Médicas da Universidade Estadual de Campinas; 2008.
5. Meazzini MC, Mazzoleni F, Caronni E, Bozzetti A. Le Fort III Advancement osteotomy in the growing child affected by crouzon's and apert's syndromes: presurgical and postsurgical growth. *J Craniofac Surg*. 2005; 16(3):369-77.

6. Satoh K, Mitsukawa N, Hosaka Y. Dual midfacial distraction osteogenesis: Le Fort III Minus I and Le Fort I for syndromic craniosynostosis. *Plast Reconstr Surg*. 2003; 111(3):1019-28.
7. Shetye PR, Sorkin M, Grayson BH, McCarthy JG. Evaluation of Three surgical techniques for advancement of the midface in growing children with syndromic craniosynostosis. *Plast Reconstr Surg*. 2010; 126(3):982-93.
8. Cruz AA, Akaishi PM, Arnaud E, Marchac D, Renier D. Exorbitism correction of faciocraniosynostoses by monobloc frontofacial advancement with distraction osteogenesis. *J Craniofac Surg*. 2007; 18(2):355-60.
9. Meling TR, Due-Tonnessen BJ, Hogevoid HE, Skjelbred P, Arctander K. Monobloc distraction osteogenesis in pediatric patients with severe syndromal craniosynostosis. *J Craniofac Surg*. 2004; 15(6):990-1000.
10. Bender CA, Veneman W, Veenland JF, Mathijssen IM, Hop WC, Koudstaal MJ, Wolvius EB. Orbital aspects following monobloc advancement in syndromic craniosynostosis. *J Craniomaxillofac Surg*. 2013; 41(7):e146-53.
11. Nout E, van Bezooijen JS, Koudstaal MJ, Veenland JF, Hop WC, Wolvius EB, van der Wal KG. Orbital change following Le Fort III advancement in syndromic craniosynostosis: quantitative evaluation of orbital volume, infra-orbital rim and globe position. *J Craniomaxillofac Surg*. 2012; 40(3):223-8.

12. Ko E, Chem PK, Tai C, Huang CS. Fronto-facial monobloc distraction in syndromic craniosynostosis. Three dimensional evaluation of treatment outcome and facial growth. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2012; 41(1):20-7.
13. Polley JW, Figueroa AA, Charbel FT, Berkositz R, Reiseberg D, Cohen M. Monobloc Craniomaxillofacial distraction osteogenesis in a newborn with severe craniofacial synostosis: a preliminary report. *J Craniof Surg*. 1995; 6(5):421-3.
14. Ponniah AJ, Witherow H, Richards R, Evans R, Hayward R, Dunaway D. Three-dimensional image analysis of facial skeletal changes after monobloc and bipartition distraction. *Plast Reconstr Surg*. 2008; 122(1):225-31.
15. Witherow H, Dunaway D, Ponniah A, Vhayward R. Monobloc distraction in an infant, using the rigid external distractor: problems and solutions - A case report. *J Craniomaxillofac Surg*. 2008; 36(1):15-20.
16. Lannetti G, Ramieri V, Pagnoni M, Fadda MT, Cascone P. Le Fort III external midface distraction: surgical outcomes and skeletal stability. *J Craniofac Surg*. 2012; 23(3):896-900.
17. Witherow H, Dunaway D, Evans R, Nischal KK, Shipster C, Pereira V, Hearst D, White M, Jones BM, Hayward R. Functional outcomes in monobloc advancement by distraction using the rigid external distractor device. *Plast Reconstr Surg*. 2008; 121(4):1311-22.

18. Arnaud E, Marchac D, Renier D. Reduction of morbidity of the frontofacial monobloc advancement in children by the use of internal distraction. *Plast Reconstr Surg*. 2007; 120(4):1009-26.
19. Bradley JP, Gabbay JS, Taub PJ, Heller JB, O'Hara CM, Benhaim P, Kawamoto HK Jr. Monobloc advancement by distraction osteogenesis decreases morbidity and relapse. *Plast Reconstr Surg*. 2006; 118(7):1585-97.
20. O'Connor EJF, Marucci DD, Jeelani NO, Phil M, Witherow H, Richards R, Dunaway DJ, Hayward RD. Ocular advancement in monobloc distraction. *Plast Reconstr Surg*. 2009; 123(5):1570-7.
21. Lima DSL. *Avaliação de pontos cefalométricos no alongamento ósseo do terço médio da face com a utilização de dispositivo externo rígido em portadores de craniossinostoses sindrômicas* [dissertação]. São Paulo: Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo; 2008.
22. Ahmad F, Cobb AR, Mills C, Jones BM, Hayward RD, Dunaway DJ. Frontofacial monobloc distraction in the very young: a review of 12 consecutive cases. *Plast Reconstr Surg*. 2012; 129(3):488e-97e.
23. Shetye P, Kapadia H, Grayson BH, McCarthy JG. A 10-year study of skeletal stability and growth of the midface following Le Fort III advancement in syndromic craniosynostosis. *Plast Reconstr Surg*. 2010; 126(3):973-81.

24. Swennen G, Dempf R, Schliephake H. Cranio-facial distraction osteogenesis: a review of the literature. Part II: experimental studies. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2002; 31(2):123-35.
25. Swennen G, Schliephake H, Dempf R, Schierle H, Malevez C. Craniofacial distraction osteogenesis: a review of the literature. Part 1: clinical studies. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2001; 30(2):89-103.
26. Lima DS, Alonso N, Câmara PRP, Goldenberg DC. Evaluation of cephalometric points in midface bone lengthening with the use of a rigid external device in syndromic craniosynostosis patients. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2009; 75(3):395-406.
27. Amaral CER, Cassio E, Raposo do Amaral CA, Buzzo CL, Guidi MG, Jarrahy R, Bradley JP, Kawamoto HK. Avanço fronto facial em monobloco com distração osteogênica para tratamento das craniofaciossinostoses: comparação entre 2 distratores. *Rev Bras Cir Craniomaxilofac*. 2008; 11(3):105-10.
28. Meazzini MC, Allevia F, Mazzoleni F, Ferrari L, Pagnoni M, Iannetti G, Bozzetti A, Brusati R. Long-term follow-up of syndromic craniosynostosis after Le Fort III halo distraction: a cephalometric and CT evaluation. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*. 2012; 65(4):464-72.
29. Holmes A, Wright GW, Meara JG, Heggie AA, Probert TC. LeFort III internal distraction in syndromic craniosynostosis. *J Craniofac Surg*. 2002; 13(2):262-72.

30. Nishimoto S, Oyama T, Shimizu F, Tsugawa T, Nagashima T, Yamamoto K, Kamiji T, Kanomi R. Fronto-facial monobloc advancement with rigid external distraction (RED-II) system. *J Craniofac Surg*. 2004; 15(1):54-9.
31. Mavili ME, Tunçbilek G, Vargel I. Rigid external distraction of the midface with direct wiring of the distraction unit in patients with craniofacial dysplasia. *J Craniofac Surg*. 2003; 14(5):783-5.
32. Fearon JA. Halo distraction of the Le Fort III in syndromic craniosynostosis: a long-term assessment. *Plast Reconstr Surg*. 2005; 115(6):1524-36.
33. Tunçbilek G, Mavilli ME, Vargel I, Enacar A, Erk Y. Midface distraction using spring scale attached to rigid external device. *Plast Reconstr Surg*. 2004; 113(5):1410-16.
34. Nakajima H, Sakamoto Y, Tamada I, Ohara H, Kishi K. An internal distraction device for Le Fort distraction osteogenesis: The NAVID system. *J Plastic, Reconstr Aesthet Surg*. 2012; 65(1):61-7.
35. Satoh K, Mitsukawa N, Tosa Y, Kadomatsu K. Le Fort III midfacial distraction using an internal distraction device for syndromic craniosynostosis: device selection, problems, indications, and a proposal for use of a parallel bar for device-setting. *J Craniofac Surg*. 2006; 17(6):1050-8.

36. Meling T, Hans-Erik H, Per S, Tonnessen B. J. Le Fort III Distraction osteogenesis in syndromal craniosynostosis. *J Craniofac Surg.* 2006; 17(1):28-39.
37. Kobus KF. New osteotomies for midface advancement in patients with crouzon syndrome. *J Craniofac Surg.* 2006; 17(5):957-61.
38. Iannetti G, Fadda T, Agrillo A, Poladas G, Iannetti G, Filiaci F. LeFort III Advancement with and without osteogenesis distraction. *J Craniofac Surg.* 2006; 17(3):536-43.
39. Gillies H, Harrison SH. Operative correction by osteotomy of recessed malar maxillary compound in a case of oxycephaly. *Br J Plast Surg.* 1950; 3(2):123-7.
40. Tessier P. The definitive plastic surgical treatment of the severe facial deformities of craniofacial dysostosis. *Plast Reconstr Surg.* 1971; 48(5):419-42.
41. Monasterio FO, del Campo AF, Carrillo A. Advancement of the orbits and the midface in one piece, combined with frontal repositioning, for the correction of Crouzon's deformities. *Plast Reconstr Surg.* 1978; 61(4):507-16.

-
42. Sant'Anna EF, de A Cury Saramago A, Figueroa AA, Polley JW. Evaluation of maxillary permanent molars in patients with syndromic craniosynostosis after monobloc osteotomy and midface advancement with rigid external distraction (RED). *Cleft Palate Craniofac J*. 2010; 47(2):109-15.
 43. Codivilla A. On the means of lengthening, in the lower limbs, the muscles and tissues, which are shortened through deformity. *Am J Orthop Surg*. 1904; 2:353-69.
 44. Fung S, Yu CNF, Tang BNC, Bok PWS, Liu KKW. Use of a rigid external distractor in the correction of maxillary hypoplasia in a cleft lip and palate patient. *Hong Kong Dent J*. 2004; 1:73-7.
 45. Amaral CMR, Cardoso LAA, Buzzo CL, Rinco T, Domizio GD, Bueno MAC. Tratamento da síndrome de apert e da anomalia de Crouzon por alongamento ósseo gradual. *Rev Soc Bras Cir Plast*. 1998; 13(3):57-66.
 46. Zandoná RL, Fogaça CL, Eidt SV. Reduction of maxillary bone defect by horizontal distraction osteogenesis. *Full Dent Sci*. 2011; 2(8):364-71.
 47. Amaral CM, Di Domizio G, Tiziani V, Galhardi F, Buzzo CL, Rinco T, Kharmandayan P, Bueno MAC, Bolzani N, Sabbatini RM E, Lopes L D, Lopes PF, Paiva B, Paiva RMO, Turchiari LAA. Gradual bone distraction in craniosynostosis. Preliminary results in seven cases. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg*. 1997; 31(1):25-37.

48. Ilizarov GA. The principles of the Ilizarov method. *Bull Hosp Jt Dis Orthop Inst.* 1988; 48:1-11.
49. Guerrero CA. Expansion mandibular quirurgica. *R Venez Ortod.* 1990; 48:1-2.
50. McCarthy JG, Schreiber J, Karp N, Thorne CH, Grayson BH. Lengthening the human mandible by gradual distraction. *Plast Reconstr Surg.* 1992; 89(1):1-10.
51. Molina F, Ortiz Monasterio F. Mandibular elongation and remodeling by distraction: a farewell to major osteotomies. *Plast Reconstr Surg.* 1995; 95(4):825-42.
52. Rachmiel A, Levy M, Laufer D, Clayman L, Jackson IT. Multiple segmental gradual distraction of facial skeleton: an experimental study. *Ann Plast Surg.* 1996; 36(1):52-9.
53. Cohen SR, Rutrick RE, Burstein FD. Distraction osteogenesis of the human craniofacial skeleton: initial experience with a new distraction system. *J Craniofac Surg.* 1995; 6(5):368-74.
54. Shin JH, Duncan CC, Persing J. Monobloc distraction: technical modification and considerations. *J Craniofac Surg.* 2003; 14(5):763-6.

55. Saltaji H, Altalib M, Major MP, Al-Nuaimi MH, Tabbaa S, Major PW, Flores-Mir C. Le Fort III distraction osteogenesis versus conventional Le Fort III osteotomy in correction of syndromic midfacial hypoplasia: A systematic review. *J Oral Maxillofac Surg.* 2014; 72(5):959-72.
56. Chin M, Toth BA. Distraction osteogenesis in maxillofacial surgery using internal devices: review of five cases. *J Oral Maxillofac Surg.* 1996; 54(1):45-54.
57. Andrade N, Gandhewar T, Kalra R. Development and evolution of distraction devices: Use of indigenous appliances for distraction osteogenesis-an overview. *Ann Maxillofac Surg.* 2011; 1(1):58-65.
58. Alonso N, Goldenberg D, Fonseca AS, Kanashiro E, Matsushita H, Freitas Rda S, Shin JH. Blindness as a complication of monobloc frontofacial advancement with distraction. *J Craniofac Surg.* 2008; 19(4):1170-3.
59. Bholsithi W, Tharanon W, Chintakanon K, Komolpis R, Sinthanayothin C. 3D vs. 2D cephalometric analysis comparisons with repeated measurements from 20 thai males and 20 thai females. *Biomed Imaging Interv J.* 2009; 5(4):e21.
60. Meurer M, Silva JVL, Bárbara AS, Nobre LF, Oliveira MG, Silva DN. Acquisition and manipulation of computed tomography images of the maxillofacial region for biomedical prototyping. *Radiol Bras.* 2008; 41(1):49-54.

61. Amorim P, Azevedo FS, Silva JVL. *Vesalius: software livre de imagens médicas*. In: XXXI Congresso da Sociedade Brasileira de Computação. 2011. Disponível em: <<http://www.cti.gov.br/invesalius/files/pub/InVesaliusCSBC 2011.pdf>>. Acesso em: 10 out 2013.
62. Camilo AA, Moraes TF, Azevedo FS, Silva JVL. *Invesalius: medical image edition*. Centro de Tecnologia da Informação Renato Archer; 2012. Disponível em: <<http://www.cti.gov.br/index.php/dt3d-apresentacao.html>>. Acesso em: mar 2014.
63. Grauer D, Cevidanes LS, Proffit WR. Working with DICOM craniofacial images. *Am J Orthod Dentofacial Orthop*. 2009; 136(3):460-70.
64. Gebhardt A. *Understanding additive manufacturing*. South America: Hanser Publications; 2011.
65. Garib DG, Raimudo Júnior R, Raymundo MV, Raymundo DV, Ferreira SN. Tomografia computadorizada de feixe cônico (Cone beam): entendendo este novo método de diagnóstico por imagem com promissora aplicabilidade na Ortodontia. *R Dental Press Ortodon Ortop Facial*. 2007; 12(2):139-56.
66. Özyazgan I, Erdogan N, Sahin B. Stereologic orbital volume measurements in zygomatic fractures. *J Oral Maxillofac Surg*. 2009; 67(12):2605-8.

67. Kolk A, Pautke C, Schott V, Ventrella E, Wiener E, Ploder O, Horch H. H, Neff A. Secondary post-traumatic enophthalmos: high-resolution magnetic resonance imaging compared with multislice computed tomography in postoperative orbital volume measurement. *J Oral Maxillofac Surg.* 2007; 65(10):1926-34.
68. Deveci M, Ozturk S, Sengezer M, Pabuscu Y. Comparison of pre- and postoperative orbital volume using three dimensional CT imaging in zygoma fracture patients. *Eur J Plast Surg.* 2000; 23:432-7.
69. Kwon J, Barra JE, Jung TY, Most SP. Measurements of orbital volume change using computed tomography in isolated orbital blowout fractures. *Arch Facial Plast Surg.* 2009; 11(6):395-8.
70. Forte AJ, Alonso N, Persing JA, Pfaff MJ, Brooks ED, Steinbacher DM. Analysis of midface retrusion in Crouzon and Apert Syndromes. *Plast Reconstr Surg.* 2014; 134(2):285-93.
71. Regensburg NI, Kok PH, Zonneveld FW, Baldeschi L, Saeed P, Wiersinga W. M, Mourits M. P. A new and validated ct-based method for the calculation of orbital soft tissue volumes. *Invest Ophthalmol Vis Sci.* 2008; 49(5):1758-62.
72. Ye J, Kool KH, Lee SY. Evaluation of computer-based volume measurement and porous polyethylene channel implants in reconstruction of large orbital wall fractures. *Invest Ophthalmol Vis Sci.* 2006; 47(2):509-13.

-
73. Kolka A, Pautke C, Wienerb E, Schottb V, Wolffa KD, Horcha HH, Rummenyb EJ. Isotropic proton-density-weighted high-resolution MRI for volume measurement of reconstructed orbital fractures - A comparison with multislice CT. *Magn Reson Imaging*. 2008; 26:1167-74.
74. Festa F, Pagnoni M, Valerio R, Rodolfino D, Saccucci M, d'Attilio M, Caputi S, Iannetti G. Orbital volume and surface after Le Fort III advancement in syndromic craniosynostosis. *J Craniofac Surg*. 2012; 23(3):789-92.
75. Bentley RP, Sgouros S, Natarajan K, Dover S, Hockley AD. Normal changes in orbital volume during childhood. *J Neurosurg*. 2002; 96(4):742-6.
76. Bentley R, Sgouros S, Natarajan K, Dover S, Hockley AD. Changes in orbital volume during childhood in cases of craniosynostosis. *J Neurosurg*. 2002; 96(4):747-54.
77. Furuta M. Measurement of Orbital volume by computed tomography: especially on the growth of the orbit. *Jpn J Ophthalmol*. 2001; 45(6):600-6.
78. Villela CHS. *Proposta e Aplicação de um novo protocolo 3D no diagnóstico da assimetria facial utilizando-se da tomografia computadorizada* [dissertação]. Campinas: Faculdade de Engenharia Mecânica, Universidade Estadual de Campinas; 2012.

-
79. Roça GB. *Comparação da volumetria orbital obtida através de tomografia e prototipagem rápida* [dissertação]. Curitiba: Universidade Federal do Paraná; 2013.
 80. Field A. *Descobrimo a estatística usando o SPSS*. 2ª ed. Porto Alegre: Artmed; 2009.
 81. Acer N, Shain B, Ergur H, Basaloglu H, Ceri NG. Stereological estimation of the orbital volume: a criterion standard study. *J Craniofac Surg*. 2009; 20(3):921-5.
 82. Roça GB, Foggiatto JA, Ono MCC, Ono SE, Freitas RS. Comparison of orbital volume obtained by tomography and rapid prototyping. *J Craniofac Surg*. 2013; 24(6):1877-81.
 83. Imai K, Fujimoto T, Takahashi M, Maruyama Y, Yamaguchi K. Preoperative and postoperative orbital volume in patients with crouzon and Apert syndrome. *J Craniofac Surg*. 2013; 24(1):191-4.
 84. Forbes G, Gehring DG, Gorman CA, Brennan MD, Jackson IT. Volume measurements of normal orbital structures by computed tomographic analysis. *AJR Am J Roentgenol*. 1985; 145(1):149-54.
 85. Yoshida M, Alonso N, Tonello C, Magella G. Tomographic analysis of the relation between orbital volume and ocular globe projection in orbital floor fracture. *Rev Bras Cir Craniomaxilofac*. 2010; 13(1):23-6.

APÊNDICE

Apêndice A - Submissão

Journal of Craniofacial Surgery ASSESSMENT OF ORBITAL VOLUME IN FRONTO-FACIAL ADVANCEMENTS --Manuscript Draft--

Manuscript Number:	SCS-14-1346
Full Title:	ASSESSMENT OF ORBITAL VOLUME IN FRONTO-FACIAL ADVANCEMENTS
Short Title:	ORBITAL VOLUME IN FRONTO-FACIAL ADVANCEMENTS
Article Type:	Original Article
Keywords:	Craniofaciosynostosis; Exorbitism; Monobloc; Le Fort III; Orbital volume.
Corresponding Author:	Nivaldo Alonso, Phd São Paulo University São Paulo, BRAZIL
Corresponding Author Secondary Information:	
Corresponding Author's Institution:	São Paulo University
Corresponding Author's Secondary Institution:	
First Author:	Rodrigo Badotti Antunes, MD
First Author Secondary Information:	
Order of Authors:	Rodrigo Badotti Antunes, MD Anderson Aparecido Camilo, Eng Airton Moreira da Silva, Eng Jorge Vicente Lopes da Silva, Eng Nivaldo Alonso, Phd
Order of Authors Secondary Information:	
Manuscript Region of Origin:	BRAZIL
Abstract:	Objectives: Compare the orbit volume variation and evaluate facial advancements by 3-dimensional tomographic analysis to define parameters for facial elongation. Introduction: Syndromic craniofacial synostosis is characterized by cranial morphological alterations and hypoplasia of the midface that may result in obstructive sleep apnea and exorbitism; these effects are indications of surgical treatment. The gradual advancement of tissues is the surgical treatment to correct accentuated exorbitisms and jaw retrusions. Methods: Retrospective study by review of medical records and tomographic examinations of 20 patients submitted to distraction osteogenesis between 2001 and 2012, who were divided into 2 groups: Groups MB and LF with 11 and 9 patients, who underwent frontofacial or Le Fort III osteotomy. The orbit volume was measured with the InVesalius and Magic, and facial advancements with Rhinoceros softwares. Statistical analyses were conducted using Student's t-test and ANOVA. Results: Patient age ranged from 6 to 29 years. Group MB showed an increase of 8.94 mm ³ and 9.84 mm ³ in the right and left orbit volume variation, while Group LF presented 5.70 mm ³ and 5.77 mm ³ . The average advancements in the right and left orbits were 11.36 + 3.80 mm and 11.11 + 3.45 mm in Group LF, respectively and 14.22 + 4.12 mm and 14.48 + 4.49 mm in Group MB. Conclusion: Exorbitism was satisfactorily treated. We infer that it is effective to normalize the orbit volume in Group LF and Group MB. Horizontal advancements in osteotomies in mature orbits are the best predictors of the final results.