UNIVERSIDADE DE SÃO PAULO
HOSPITAL DE REABILITAÇÃO DE ANOMALIAS CRANIOFACIAIS

ANDRESSA SHARLLENE CARNEIRO DA SILVA

Sleep breathing disorders following Sommerlad secondary palatoplasty for the treatment of velopharyngeal insufficiency

Desordens respiratórias do sono após palatoplastia secundária de Sommerlad para tratamento da insuficiência velofaríngea

BAURU
2021

ANDRESSA SHARLLENE CARNEIRO DA SILVA

Sleep breathing disorders following Sommerlad secondary palatoplasty for the treatment of velopharyngeal insufficiency

Desordens respiratórias do sono após palatoplastia secundária de Sommerlad para tratamento da insuficiência velofaríngea

Tese apresentada ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo para obtenção do título de Doutor em Ciências da Reabilitação da área de concentração Fissuras Orofaciais e Anomalias relacionadas.

Orientador: Profa. Dra. Inge Elly Kiemle Trindade

BAURU

2021

Silva, Andressa Sharllene Carneiro da
Desordens respiratórias do sono após palatoplastia secundária de Sommerlad para tratamento da insuficiência velofaríngea / Andressa Sharllene Carneiro da Silva. -- Bauru, 2021.
89 p. : il. ; 31 cm.

Tese (Doutorado) -- Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo, 2021.

Orientador: Profa. Dra. Inge Elly Kiemle Trindade

Autorizo, exclusivamente para fins acadêmicos e científicos, a reprodução total ou parcial desta dissertação/tese, por processos fotocopiadores e outros meios eletrônicos.

Assinatura:

Data:

Comitê de Ética do HRAC-USP
Protocolo nº: 63645317.1.0000.5441
Data: 02/02/2017

FOLHA DE APROVAÇÃO

DEDICATÓRIA

Dedico este trabalho...

Primeiramente a Deus, que por sua magnificência me concedeu a dádiva de poder servi-lo por meio da minha profissão no serviço aos pacientes, motivo maior da minha paixão pelos estudos.

Aos Pacientes do HRAC, bem como todos aqueles nascidos com anomalias craniofaciais, que este estudo contribua para a reabilitação integral e o sucesso do tratamento.

Por fim, dedico este trabalho a **honra** *de Meus Pais, Edvalda e Adalberto.*

(Efésios 6:1-4)

Agradeço Incondicionalmente...

A Deus,

Pelo sopro de vida,
Pelas oportunidades concedidas e força para alcançá-las,
Por abençoar todas as minhas escolhas, e, sob os dons do Espírito Santo, permitir que eu desfrute amorosamente da vida.
Pela presença constante em meu coração, guiando-me para um caminho de vitórias, alegrias e de muita luz.

"Obrigada Senhor por mais esta conquista."

Agradeço aos meus amados pais, fortes e corajosos, que mesmo em meio aos obstáculos da vida, nunca ofuscaram o brilho dos olhos e tampouco o sorriso largo, o que me trouxe a segurança necessária para buscar realizar os meus sonhos. Singularmente, agradeço minha mãe, Edvalda, pelo amor incondicional, zelo e dedicação em todas as minhas fases de vida.

Ao meu pai, Adalberto agradeço o carinho e a parceria nas ousadias das metas.

Estendo os agradecimentos aos meus amados irmãos Daniel e Adalberto Jr, e demais membros familiares que estiveram na torcida para a conclusão dessa jornada.

Ao Joel Ferreira Santiago Jr, agradeço o seu constante amor, incentivo, paciência e companheirismo ao longo desses anos. Obrigada por partilhar dos meus sonhos vibrando comigo as conquistas. O seu amor foi essencial para alcançarmos com sabor esta vitória! Estendo os agradecimentos aos seus queridos pais, Ester e Joel, pelo carinho e palavras de apoio sempre.

A vocês, o meu eterno amor.

Agradeço especialmente...

À minha orientadora *Profa.Dra.Inge Elly Kiemle Trindade*,

Pela confiança em realizar este estudo.
Difícil condensar em palavras a sua importância na minha trajetória acadêmica, desde a graduação até o presente momento, na construção da minha formação científica por excelência. Sua importância na minha atuação profissional, tendo por base a competência, incluindo o zelo e a ética para com os pacientes e sua importância na minha vida pessoal que ultrapassam o papel de orientadora e sim de mentora.

À senhora os meus especiais agradecimentos e a certeza da minha admiração, respeito e gratidão.

Agradeço...

Ao *Laboratório de Fisiologia-HRAC-USP*, na pessoa de *Profa.Dra.Ana Paula Fukushiro*, pela possibilidade técnica em realizar o estudo, bem como na cooperação em todas as suas fases, incluíndo o auxílio do corpo clínico especializado.

Particularmente, agradeço à equipe do laboratório:

A *Dra. Renata Paciello Yamashita*, na contribuição técnico-científica no estudo, sobretudo agradeço a convivência com sua competência profissional. Eu sempre lhe serei grata pelo "sim" na condição de aluna de iniciação científica, o qual foi o 1º passo para eu chegar neste momento.

A *Ms. Bruna Mara Adorno Marmontel Araújo*, agradeço a parceria clínica, acadêmica e pessoal ao longos dos anos, que só se fortalecem a cada dia. Obrigada pela cumplicidade, apoio e amizade.

A *Profa. Dra. Ana Paula Fukushiro*, na condição de chefe do laboratório, agradeço a liberação para realização do curso de doutorado, bem como para realização de outros cursos externos de capacitação profissional. Frente ao estudo, agradeço a sua atenção e apoio, em todas as etapas. Pessoalmente, foi um privilégio ser sua aluna FOB-USP e atualmente é uma satisfação compartilhar experiências clínicas na vivência do laboratório, sempre com ensinamentos preciosos. Agradeço ainda, pelo carinho e conselhos.

Ao *Prof. Dr. Sérgio Henrique Kiemle Trindade*, minha estima pela contribuição técnico-científica no estudo e assessoria médica durante a fase de coleta, e construção dos artigos. Particularmente, agradeço a sua prontidão em todas as fases do estudo e discussão de casos clínicos.

A *Profa.Dra. Ivy Kiemle Trindade Suedam*, pelo apoio na fase de coleta, na assistência aos exames, bem como nas fases finais do estudo. Em particular, agradeço sua prontidão sempre que necessário.

A *Dra. Ana Claudia Martins Sampaio Teixeira*, pela contribuição técnico-científica no estudo e pessoalmente pelos bons momentos, conselhos, carinho e amizade.

Ao querido *Prof. Dr. Alceu Sérgio Trindade Junior*, cujos ensinamentos de fisiologia se fazem fortemente presente em meus estudos de base para a atuação clínica.

A todos vocês a minha profunda admiração e respeito. É uma honra integrar esta equipe!

Agradeço as instituições :

A minha casa – **HRAC-USP**, na pessoa do superintendente *Prof.Dr.Carlos Ferreira dos Santos*, pela possibilidade em realizar o estudo, fornecendo estrutura física e permissão para capacitação profissional sempre que necessário. Aqui aproveito para agradecer o corpo clínico nas especialidades de cirurgia plástica, otorrinolaringologia, fonoaudiologia e enfermagem, bem como os setor técnico, a CAG, pelo auxílio na realização da coleta de pacientes.

Ao **NicSono** Núcleo Interdisciplinar da Ciência do Sono, São Paulo, na pessoa do *Prof. Dr. Geraldo Lorenzi Filho*, na capacitação técnica para realização dos exames de polissonografia. Singularmente, agradeço as conversas amistosas e seus créditos para com as atuações da Fonoaudiologia na medicina do sono.

Ao **Instituto do Sono**, São Paulo, na pessoa de *Profa.Dra. Silvana Bommarito* e *Dra Giovanna Diaféria* pelo aperfeiçoamento no entendimento da fisiopatologia da SAOS e reabilitação fonoaudiológica. Particularmente, agradeço a Profa Silvana o acolhimento e conselhos valiosos e a Dra Giovanna, a atenção e compartilhamento de sua tese.

Ao **Instituto Israelita de ensino e pesquisa Albert Einstein,** São Paulo, na pessoa de *Dra Fernanda LM Haddad* e *Dra Letícia MSFA Soster* que junto aos demais especialistas do sono fundamentaram a minha capacitação no curso de especialização em sono. Especialmente, a Dra Fernanda, agradeço o acolhimento e a Dra Letícia os ensinamentos de base e conselhos.

Ao **Laboratório do Sono do HC da Faculdade de Medicina de Botucatu-UNESP**, na pessoa de *Profa.Dra. Silke Anna Theresa Weber* e do *Prof. Dr. Sérgio Henrique Kiemle Trindade* que possibilitaram o acompanhamento de atendimento de casos clínicos sugestivos de SAOS e os treinamentos para realização dos exames polissonográficos. Estendo meus agradecimentos aos fisioterapeutas do renomado laboratório.

Frente ao estudo, agradeço...

Ao *Prof.Dr.Joel Ferreira Santiago Jr e Dra.Flávia MR Neves Cintra*, pela contribuição nas análises estatísticas.

Ao *Prof. Dr. Sérgio Henrique Kiemle Trindade* na realização dos laudos polissonográficos.

Aos 82 **pacientes e responsáveis** que de prontidão aceitaram o recrutamento para o estudo.

Ao **Comitê de Ética em Pesquisa** da instituição, na pessoa da *Dra. Renata Paciello Yamashita*, pela aprovação do projeto de pesquisa.

Ao **Programa de Pós Graduação do HRAC-USP**, na pessoa da *Profa.Dra. Ivy Kiemle Trindade Suedam* pelo suporte em todas as fases do projeto.

E por fim agradeço:

A todas as **Colegas fonoaudiólogas do HRAC**, pelos constantes votos de sucesso.
A *Residente Rafaela Sena (R2)*, pelo empenho no estágio e compreensão nesta fase de finalização do doutorado.
Aos **Colegas de Pós-Graduação**, pelo incentivo e bons momentos compartilhados.
Aos **bons amigos** presenteados pela PG: *Dra.Lilia M von Kostrich, Dra.Laryssa Araújo, Dra.Rafaeli Higa, Débora de Oliveira, Profa.Dra.Janaína Bighetti e Camila Querubim.*
As **boas amizades** presenteadas de São Paulo pelo Instituto do Sono e Albert Einstein, queridas: *Sibele, Valéria, Nívea, Aline e meu grupo de "Einsteizinhos" da especialização em Sono.* Agradeço a nossa união, mesmo com a distância física.
As **Renomadas Colegas Fonoaudiólogas especialiastas em Sono "Fonos Sono Brasil",** pelo compartilhamento frequente de experiências profissionais e pessoais.
E finalmente, sem nunca esquecer, às *minhas* queridas amigas FOBianas - *XVII turma de Fonoaudiologia da FOB/USP- Aline Roberts, Bianca Neves, Carol Ascêncio, Elen Franco, Erica das Graças, Flávia Ferlin, Nati Favaro, Paula Belini, Talita Gonçalves, Talita Louzada*, e toda turma, pelo belo estágio de amizade nos anos da faculdade e constantes demonstrações de carinho, torcida e compreensão em períodos ausentes nessa fase.

Epígrafe

"Meu filho, atende às minhas palavras, presta atenção às minhas sentenças: que elas não se afastem de tua vista! Guarda-as dentro do teu coração, porque são vida para quem as encontra, saúde para todo o corpo. Guarda teu coração com toda cautela,porque dele brotam as fontes da vida! Afasta de ti a falsidade da boca e repele de ti o engano dos lábios. Que teus olhos olhem sempre para frente,e teu olhar siga reto para diante! Olha bem onde pisam teus pés, e todos os teus caminhos serão seguros..."

(O BOM CAMINHO, Provérbios 4-20).

RESUMO

Silva ASC. **Desordens respiratórias do sono após palatoplastia secundária de Sommerlad para tratamento da insuficiência velofaríngea** [tese]. Bauru: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo; 2021.

As desordens respiratórias durante o sono (DRS) são mais prevalentes em indivíduos com fissura de palato operada, comparativamente à população em geral, particularmente quando submetidos à cirurgia de retalho faríngeo (RF), rotineiramente usada como intervenção secundária para a correção da insuficiência velofaríngea (IVF) residual à palatoplastia primária. A cirurgia promove obstrução mecânica parcial entre a oro- e a nasofaringe, contribuindo para a fala, mas, podendo comprometer a respiração. Evidências apontam como alternativa o re-reparo do palato (*palate re-repair*) de Sommerlad, de natureza menos obstrutiva, e portanto, mais fisiológica. O presente estudo teve por objetivo investigar o efeito da técnica de Sommerlad sobre a qualidade do sono e patência faríngea em crianças e adultos com fissura de palato previamente operada. Para tanto, foram recrutados 82 pacientes com fissura de palato±lábio reparada e IVF. Aplicados os critérios de inclusão, o estudo foi conduzido em 16 crianças (artigo 1) e 13 adultos jovens (artigo 2), de ambos os sexos, avaliados antes e 7 a 14 meses após a cirurgia. A qualidade do sono foi investigada por meio de instrumentos validados *(EDSC, Epworth, Berlin e Stanford).* Um subgrupo dos adultos foi também avaliado por polissonografia (artigo 2). A patência da região velofaríngea foi avaliada por rinomanometria modificada e patência nasal foi analisada utilizando escala analógica visual, o teste CQ-5 e rinomanometria convencional. A significância das diferenças pré- e pós-operatórias foram investigadas para $p < 0.05$. Não foram observadas alterações significativas nos parâmetros rinomanométricos e polissonográficos, tampouco nas análises subjetivas, após a cirurgia, indicando patência faríngea e qualidade do sono preservadas. Os resultados confirmam que a cirurgia de Sommerlad é uma opção cirúrgica segura do ponto de vista respiratório. Sua eficácia quanto à fala, já demonstrada em estudo paralelo, somada a risco mínimo de DRS, confirmado no presente estudo, representa um importante avanço no tratamento das fissuras de palato.

DESCRITORES: Sono, Fala, Fissura Palatina, Insuficiência velofaríngea, Rinomanometria, Polissonografia.

ABSTRACT

Silva ASC. **Sleep breathing disorders following secondary Sommerlad palatoplasty for the treatment of velopharyngeal insufficiency** [thesis]. Bauru: Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies, University of Sao Paulo; 2021.

Sleep-disordered breathing (SDB) is more prevalent in individuals with repaired cleft palate compared to the general population, particularly when undergoing a pharyngeal flap (PF) surgery, usually performed as a secondary intervention for the correction of residual velopharyngeal insufficiency (VPI) following primary palatoplasty. The surgery promotes partial mechanical obstruction between the oro- and the nasopharynx, contributing to speech. However, I may also worsen breathing. Evidences indicate that the Sommerlad palate re-repair, which has a more physiological approach, may be an alternative. The present study aimed to investigate the effect of the Sommerlad technique on sleep quality and pharyngeal patency in children and adults with previously operated cleft palate. Eighty-two patients with repaired cleft palate±lip and VPI were recruited. After applying the inclusion criteria, the study was conducted in 16 children (Study 1) and 13 young adults (Study 2) of both genders, evaluated before and 7 to 14 months after surgery. Sleep quality was investigated using validated instruments (*EDSC, Epworth, Berlin, and Stanford*). A subgroup of adults was also assessed by polysomnography (Study 2). Velopharyngeal patency was assessed by modified rhinomanometry and nasal patency was analysed using a visual analogic scale, the CQ-5 test and conventional rhinomanometry. The significance of the pre- and postoperative differences was investigated for $P<0.05$. No significant changes were observed for all rhinomanometric and polysomnographic parameters after surgery, as for subjective parameters, indicating preserved pharyngeal patency and sleep quality. Results confirm that Sommerlad's technique is a safe surgical option from the respiratory point of view. Its efficacy in terms of speech, demonstrated in a parallel study combined to a low risk for S DB, confirmed in the present study, represents a relevant advance in cleft palate treatment.

Keywords: sleep, speech, cleft palate, velopharyngeal insufficiency, rhinomanometry, polysomnography.

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO 13

2 OBJETIVOS 17

3 RELAÇÃO ENTRE OS ARTIGOS 21

4 ARTIGOS 27

4.1 ARTIGO 1 - Re-reparo do palato de Sommerlad para o tratamento da IVF (parte 3): avaliação prospectiva de desordens respiratórias do sono em crianças 27

4.2 ARTIGO 2 - Desordens respiratórias do sono e patência faríngea em adultos submetidos ao re- reparo de Sommerlad: análise prospectiva polissonográfica e rinomanométrica 55

5 CONCLUSÕES GERAIS 75

REFERÊNCIAS 79

APÊNDICE 85

ANEXO 89

1 INTRODUÇÃO

1 INTRODUÇÃO

As fissuras labiopalatinas (FLP) estão entre as malformações mais prevalentes na espécie humana (1:1000), sendo consideradas um relevante problema de saúde pública pela Organização Mundial de Saúde[1-3]. Não só por sua prevalência, as FLP chamam a atenção pela presença de importantes alterações estéticas e funcionais que podem comprometer significativamente a fala, a audição, a respiração e, como visto em recentes estudos, o sono[4-6].

A fissura labiopalatina ocorre por falha na fusão dos processos faciais e palatinos entre 8ª a 12ª semana de vida intrauterina, do que resulta uma palato anômalo, que necessariamente deve ser corrigido cirurgicamente, para se obter um mecanismo velofaríngeo eficiente[7]. Para tanto, a cirurgia primária do palato é realizada por volta do primeiro ano de vida; contudo, falhas anatômicas ou funcionais, e consequentes sintomas podem persistir, levando à necessidade de realização de uma correção cirúrgica secundária do palato. No Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo-HRAC-USP, a proporção de re-reparos é cerca de 20% dos casos[8], podendo chegar a 60% de acordo com a literatura[9-10.]

Dentre as opções de técnicas cirúrgicas secundárias para a reabilitação da função velofaríngea[10], ainda se prioriza a cirurgia de retalho faríngeo[11]. A técnica consiste na confecção de um retalho miomucoso que une o palato mole à parede posterior da faringe, sendo mantidos dois orifícios laterais ao retalho, para preservar a respiração nasal. Obtem-se, assim, uma obstrução mecânica parcial na faringe de modo a favorecer o fechamento velofaríngeo[12-13]. No HRAC, a técnica tem sido amplamente aplicada há mais de 30 anos, sendo que a escolha obedece a critérios como a gravidade da insuficiência velofaríngea, o tamanho da falha velofaríngea e o tipo de fechamento velofaríngeo, determinados por meio da avaliação clínica e instrumental.

Ainda que se reconheça a eficácia do sucesso cirúrgico do retalho faríngeo para a ressonância da fala, e por esta razão tem sido a primeira opção de muitos centros, outros aspectos da técnica têm chamado atenção. Estudos do Laboratório de Fisiologia do HRAC/USP mostraram que o procedimento está associado a um signficativo comprometimento da patência da faringe, podendo levar à hiponasalidade[14]e a desordens respiratórias durante o sono (DRS)[15-

[17] que, na sua forma mais grave, se manifestam como apneia obstrutiva do sono (AOS), condição que pode afetar significativamente a qualidade de vida[18-19].

A AOS é caracterizada por eventos respiratórios recorrentes de obstrução parcial (hipopneia) ou total (apneia) da via aérea superior durante o sono, resultando em dessaturação da oxi-hemoglobina, hipercapnia e múltiplos despertares durante o sono. Como consequência, podem ocorrer[20] sintomas diurnos como sonolência excessiva, déficit de concentração, memória e alterações de humor ou mesmo doenças pulmonares, cardíacas, endócrinas e cognitivas[21]. Evidências apontam a AOS como causa de sonolência excessiva diurna e comprometimento neurocognitivo[22-23], de risco aumentado para acidentes automobilísticos e ocupacionais[24-25]. Nas crianças, podem, ainda, ocorrer prejuízos quanto ao crescimento e desenvolvimento, como atraso do crescimento pôndero-estatural e problemas significativos de aprendizagem [20,26-27]. Os principais fatores de risco, incluem obesidade, gênero masculino e idade. A fissura labiopalatina, quando presente, também é considerada importante fator de risco para AOS[28-29], por levar à disfunção da musculatura do palato, comprometimento das vias aéreas, alterações dentoclusais, decorrentes da própria fissura, somados ao efeito iatrogênico do processo reabilitador. Entre os diferentes procedimentos para a correção da insuficiência velofaríngea[15,30], a cirurgia de retalho faríngeo é utilizada com frequência, muito embora esteja já comprovado que está associada a alto de risco para as DRS, incluindo a AOS, conforme estudos do nosso laboratório[15-16,31-32] e revisões sistemáticas com metanálise recentes[,11,33].

Assim, passou-se a considerar a possibilidade de usar cirurgias alternativas, que diferentemente do uso do retalho faríngeo, que é obstrutivo por natureza, poderiam ser mais fisiológicas. Uma das modalidades de veloplastia intravelar que tem levado a bons resultados de fala, sendo inclusive já utilizada de rotina no HRAC, é o re-reparo de Sommerlad. Trata-se de procedimento considerado mais fisiológico, que combina dissecção mínima do palato duro e retroposicionamento radical da musculatura velar e tenotomia do tensor do palato, realizada sob microscopia[34].

A natureza da técnica de Sommerlad resulta em um véu palatino dinâmico, que se eleva na produção de sons orais da fala e volta à posição de repouso na respiração e na produção de sons nasais[35-36], preservando a morfologia faríngea e, em princípio, não contribuindo para a ocorrência de DRS, como sugerido Mehendale et al.[36](2013) e diferentemente do que já se demonstrou amplamente na literatura para o retalho faríngeo.

2 OBJETIVOS

2 OBJETIVOS

Como parte de um projeto mais amplo (processo CEP número 1.905.404), que visa verificar a efetividade da cirurgia secundária de Sommerlad na correção da IVF quanto a fala e sono, e sob a hipótese de que a cirurgia possa ser, de fato, uma opção melhor para o tratamento da IVF, o presente estudo foi desenvolvido com os objetivos descritos a seguir.

Objetivo primário:

Analisar a prevalência de desordens respiratórias do sono, em crianças e adultos com fissura de palato reparada, não sindrômicos, antes e após a cirurgia do re-reparo do palato, segundo técnica de Sommerlad, bem como a ocorrência de AOS e sua gravidade, nos adultos.

Objetivo secundário:

Comprovar que o procedimento não tem o efeito obstrutivo característico do retalho faríngeo, em crianças e adultos, por meio da análise da patência nasal e faríngea, avaliadas por rinomanometria.

3 RELAÇÃO ENTRE OS ARTIGOS

3 RELAÇÃO ENTRE OS ARTIGOS

Como mencionado anteriormente, o presente estudo faz parte de um estudo mais amplo, que em sua versão final foi subdividido em três artigos, nos quais foram analisados: a eficácia do re-reparo de Sommerlad quanto ao fechamento velofaríngeo (parte 1), a eficácia quanto à fala (parte 2) e o impacto sobre patência das vias aéreas superiores (parte 3).

Na presente tese, a parte 3 do projeto foi apresentada como ARTIGO 1 . Já, o ARTIGO 2, também como parte do projeto maior, visou analisar mais especificamente a condição respiratória em adultos dada as peculiaridades anatomofisiológicas deste grupo.

A experiência clínica demosntra que na cirurgia do retalho faríngeo, quando resultados satisfatórios de fala são alcançados, inversamente, as dimensões faríngeas são comprometidas, não sendo incomum, o surgimento ou a piora desordens respiratórias já existentes. Ambas as situações são reconhecidas na literatura, contudo, apesar das potenciais sequelas, a técnica do retalho faríngeo ainda é a técnica utilizada por diferentes centros, como a opção mais eficaz para o tratamento da IVF.

Entretanto, frente às evidências de que o retalho representa um fator de risco para DRS, outras técnicas alternativas têm sido aplicadas com bons resultados de fala, porém, sem considerar os achados respiratórios, particularmente no sono.

Sendo assim, tanto o ARTIGO 1 quanto o ARTIGO 2, que compõem a presente tese, analisam a influência da palatoplastia de Sommerlad na função respiratória e qualidade do sono, aspectos estes que definem na íntegra o sucesso cirúrgico na reabilitação das desordens de fala.

4 ARTIGOS

4.1 ARTIGO 1

4 ARTIGOS

4.1 ARTIGO 1

A versão em inglês intitulada "Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part3): prospective evaluation of sleep disordered breathing in children", do presente artigo 1 desta tese foi submetida a revista *The Cleft Palate-Craniofacial Journal (CPCJ).*

Re-reparo do palato de Sommerlad para o tratamento da IVF (parte 3): avaliação prospectiva de desordens respiratórias do sono em crianças

Andressa Sharllene Carneiro da Silva[1], Bruna Mara Adorno Marmontel Araújo[1], Carlos Eduardo Bertier[1], Telma Vidotto de Sousa Brosco[1], Sergio Henrique Kiemle Trindade[1,2], Ana Claudia Martins Sampaio-Teixeira[1], Ana Paula Fukushiro[1,2], Inge Elly Kiemle Trindade[1,2]
[1] Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies, [2]Bauru School of Dentistry, University of Sao Paulo, Bauru, São Paulo, Brazil

Address correspondence to Prof. Dr. Inge Elly Kiemle Trindade, Laboratório de Fisiologia, Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo, Rua Silvio Marchione 3-20, CEP 17012-900, Bauru, São Paulo, Brazil. E-mail: ingetrin@usp.br

RESUMO

Objetivo: Desordens respiratórias durante o sono (DRS), incluindo sua forma mais grave, a apneia obstrutiva do sono (AOS), são mais prevalentes em indivíduos com fissura de palato±lábio operada, comparativamente à população em geral, particularmente quando submetidos à cirurgia de retalho faríngeo. No presente estudo, avaliou-se o resultado de uma cirurgia secundária de menor potencial obstrutivo, o re-reparo (re-repair) do palato de Sommerlad, quanto à ocorrência de DRS e efeitos sobre a patência nasal e nasofaríngea, em indivíduos não- sindrômicos, previamente operados do palato, sob a hipótese de menor efeito negativo sobre o sono associado ao efeito positivo sobre a fala, este último avaliado em estudos paralelos (partes 1 e 2).
Tipo de Estudo: Estudo prospectivo.
Local: Hospital institucional terciário craniofacial.
Pacientes: Foram avaliados 16 indivíduos, de 6 a 16 anos de idade, com fissura de palato±lábio previamente reparada e IVF residual.
Intervenção: Os participantes foram avaliados antes e 14 meses após o *re-reparo do palato de Sommerlad,* em média. Os sintomas de DRS (ronco, falta de ar, sono agitado, sonolência diurna e alterações de comportamento) foram investigados por meio de relato clínico e questionário validado (*Escala de Distúrbios do Sono em Crianças-EDSC*). A patência nasal foi avaliada pela *Escala Visual Analógica (EVA)* e *Congestion Quantifier (CQ-5) e por rinomanometria*, também utilizada para avaliar patência nasofaríngea. A significância das diferenças pré- e pós-operatórias foram investigadas para $p< 0.05$.
Resultados: Nenhum paciente incluído no estudo necessitou de intervenção pós-operatória por obstrução das vias aéreas superiores. Antes da cirurgia, 3 (19%) pacientes apresentavam relatos de ronco sugestivos de DRS. Após 14 meses da cirurgia, o ronco foi relatado por mais 2 pacientes, perfazendo 5 (31%). DRS foram identificadas no pré-operatório pela EDSC em 2 (12%) dos casos e em 4 (25%) no pós-operatório. A rinomanometria mostrou que o palate re-repair não alterou a área nasal e nasofaríngea.
Conclusão: O re-reparo de Sommerlad não provocou efeitos adversos sobre a patência das vias aéreas superiores (VAS), mostrando-se associado a baixo risco de DRS em crianças. Estas observações, somadas à constatação de bons resultados quanto ao fechamento velofaríngeo e quanto à fala demonstrada nos mesmos pacientes nos dois primeiros estudos da presente série (partes 1 e 2), confirmam, por meio de metodologia objetiva de análise, a eficácia do re-reparo de Sommerlad no tratamento secundário das fissuras de palato quanto à fala, sem levar, simultaneamente, a AOS e sintomas relacionados significativos.

Palavras-chave: Apneia do Sono, Ronco, Fissura de Palato, Insuficiência Velofaríngea, Rinomanometria.

INTRODUÇÃO

Indivíduos com fissura de palato reparada e IVF residual são submetidos a diferentes modalidades de cirurgias secundárias, com a finalidade de corrigir distúrbios de fala residuais. Quando a correção cirúrgica é realizada por meio do retalho faríngeo, o procedimento pode causar obstrução das vias aéreas faríngeas, já prejudicadas nesta população (Yamashita e Trindade, 2008; Fukushiro et al., 2013; Campos et al., 2016; Campos et al., 2019), e levar à ocorrência de desordens respiratórias durante o sono (DRS), que, na sua forma mais grave, se manifestam como apneia obstrutiva do sono (AOS), condição que pode afetar significativamente a qualidade de vida (Marrone et al., 2013; Trindade et al., 2020).

A AOS caracteriza-se por alteração no padrão normal do sono, associada a ronco, pausas intermitentes da ventilação, hipoxemia, e hipercapnia, e, por consequência, sintomas diurnos como sonolência excessiva, déficit de concentração, memória e alterações de humor ou mesmo doenças pulmonares, cardíacas, endócrinas e cognitivas (Beebe e Gozai, 2002;Heilbrunn et al, 2020). Nas crianças, podem, ainda, ocorrer prejuízos quanto ao crescimento e desenvolvimento, como atraso do crescimento pôndero-estatural e problemas significativos de aprendizagem (Guilleminault et al., 1981; Fernandes et al., 2018; Sobral et al., 2018).

Pesquisadores do nosso grupo têm estudado as particularidades da função respiratória, bem como o impacto das intervenções cirúrgicas em indivíduos com fissuras de palato (Trindade et al., 2003; Yamashita e Trindade, 2008; Fukushiro et al., 2013; Fukushiro e Trindade, 2005; Fernandes et al., 2018). Alguns estudos demonstraram redução nas dimensões nasais e nasofaríngeas em crianças e adultos, por meio de rinomanometria, rinometria acústica e tomografia (Fukushiro e Trindade, 2005; Trindade et al., 2015; Trindade-Suedam et al., 2017). Outros mostraram que o retalho faríngeo é um fator determinante na ocorrência de AOS nesta população, com base em achados relativos às dimensões nasofaríngeas e parâmetros

polissonográficos (Yamashita e Trindade, 2008; Fukushiro et al., 2013; Campos et al., 2016)

Em duas revisões sistemáticas com metanálise recentes, Blacam et al., 2018 e Kurnik et al., 2020 confirmaram ser a cirurgia de retalho faríngeo o procedimento de maior efeito obstrutivo sobre as vias aéreas e, portanto, de maior risco para AOS, e as palatoplastias primárias de Furlow e de Veloplastia Intravelar Radical, como as de menor potencial obstrutivo. Ainda assim, a cirurgia de retalho faríngeo continua a ser utilizada por diferentes centros, pelos bons resultados de fala associados, os quais derivam justamente do efeito obstrutivo do retalho (Fukushiro e Trindade, 2011; Collins et al., 2012; Blacam et al., 2018). Contudo, outra técnica, menos obstrutiva, tem sido utilizada na literatura para o tratamento da IVF (Mehendale et al. 2013; Kurnik et al. 2020). Trata-se do re-reparo do palato pela técnica de Sommerlad, considerada mais fisiológica, uma vez que se baseia na construção de um véu palatino dinâmico, que se eleva na produção de sons orais da fala e retorna à posição de repouso na respiração e na produção de sons nasais, diferentemente do que ocorre na cirurgia de retalho faríngeo, na qual o palato mole é unido definitivamente à parede faríngea posterior (Mehendale et al., 2013).

O re-reparo do palato de Sommerlad, realizado sob microscopia, combina dissecção mínima do palato duro, retroposicionamento radical da musculatura velar e tenotomia do tensor do palato (Sommerlad, 2003). Bons resultados quanto à fala e menor efeito obstrutivo que o observado por outros autores para o retalho faríngeo foram obtidos por Sommerlad, 2003; Mehendale et al., 2013 e Baille e Sell, 2020.

O presente estudo *prospectivo* é parte de uma série, na qual foi analisada a efetividade do re-reparo de Sommerlad quanto ao fechamento velofaríngeo, parte 1, (Bertier et al. 2020)[*] e quanto à hipernasalidade da fala, parte 2 (Araújo et al., 2020)[**].

[*] Bertier CE, Silva ASC, Araújo BMAM, Brosco TVS, Sampaio-Teixeira ACM, Schwerdtfeger CMMA, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 1): prospective analysis of complications and velopharyngeal closure. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

[**] Araújo BMAM, Silva ASC, Bertier CE, Brosco TVS, Yamashita RP, Sampaio-Teixeira ACM, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 2): prospective auditory-perceptual assessment of speech. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

Considerando o menor potencial obstrutivo da técnica, o presente estudo (parte 3), que completa a série, teve por objetivos investigar:1) a prevalência de desordens respiratórias do sono, antes e após a cirurgia re-reparo do palato de Sommerlad, por meio da análise de relatos clínicos e questionários validados, e, 2) a influência da patência nasal e nasofaríngea sobre os resultados, analisadas por rinomanometria, sob a hipótese de "menor efeito negativo sobre o sono estar associado ao efeito positivo sobre a fala".

MATERIAL E MÉTODOS

O estudo recebeu aprovação do Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC-USP), conforme ofício nº 1.905.404. Foi conduzido junto à Unidade de Estudos do Sono do Laboratório de Fisiologia da instituição, após assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido pelo responsável e assinatura do Termo de Assentimento pela criança.

Casuística

No projeto, como um todo (partes 1, 2 e 3), foram adotados os seguintes critérios para a seleção dos pacientes:

Critérios de inclusão

Foram incluídos no estudo indivíduos com IVF em graus variados, constatada em avaliação clínica e em imagens nasoendoscópicas e/ou videofluroscópicas realizadas de rotina em nossa instituição no pré-operatório, e com indicação de *palatoplastia secundária pela*

técnica de Sommerlad, conforme detalhado por Bertier et al. (2020)[*].

Critérios de Exclusão

Não foram incluídos no estudo indivíduos com síndromes, palato mole categorizado como muito curto pelo cirurgião, fístula no palato duro, retalho faríngeo, histórico de obstrução nasal crônica e/ou condições clínicas que impedissem a realização dos exames, deficiência auditiva que comprometesse a comunicação oral, incapacidade física e/ou mental para a realização dos exames, e, complicações cirúrgicas constatadas no primeiro estudo da série (Bertier et al., 2020)*. Foram ainda adotados como critérios de exclusão, a presença de obesidade, hipertrofia de tonsilas palatinas e/ou alterações dentoclusais acentuadas, bem como o uso de medicamento(s) que pudesse(m) interferir na qualidade do sono.

Foram recrutados 82 pacientes e selecionados 57 que atenderam aos critérios de seleção definidos, exatamente como nas etapas 1 e 2 da série (Bertier et al., 2020* e Araújo et al., 2020[**]). No presente estudo, foram incluídas apenas as crianças (6 a 16 anos) daquele total de 57, perfazendo 36 crianças (Figura 1).

Das 36 crianças, um total de 20 atenderam aos critérios definidos para o presente estudo, sendo que 16 crianças foram excluídas por não retornaram para avaliação pós-operatória no tempo previsto. Deste total de 20 crianças, foram excluídas mais 4: 1 por apresentar obstrução nasal ao exame rinomanométrico pré-operatório, 1 por ter sido submetida à cirurgia de enxerto ósseo alveolar, 1 por apresentar secreção nasal intensa após a cirurgia e 1 por apresentar incapacidade de realizar o exame rinomanométrico.

Em suma, foram avaliados, prospectivamente, quanto aos aspectos respiratórios do

[*] Bertier CE, Silva ASC, Araújo BMAM, Brosco TVS, Sampaio-Teixeira ACM, Schwerdtfeger CMMA, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 1): prospective analysis of complications and velopharyngeal closure. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

[**] Araújo BMAM, Silva ASC, Bertier CE, Brosco TVS, Yamashita RP, Sampaio-Teixeira ACM, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 2): prospective auditory-perceptual assessment of speech. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

sono, 16 indivíduos com fissura de palato isolada (n=7) ou associada à fissura de lábio (n=9), já submetidos à(s) cirurgia(s) primária(s), com idade média de 11 anos, variando entre 6 e 16 anos, sendo 6 do sexo masculino e 10 do sexo feminino.

Procedimentos

Cirurgia

Os pacientes foram submetidos à palatoplastia posterior secundária (*palate re-repair*), segundo técnica de Sommerlad, descrita em detalhes no primeiro estudo desta série Bertier et al. (2020)[*]. Dois cirurgiões plásticos da instituição, com mais de 25 anos de experiência na área, treinados e calibrados pelo idealizador da técnica, Brian Sommerlad, cirurgião plástico do Great Ormond Street Hospital, London-UK, realizaram os procedimentos cirúrgicos sob microscopia, possibilitando dissecção minuciosa, retroposicionamento dos músculos velares mais preciso, dissecção dos músculos da mucosa nasal em um plano mais anatômico e profundo, preservando os vasos submucosos.

Avaliação subjetiva da patência nasal: escala de avaliação de sintoma e questionário

Com o propósio de incluir no estudo apenas pacientes com boa patência nasal, foram aplicados os seguintes instrumentos:

1) *Escala Visual Analógica,* (Hicks et al., 2001; Haavisto et al., 2011), utilizada para investigar e quantificar a sensação subjetiva de obstrução nasal, aqui identificada

[*] Bertier CE, Silva ASC, Araújo BMAM, Brosco TVS, Sampaio-Teixeira ACM, Schwerdtfeger CMMA, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 1): prospective analysis of complications and velopharyngeal closure. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

como “EVA-ON” – Escala Visual Analógica de Obstrução Nasal.Compreende imagens desenhadas de 6 rostos com expressões faciais que variam do sorriso (satisfeito) ao choro (insatisfeito). Concomitantemente, uma escala graduada de 0 a 10 acompanha a sequência das imagens. O paciente era orientado a respirar naturalmente e a escolher um rosto e/ou um escore que representasse, naquele momento, a sua condição nasal, desde 0, que corresponde a cavidade nasal totalmente obstruída até 10, totalmente permeável.

2) *CQ-5-Congestion Quantifier Five Item* (La Banca et al., 2011), que consiste de cinco questões referentes aos sintomas de obstrução nasal presentes nos últimos sete dias. No presente estudo, esse período foi estendido para os últimos 30 dias, como proposto por Fernandes et al. (2018). A pontuação se baseia na frequência do sintoma, ou seja, *0* = 1 a 2 vezes por mês; *1* = 1 a 2 vezes por semana; *2* = 3 a 4 vezes por semana; *3* = 5 a 6 vezes por semana e *4* = mais de 6 vezes por semana. A somatória dos valores atribuídos as cinco questões varia de 0 a 20. Escore final maior ou igual a 6 é considerado como indicativo da presença significativa de obstrução nasal (Stull et al., 2010; La Banca et al., 2011).

Avaliação objetiva da patência nasal e nasofaríngea: rinomanometria

Para corroborar as avaliações subjetivas, os pacientes foram avaliados por meio de rinomanometria convencional e rinomanometria anterior modificada, utilizando método preconizado por Warren e Dubois (1964) para mensuração da menor área de secção transversa da cavidade nasal (ASTN) e nasofaríngea ASTNF), respectivamente (Fukushiro e Trindade, 2005; Yamashita et al., 2008). Para tanto, foi utilizado o sistema PERCI-SARS (versão 4.01, Microtronics Corp., Chapel Hill, NC, USA).

Foram consideradas para análise as áreas de secção transversa mínimas da cavidade

nasal e da nasofaringe, determinadas pela equação: $A = F/k(2\Delta P/d)^{1/2}$, onde A = área de secção transversa mínima nasal (cm^2); F=fluxo nasal em cm^3/s; k=0,65; ΔP=pressão oronasal diferencial em $dinas/cm^2$; d = densidade do ar ($0{,}001 g/cm^3$). Considerando que, em crianças, as áreas variam com a idade até os 18 anos, os dados obtidos foram comparados com os valores definidos para diferentes faixas etárias, variando de 21 a $60mm^2$ (Hairfield e Warren,1989; Dalston et al.,1992). Na análise da área nasofaríngea, o valor de 100 mm^2 foi considerado como o limite inferior de normalidade, com base em estudo realizado em crianças normais (Araújo et al.,2016).

Avaliação (DRS): história clínica, exame físico e questionário

As DRS foram primeiramente investigadas por meio de levantamento da história clínica, ou seja, ocorrência e frequência dos principais sintomas noturnos (ronco habitual ao menos 3x/semana, pausas respiratórias assistidas, sono agitado e episódios de enurese) e sintomas diurnos (sonolência excessiva, alterações de comportamento e déficit de atenção), bem como o uso de medicamentos. Foram, também, investigadas as características antropométricas por meio de exame físico, a presença de comorbidades associadas (obesidade, hipertrofia de tonsilas palatinas, alterações faciais e dentoclusais), exclusivamente, para fins de inclusão na amostra.

Para análise das DRS, também foi aplicada a *Escala de Distúrbios do Sono em Crianças* (EDSC) de Bruni et al. (1996), A EDSC é composta de 26 questões que investigam padrões comportamentais relacionados ao sono de crianças e adolescentes: desordens para iniciar e manter o sono, distúrbios respiratórios relacionados ao sono, transtornos do despertar, desordens de transição sono-vigília, sonolência excessiva diurna e hiperidrose do sono (Ferreira et al., 2009). Para o propósito do presente estudo, foi utilizado apenas o domínio "DRS" (Distúrbios Respiratórios do Sono), composto pelas questões 13:*"A criança não respira bem durante o sono?";*14:*"A criança pára de respirar por alguns instantes durante o sono?"e* 15:

"A criança ronca?". As opções de respostas são relacionadas à frequência dos sintomas ("nunca, ocasionalmente, algumas vezes, quase sempre e sempre"). A pontuação segue a escala de Likert, com variação de 1, que corresponde a ausência do sintoma, até 5, que equivale à presença diária do sintoma. O escore final do domínio é definido pela soma dos escores das questões 13, 14 e 15. Assim, para o domínio DRS, utilizado para o presente estudo, foram esperadas pontuações variando entre 3=ausência de DRS e 15= DRS diárias. Escores iguais ou maiores que 7 pontos foram considerados como positivos para DRS (Ferreira et al., 2009).

A avaliação clínica e a aplicação dos questionários foram realizados de forma presencial e em sala reservada. Os pacientes que apresentaram histórico, escores e/ou sinais ao exame físico positivos para AOS, no pré- (não incluídas no estudo) ou no pós- operatório foram devidamente encaminhados para o Ambulatório do Sono da instituição.

ANÁLISE DOS DADOS

Para a comparação de variáveis quantitativas contínuas e discretas antes e após a cirurgia foi utilizado o teste t pareado ou teste de Wilcoxon, conforme teste de normalidade de Shapiro-Wilk. Para a comparação de variáveis nominais da escala DRS-EDSC e análise de associação aplicou-se o teste exato de Fisher. Todas as comparações foram realizadas para um nível de significância de 5%.

RESULTADOS

Nenhum participante necessitou de intervenção pós-operatória por obstrução das vias aéreas superiores (VAS).

A tabela 1 mostra os dados individuais pré- e pós-cirúrgicos dos 16 pacientes analisados, incluindo os valores rinomanométricos da patência nasal e nasofaríngea e sintomas de DRS (ronco, pausas respiratórias e sonolência diurna),os escores DRS avaliados pela escala EDSC. Todos os participantes apresentaram índices de massa corpórea (IMC) adequados para a idade.

Quanto à história clínica, foram relatados pelos pacientes e/ou seus responsáveis, no pré-operatório, eventos esporádicos de rinite isolada (1), rinite e sinusite (1), histórico de bronquite antes dos 2 anos de idade (2), asma sem crises recentes (1), histórico de 4 casos submetidos a adenotonsilectomia e 1 caso de septoplastia. Nenhum paciente ou responsável referiu episódios de enurese. Ao exame físico miofuncional, observou-se a presença de hipertrofia de tonsilas palatinas de grau leve em 5 pacientes. Não foram observadas alterações significativas faciais e dentoclusais.

Patência Nasal e Nasofaríngea.

A tabela 2 mostra dados referentes à patência nasal dos 16 pacientes, avaliada pelo teste CQ-5, pela EVA-ON e pela rinomanometria. Antes e após a cirurgia, todos os pacientes apresentaram escores menores que 6 para congestão nasal (últimos 30 dias) ao serem avaliados com o CQ-5, o que significa ausência da sensação de congestão nasal. Na avaliação subjetiva da patência nasal pela escala EVA-ON, foram observados escores médios de 8,6 ± 1,4 no pré-cirúrgico e 8,7 ± 1,7 no pós-cirúrgico, sendo que a diferença não foi estatisticamente significante, denotando mais uma vez, patência nasal satisfatória. Ao exame rinomanométrico convencional, os valores médios da área de secção transversa nasal (ASTN) foram de 48 mm^2 ± 12, antes e de 44 mm^2 ± 10, após a cirurgia para um total de 16 pacientes.

Na rinomanometria anterior modificada , os valores médios da área de secção transversa mínima da nasofaringe (ASTNF) foram de 104±8mm^2 no pré-operatório e 107±10m^2 no pós-

operatório. Para ambas as comparações as diferenças observadas não foram estatisticamente significantes. Ressalte-se que os dados de um paciente não foram incluídos por artefato técnico.

Desordens Respiratórias durante o Sono (DRS):

A tabela 3 mostra o número e a porcentagem de pacientes que apresentavam sintomas noturnos e diurnos de DRS e a média dos escores ao exame EDSC no pré- e pós-operatório.

Quanto aos sintomas noturnos, observou-se que, antes da cirurgia, 3 (19%) dos 16 pacientes relataram a presença de "ronco habitual", ao menos 3x/semana. Na avaliação pós-operatória de 14 meses, mais dois pacientes passaram a referir o sintoma, perfazendo um total de 5 (31%) pacientes. A variação observada não foi estatisticamente significante. "Pausas respiratórias assistidas" foram relatadas pelos pais de 4 (25%) pacientes antes da cirurgia. Todos deixaram de apresentar o sintoma no pós-operatório. "Sono agitado" foi relatado pelos pais de 7 (44%) pacientes, antes da cirurgia. No pós-operatório, mais uma criança passou a referir o sintoma, perfazendo um total de 8 (50%). As variações observadas não foram estatisticamente significantes. Com relação aos sintomas diurnos, observou-se aumento da "sonolência diurna", de um único paciente (6%) antes da cirurgia, para mais 5 casos após a cirurgia, passando, portanto, a ser observada em 37% da amostra. Esta e as variações observadas para "alterações de comportamento" e "déficit de atenção" também não foram estatisticamente significantes.

A tabela 3 mostra, ainda, os escores para DRS obtidos com a aplicação da EDSC, utilizada para complementar os relatos clínicos. Observou-se escores maiores que 7, sugestivos da presença dos sintomas, em 2 (12%) crianças antes da cirurgia e em 4 (25%) após a cirurgia. As médias dos escores nas condições pré- e pós-cirúrgicas foram de 4,0 ± 1,5 e 4,6 ± 2,8, respectivamente, sendo a diferença não significante.

DISCUSSÃO

O presente estudo é o último de uma série iniciada por Bertier et al (2020)[*] e Araújo et al (2020)[**], partes 1 e 2, respectivamente, nas quais se estudou a eficácia da técnica do re-repair de Sommerlad quanto a função velofaríngea e características da fala. Concomitantemente, o presente estudo pretendeu avaliar os efeitos do re-repair quanto ao aspectos respiratórios do sono, considerando que certos procedimentos cirúrgicos disponíveis para o tratamento da IVF podem resultar em estreitamento das vias aéreas superiores, já prejudicadas nesta população, conforme demonstrado em estudos do nosso grupo (Trindade et al., 2015; Trindade-Suedam et al., 2017; Campos et al., 2019).

Assim, o presente estudo teve por objetivo primário analisar, prospectivamente, a prevalência de DRS, antes e após a cirurgia de re-reparo do palato de Sommerlad em crianças com fissura de palato reparada. Demonstrou-se que a técnica está associada a baixo risco de DRS nessa população, sendo observadas, no pós-operatório em 2 dos 13 pacientes que não apresentavam DRS antes da cirurgia. Em estudo retrospectivo, Mehendale et al. (2013) também não encontraram efeito adverso significativo ao avaliarem parâmetros cardiorrespiratórios de exames polissonográficos colhidos de 13 crianças, 4 delas sindrômicas, com idade de 2 a 17 anos (10 anos, em média), antes e 6 meses após o re-repair de Sommerlad, de modo que o presente estudo vem a consubstanciar os achados daqueles autores em pacientes não-sindrômicos e a longo prazo.

Em recente revisão sistemática da literatura e metanálise, Kurnik et al. (2020)

[*] Bertier CE, Silva ASC, Araújo BMAM, Brosco TVS, Sampaio-Teixeira ACM, Schwerdtfeger CMMA, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 1): prospective analysis of complications and velopharyngeal closure. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

[**] Araújo BMAM, Silva ASC, Bertier CE, Brosco TVS, Yamashita RP, Sampaio-Teixeira ACM, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 2): prospective auditory-perceptual assessment of speech. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

analisaram a eficácia de três técnicas de re-reparo do palato - Furlow, Veloplastia Intravelar Radical com ou sem alongamento do palato - utilizadas por diferentes autores para o tratamento da IVF. Dos 18 estudos selecionados para revisão, verificaram que apenas quatro investigaram os efeitos quanto às DRS (Liao et al., 2004; Madrid et al., 2011; Mehendale et al.,2013; Abdel-Aziz et al., 2018), sendo que apenas um deles utilizou a técnica de Sommerlad (Radical IVVP) - o estudo de Mehendale et al (2013), já mencionado. Desordens respiratórias durante o sono foram observadas pelos autores dos quatro estudos, porém a frequência foi maior nos achados desses autores (54%). Mehendale et al (2013), baseados em estudos polossinográficos atribuíram este resultado ao fato da amostra incluir pacientes sindrômicos.

Por outro lado, a literatura mostra que o re-reparo de Sommerlad está associado a risco substancialmente menor para OSA, comparativamente aquele associado à cirurgia de retalho faríngeo. Liao et al. (2004) e Abdel-Aziz et al. (2018) observaram OSA na proporção de, respectivamente, 78% e 93% dos indivíduos com retalho faríngeo. Em nosso laboratório, a proporção foi de 44% em adultos jovens (Salgueiro, 2018) e de 77% em adultos de meia idade, todos com retalho (Campos et al., 2016).

No presente estudo, tomou-se o cuidado de incluir apenas crianças com boa patência nasal e nasofaríngea. Isto porque dados do nosso laboratório demostraram que a obstrução de vias aéreas, comum em indivíduos com fissura, pode, por si só, estar associada à ocorrência de DRS e AOS (Fukushiro e Trindade, 2005; Trindade et al.,2015; Trindade-Suedam et al.,2017; Fernandes et al.,2018; Campos et al., 2019).

Para avaliar a patência nasal, optou-se por investigar, primeiro, a sensação subjetiva da permeabilidade nasal utilizando o questionário CQ-5, por meio do qual foram investigados sintomas nasais, nos últimos 30 dias, e a escala EVA-ON, os sintomas no momento do exame. Ambos são instrumentos validados e amplamente utilizados em rotinas clínicas e pesquisas (Ciprandi et al., 2009; Yepes-Nunez et al., 2013; Hsu et al., 2017). Ressalte-se que foi incluído

na avaliação da patência nasal, o ajuste proposto por Fernandes et al. (2018), ou seja, estender a análise por 30 dias, ao estudarem crianças com fissura de lábio e palato. Resultados subjetivos sugeriram ausência de obstrução nasal significativa na presente amostra no pré e pós-operatório. Reforçando estes achados, verificou-se apenas discreta diminuição das áreas de secção transversa nasal (ASTN) após a cirurgia, em 8 dos 16 casos, sem significado clínico, ou seja, com valores não indicativos de obstrução. A média da área de secção transversa nasofaríngea (ASTNF) também não diferiu estatisticamente entre o pré e pós-cirúrgico. Ressalte-se que as médias de ASTNF na condição pré (104mm^2) e pós (107mm^2) assemelham- se ao limite inferior de normalidade (100mm^2) estabelecido por Araújo et al. (2016) em crianças sem fissura, mostrando, como previsto, que o re-reparo de Sommerlad não interfere na patência nasofaríngea, diferentemente do verificado para o retalho faríngeo por Yamashita et al. (2008) e Fukushiro et al. (2013), do nosso grupo, e confirmando os achados do primeiro estudo da série (Bertier et al.,2020). No estudo de Yamashita et al (2008), foram avaliados 58 pacientes com idade entre 8 e 57 anos, antes e 14 meses após a cirurgia de retalho faríngeo, sendo que 36% passaram a apresentar queixas respiratórias no pós-operatório (ou apresentaram mais queixas) e 33% apresentaram redução das dimensões nasofaríngeas para valores subnormais e 71% passaram a relatar ronco. Resultados similares foram observados por Fukushiro et al. (2013). A redução das dimensões nasofaríngeas associada a ronco requer atenção, uma vez que se trata de sintoma presente em 90 a 95% de casos com AOS na população em geral (Tufik et al 2010). No presente estudo, três crianças já apresentavam ronco no pré-operatório e mais duas crianças, com idade de 13 e 16 anos, passaram a apresentar ronco no pós-operatório, sem alteração concomitante da área nasofaríngea. A variação média não foi estatisticamente significante, assim como se constatou para o sono agitado e sintomas diurnos. Estes últimos foram avaliados pelo fato da AOS não poder ser descartada quando da ausência exclusiva de ronco. A sonolência diurna passou a ser relatada no pós-operatório por 5 dos 16 pacientes analisados, sendo que 3 deles

também passaram a apresentar ronco. Dois desses pacientes apresentaram amigdalas hipertróficas ao exame físico, podendo ser este um fator complicador.

É sabido que o exame padrão-ouro para a análise do sono e diagnóstico da AOS é a polissonografia. Porém, como uma primeira aproximação do problema, optou-se pelo uso da Escala de Distúrbios do Sono (EDSC) para crianças, validada para o português brasileiro por Ferreira et al. (2009), por se tratar de um instrumento simples, com boa sensibilidade (89%) e especificidade (74%), apresentando validade discriminatória para as DRS (Ferreira et al., 2009; Fernandes et al.,2018). Estudo em andamento em nosso laboratório tem o propósito de comparar os resultados da cirurgia de Sommerlad com os da cirurgia de retalho faríngeo, utilizando a polissonografia como método de avaliação.

No presente estudo, antes da cirurgia, observou-se resultados positivos no EDSC (>7), sugerindo presença de DRS, apenas para 2 dos 16 pacientes, perfazendo 12% da amostra. Após a cirurgia, a proporção aumentou para 25%. A variação pré e pós-cirúrgica foi portanto, de 13%, similar aos 12% obtidos na entrevista clínica. A escala cumpriu, assim, a sua função de triagem, se mostrando sensível para identificar a presença de DRS em 2 dos 3 pacientes que relataram ronco antes da cirurgia e 4 dos 5 pacientes após a cirurgia. Contudo, as variações médias observadas para o EDSC não diferiram do pré para o pós-cirúrgico tanto para os sintomas noturnos quanto para os diurnos. Proporções bem superiores foram obtidos por Madrid et al. (2015) ao investigar a prevalência e gravidade de AOS após faringoplastia de Orticochea. Em 37 pacientes com fissura de lábio e palato e idade média de 14 anos, os autores observaram a presença de sintomas noturnos em 94,5% dos casos e sintomas diurnos em 89%, relatados 1 ano após a cirurgia, reforçando o efeito não obstrutivo do re-repair de Sommerlad. Quanto ao retalho faríngeo, há que se ressaltar que muitos centros fazem uso regular da técnica, inclusive o nosso, onde a indicação de rotina, é feita considerando os aspectos estruturais da velofaringe, utilizando nasofaringoscopia e videofluoroscopia, e os aspectos fisiológicos,

utilizando nasometria e técnica fluxo-pressão, combinadas à análise das condições nasal e nasofaríngea por rinomanometria. Nenhum dos casos aqui analisados tiveram, na rotina hospitalar, indicação para faringoplastia ou outra cirurgia que não a de Sommerlad. Neste contexto, o re-reparo se mostrou uma boa escolha, face a comprovação da eficácia da técnica de Sommerlad em termos cirúrgicos (Bertier et al. , 2020)[*], quanto à fala (Araújo et al.,2020)[**],e finalmente, quanto a qualidade do sono conforme demonstrado no presente estudo, de modo que a cirurgia de Sommerlad passou a ser incluída no protocolo de cirurgias praticadas em nossa instituição.

[*] Bertier CE, Silva ASC, Araújo BMAM, Brosco TVS, Sampaio-Teixeira ACM, Schwerdtfeger CMMA, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 1): prospective analysis of complications and velopharyngeal closure. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

[**] Araújo BMAM, Silva ASC, Bertier CE, Brosco TVS, Yamashita RP, Sampaio-Teixeira ACM, Trindade IEK. Sommerlad palate re-repair for VPI treatment (part 2): prospective auditory-perceptual assessment of speech. *Cleft Palate Craniofac J*. Submitted in 2021.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Abdel-Aziz M, Hussien A, Kamel A, Azooz K, Fawaz M.The Impact of Velopharyngeal Surgery on the Polysomnographic Parameters After Cleft Palate Repair.J Craniofac Surg. 2018; 29: 717-19.

Araújo LL, Silva ASC, Araújo BMAM, Yamashita RP, Trindade IEK, Fukushiro AP. Nasopharyngeal dimensions in normal individuals: Normative data. CoDAS 2016;28(4):403-408.

Baillie L, Sell D. Benchmarking Speech, Velopharyngeal Function Outcomes and Surgical Characteristics Following the Sommerlad Protocol and Palate Repair Technique. *Cleft Palate Craniofac J*. 2020; 1055665620923925.

Beebe DW, Gozai D. Obstructive sleep apnea and the prefrontal cortex: towards a comprehensive model linking nocturnal upper airway obstruct ion to daytime cognitive and behavioral deficits. J Sleep Res. 2002;11(1):1-1 6.

Blacam C, Smith S, Orr D. Surgery for Velopharyngeal Dysfunction: A Systematic Review of Interventions and Outcomes. Cleft Palate Craniofac J. 2018; 55: 405-422.

Bruni O, Ottaviano S, Guidetti V, Romoli M, Innocenzi M, Cortesi F, et al. The sleep disturbance scale for children (SDSC) construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. J Sleep Res 1996;5(4):251e61.

Campos LD, Trindade IEK, Yatabe M, Trindade SHK, Pimenta LA, Kimbell J, Drake AF, Trindade-Suedam IK.Reduced pharyngeal dimensions and obstructive sleep apnea in adults with cleft lip/palate and Class III malocclusion.Cranio. 2019;Sep 17:1-7.

Campos LD, Trindade-Suedam IK, Sampaio-Teixeira AC, Yamashita RP, Lauris JR, Lorenzi-Filho G, Trindade IE. Obstructive Sleep Apnea Following Pharyngeal Flap Surgery for Velopharyngeal Insufficiency: A Prospective Polysomnographic and Aerodynamic Study in Middle-Aged Adults. Cleft Palate Craniofac J. 2016;53(3):e53-9.

Ciprandi G, Mora F, Cassano M, Gallina AM, Mora R. Visual analog scale (VAS) and nasal obstruction in persistent allergic rhinitis. Otolaryngology–Head and Neck Surgery.2009;141, 527-529

Collins J, Cheung K, Farrokhyar F, Strumas N. Pharyngeal flap versus sphincter pharyngoplasty for the treatment of velopharyngeal insufficiency: a meta-analysis. J Plast Reconstr Aesthet Surg. 2012;65(7):864-8.

Dalston RM, Warren DW, Dalston ET. A preliminary study of nasal airway patency and its potential effect on speech performance. Cleft Palate Craniofac J. 1992;29:330–335

Fernandes MBL, Salgueiro AGNS, Bighetti EJB, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Symptoms of Obstructive Sleep Apnea, Nasal Obstruction, and Enuresis in Children With Nonsyndromic Cleft Lip and Palate: A Prevalence Study. Cleft Palate Craniofac J. 2019; 56: 307-13.

Ferreira RV, Carvalho LBC, Ruotolo F, Moraes JF, Prado LBF, Prado GF. Sleep Disturbance Scale for Children: Translation, cultural adaptation, and validation. Sleep Medicine 10 (2009) 457–463.

Fukushiro AP, Trindade IE. Nasal airway dimensions of adults with cleft lip and palate: differences among cleft types. Cleft Palate Craniofac J. 2005;42:396–402.

Fukushiro AP, Trindade IEK. Nasometric and aerodynamic outcome analysis of pharyngeal flap surgery for the management of velopharyngeal insufficiency. J Craniofac Surg. 2011;22(5):1647-51 23.

Fukushiro AP, Zwicker CVD, Genaro KF, Yamashita RP, Trindade IEK. Dimensões nasofaríngeas e sintomas respiratórios após a cirurgia de retalho faríngeo em crianças e adultos. ACR 2013;18(2):57-62.

Guilleminault C, Korobkin R, Winkle R.A Review of 50 Children With Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Lung. 1981;159: 275-87.

Haavisto LE, Vahlberg TJ, Sipila JI. Correlation between acoustic rhinometry and visual analogue scale in children with no nasal symptoms: a prospective cohort study. Clinical Otolaryngology. 2011;36(2):129-33.

Hairfield WM, Warren DW. Dimensions of the cleft nasal airway in adults: a comparison with subjects without cleft. Cleft Palate J. 1989;26:9–13.

Heilbrunn E, Ssentongo P, Chinchilli VM, Ssentongo. Sudden death in individuals with obstructive sleep apnoea: protocol for a systematic review and meta-analysis. BMJ Open. 2020 Aug 26;10(8):e039774.

Hicks, CL, Von Baeyer CL, Spafford PA, Van Korlaar I, Goodenough B. The Faces Pain Scale-Revised: toward a common metric in pediatric pain measurement. Pain. 2001;93(2):173-83.

Hsu HC,Tan CD, Chang CW, Chu CW, Chiu YC, Pan CJ et al. Evaluation of nasal patency by visual analogue scale/nasal obstruction symptom evaluation questionnaires and anterior active

rhinomanometry after septoplasty: a retrospective one-year follow-up cohort study. Clin. Otolaryngol. 2017; 42, 53–59.

Kurnik NM, Weidler EM, Lien KM, Cordero KN, Williams J, Temkit M, Beals S, Singh D. The Effectiveness of Palate Re-Repair for Treating Velopharyngeal Insufficiency: A Systematic Review and Meta-Analysis. Cleft Palate Craniofac J. 2020; 57: 860-71.

La Banca RO, Corti ACR, Camelo-Nunes IC, Mallozi MC, Solé D. [Congestion nasal index in the evaluation of nasal obstruction of children and adolescents with allergic rhinitis]. Rev Bras Alerg Imunopatol. 2011;34(1):19-22.

Liao YF, Noordhoff MS, Huang CS, Chen PK, Chen NH, Yun C, Chuang ML. Comparison of obstructive sleep apnea syndrome in children with cleft palate following Furlow palatoplasty or pharyngeal flap for velopharyngeal insufficiency. Cleft Palate Craniofac J. 2004;41(5):152-156

Madrid JR, Eduardo Nieto L, Gomez V, Echeverry P, Tavera MC, Oliveros H. Palatoplasty as the technique of choice for prevention of obstructive sleep apnea secondary to surgery for velopharyngeal insufficiency. Cleft Palate Craniofac J. 2011;48(2):145-149

Marrone O, Lo Bue A, Salvaggio A et al. Comorbidities and survival in obstructive sleep apnea beyond the age of 50. Eur J Clin Invest 2013;43 (1):27-33.

Mehendale FV, Lane R, Laverty A, Dinwiddie R, Sommerlad BC. Effect of palate re-repairs and hynes pharyngoplasties on pediatric airways: an analysis of preoperative and postoperative cardiorespiratory sleep studies. Cleft Palate Craniofac J. 2013;50(3):257-67.

Salgueiro AGNS, Trindade IEK. Desordens respiratórias do sono após tratamento cirúrgico da insuficiência velofaríngea por retalho faríngeo em adultos jovens com fissura de palato operada. 2018.

Sobral DS, Faller GJ, Collares VM. Respiratory Polysomnographic Findings in Patients Treated Primarily for Unilateral Cleft Lip and Palate. The Cleft Palate-Craniofacial Journal. 2018; 55(2):287-291

Sommerlad BC. A technique for cleft palate repair. Plast Reconstr Surg. 2003;112(6):1542-8

Stull DE, Meltzer EO, Krouse JH, Roberts L, Kim S, Frank L, et al. The congestion quantifier five-item test for nasal congestion: refinement of the congestion quantifier seven-item test. Am J Rhinol Allergy. 2010;24(1):34-8.

Trindade IE, Gomes Ade O, Fernandes Mde B, Trindade SH, Silva Filho OG. Nasal Airway

Dimensions of Children With Repaired Unilateral Cleft Lip and Palate. Cleft Palate Craniofac J. 2015 Sep;52(5):512-6.

Trindade IE, Yamashita RP, Suguimoto RM, Mazzottini R, Trindade AS Jr. Effects of orthognathic surgery on speech and breathing of subjects with cleft lip and palate: acoustic and aerodynamic assessment. Cleft Palate Craniofac J. 2003 Jan;40(1):54-64.

Trindade SHK, Trindade IEK, Silva ASC, Araújo BMAM, Trindade-Suedam IK, Sampaio-Teixeira ACM, Weber SAT. Are reduced internal nasal dimensions a risk factor for obstructive sleep apnea syndrome? Braz J Otorhinolaryngol. 2020 Jul 30;S1808-8694(20)30114-2.

Trindade-Suedam IK, Lima TF, Campos LD, Yaedú RYF, Nary Filho H,Trindade IEK. Tomographic Pharyngeal Dimensions in Individuals With Unilateral Cleft Lip/Palate and Class III Malocclusion Are Reduced When Compared With Controls. The Cleft Palate–Craniofacial Journal 54(5) pp. 502–508 September 2017.

Tufik S, Santos-Silva R, Taddei JA, Bittentcourt LR. Obstructive sleep apnea syndrome in the São Paulo Epidemiologic Sleep Study. Sleep Med. 2010; 11:441-6.

Warren DW, Dubois AB. A pressure-flow technique for measuring velopharyngeal orifice area during continuous speech. Cleft Palate J. 1964;1:52–71.

Yamashita RP, Trindade IEK. Long-term effects of pharyngeal flaps on the upper airways of subjects with velopharyngeal insufficiency. Cleft Palate Craniofac J. 2008;45(4):364-70.

Yepes-Nunez JJ, Bartra J, Munoz-Cano R, Sánchez-López J, Serrano C, Mullol J et al. Assessment of nasal obstruction: Correlation between subjective and objective techniques. Allergol Immunopathol (Madr). 2013;41(6):397-401

Tabela 1. Relatos de desordens respiratórias durante o sono (DRS) – ronco (R), pausas respiratórias (P) e/ou sonolência diurna (S), escores obtidos pela EDSC-DRS e áreas de secção transversa nasal (ASTN) e nasofaríngea (ASTNF), avaliados por rinomanometria antes (PRE) e 14 meses após (POS) o re-reparo do palato.

				SRD (reports)		SRD/EDSC (scores)		NCSA (mm^2)		NPCSA (mm^2)	
Patient	AGE (yers)	Gender	Cleft type	Pre	Post	Pre	Post	Pre	Post	Pre	Post
1	6	Female	FP	P	-	3	3	37	37	100	92
2	6	Female	FLP	-	-	3	3	25	27	100	93
3	7	Male	FLP	R	RS	5	3	40	44	-	-
4	8	Male	FLP	RP	RS	7	9	31	40	98	110
5	8	Female	FLP	-	S	3	3	32	40	100	100
6	10	Female	FP	-	-	4	3	56	40	113	100
7	10	Female	FP	-	-	3	3	60	46	100	120
8	11	Male	FLP	-	-	3	5	41	35	100	94
9	11	Female	FLP	RP	RS	8	11	54	39	100	111
10	13	Male	FP	P	R	4	7	57	68	100	100
11	13	Female	FLP	-	-	3	3	64	46	120	120
12	14	Male	FP	-	-	4	3	58	45	92	120
13	15	Female	FP	-	-	3	3	50	48	118	120
14	15	Female	FP	S	S	4	3	63	62	110	110
15	15	Female	FLP	-	-	3	3	48	42	104	110
16	16	Male	FLP	-	RS	4	9	54	41	100	100

F = Feminino, M = Masculino, FP = Fissura isolada de palato, FLP = Fissura de lábio e palato, R = Ronco, SD = Sonolência diurna, ASTN = Área de secção transversa mínima nasal, ASTNF = Área de secção transversa mínima nasofaríngea, P = presença de pausa respiratória durante o sono.

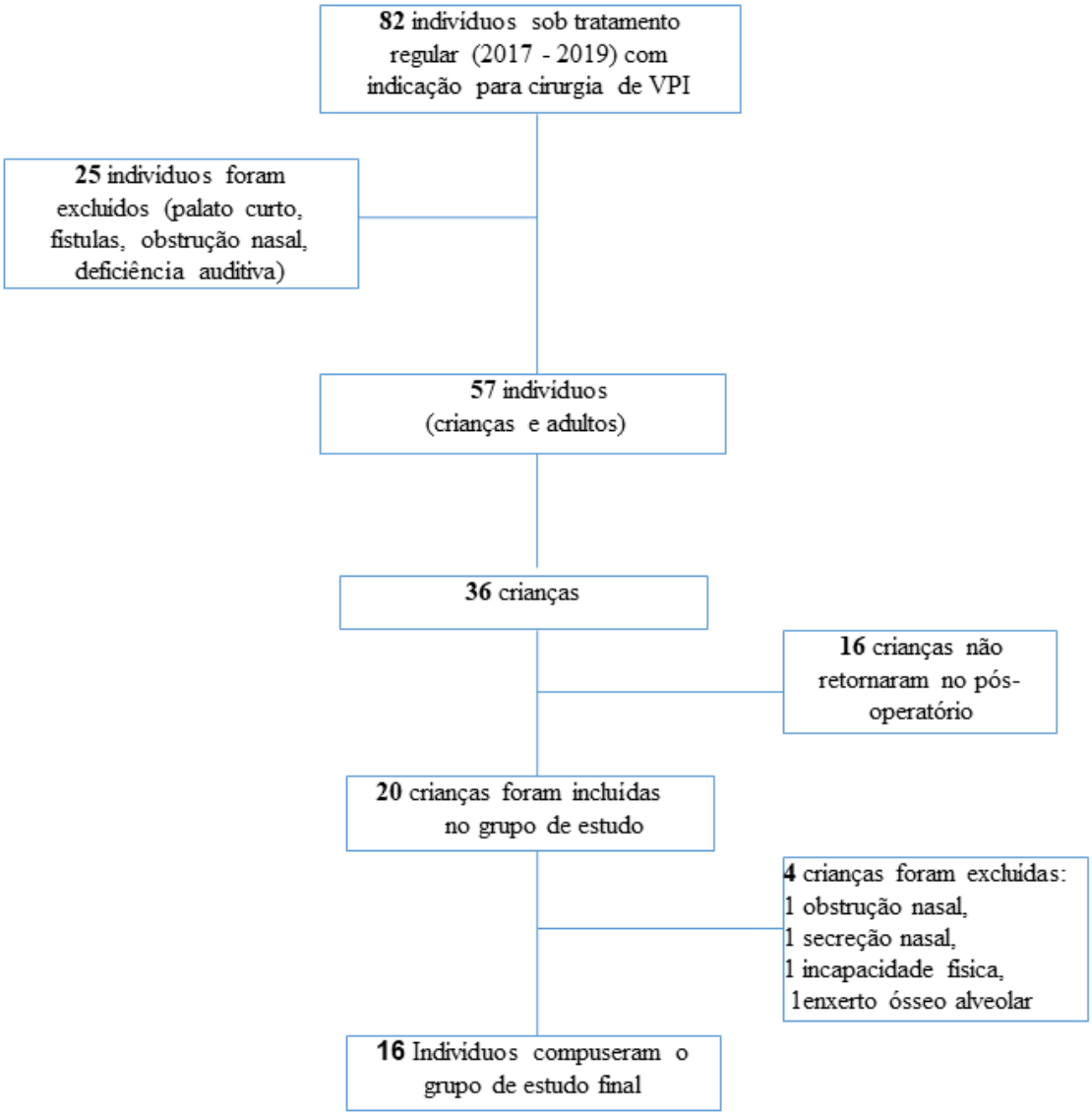
Tabela 2. Patência nasal pelos escores de CQ-5 e EVA-ON e valores de área de secção transversa nasal (ASTN) e área nasofaríngea (ASTNF) obtidos pela rinomanometria.

VAS	n	Pré	Pós 14m	*p**
Escores				
CQ-5 (>6), n (%)	16	0 (0%)	0 (0%)	-
EVAON	16	8,6±1,4	8,7±1,7	*0,841*
Areas de secção transversa				
Nasal (ASTN), m±dp (mm^2)	16	48±12	44±10	*0,530*
Nasofaríngea (ASTNF), m±dp, (mm^2)	15	104±8	107±10	*0,305*

Tabela 3. Proporção de sintomas noturnos e diurnos de DRS valores médios dos escores EDSC-DRS antes (PRE) e após 14 meses do *palate re-repair* (POS).

DRS	n	Pré	Pós	*p**
Ronco, n (%)	16	3 (19%)	5 (31%)	*0,56*
Pausas respiratórias assistidas, % (n)	16	4 (25%)	0 (0%)	*0,125*
Sono agitado	16	7 (44%)	8 (50%)	*0,813*
Sonolência diurna, % (n)	16	1 (6%)	6 (37%)	*0,063*
Alterações de comportamento, % (n)	16	2 (12%)	4 (25%)	*0,375*
Déficit de atenção, % (n)	16	7 (44%)	5 (31%)	*0,5*
Escore ESDSC				
SDB ≥7, % (n)	16	2 (12%)	4 (25%)	*0,053*
SDB, m±dp.	16	4,0±1,5	4,6±2,8	*0,203*

Figura 1: Seleção da amostra.



4.2 ARTIGO 2

4.2 ARTIGO 2

A versão em inglês intitulada "Sleep-disordered breathing and pharyngeal patency in adults submitted to Sommerlad re-repair: prospective polysomnographic and rhinomanometric analysis" do presente artigo 2 desta tese foi submetida a revista *"The Journal of Craniomandibular & Sleep Practice" (CRANIO).*

Título: Desordens respiratórias do sono e patência faríngea em adultos submetidos ao re-reparo de Sommerlad: análise prospectiva polissonográfica e rinomanométrica

Autores: Andressa Sharllene Carneiro da Silva (https://orcid.org/0000-0003-1392-5478)a, Sergio Henrique Kiemle Trindade (ORCID ID: https://orcid.org/0000-0002-7642-0146)a-b-c, Bruna Mara Adorno Marmontel Araújo(ORCID ID: https://orcid.org/0000-0003-2188-985X)a, Carlos Eduardo Bertier (https://orcid.org/0000-0002-4992-3311)d, Ana Paula Fukushiro (ORCID ID: https://orcid.org/0000-0002-5927-3877)a-b Inge Elly Kiemle Trindade (https://orcid.org/0000-0001-9420-1118) a-b

Instituições:

a– Universidade de São Paulo (USP), Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC), Laboratório de Fisiologia, Bauru, SP, Brasil.

b –Universidade de São Paulo (USP), Faculdade de Odontologia de Bauru, Bauru, SP, Brasil.

c – Universidade de São Paulo (USP), Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC), Seção de Otorrinolaringologia, Bauru, SP, Brasil.

d- Universidade de São Paulo (USP), Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC), Seção de Cirurgia Plástica, Bauru,SP, Brasil.

Endereço para correspondência

Prof[a]. Dr[a]. Inge Elly Kiemle Trindade

Laboratório de Fisiologia, Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, USP.

Rua Sílvio Marchione, 3-20 • Vila Nova Cidade Universitária • CEP: 17.012-900 • Bauru-SP

Email: ingetrin@usp.br

ORCID ID:https: //orcid.org/0000-0001-9420-1118

Declaração de conflito de interesses:

Nenhum.

RESUMO

Introdução: O tratamento de indivíduos com fissura de palato compreende a correção da insuficiência velofaríngea (IVF) residual à palatoplastia primária. A técnica do retalho faríngeo (RF) promove obstrução mecânica parcial entre a oro- e a nasofaringe, contribuindo para a fala, mas, por outro lado, para o agravamento ou aparecimento de desordens respiratórias do sono (DRS). Evidências apontam como alternativa o re-reparo do palato (*palate re-repair*) de Sommerlad, de menor potencial obstrutivo. **Objetivo:** Investigar o efeito da técnica de Sommerlad sobre a patência faríngea e a qualidade do sono de adultos com fissura de operada**.** **Métodos:** Foram recrutados 32 adultos com fissura de palato±lábio reparada e IVF, e uma vez aplicados os critérios de seleção, o estudo foi conduzido em 13 indivíduos, de ambos os sexos, idade entre 18 e 30 anos, os quais foram submetidos à palatoplastia secundária de Sommerlad e avaliados antes e após a cirurgia. A patência da região velofaríngea foi avaliada por rinomanometria modificada e a qualidade do sono por meio de questionários e escalas validados (*Epworth, Berlin, Stanford e CQ-5).* Um subgrupo de indivíduos foi também avaliado por polissonografia. A significância das diferenças pré- e pós-operatórias foram investigadas para um $p < 0.05$. **Resultados: N**ão houve alteração significativa nos parâmetros rinomanométricos e polissonográficos após a cirurgia, indicando patência faríngea e qualidade do sono preservadas após o re-reparo. **Conclusão:** Em indivíduos adultos com fissura de palato operada e IVF, o re-reparo de Sommerlad não teve efeito adverso sobre patência faríngea e não levou a DRS, diferentemente do observado na literatura para a cirurgia de retalho faríngeo, usada com frequência no tratamento da IVF. A eficácia do re-reparo de Sommerlad quanto à fala, já confirmada na literatura, somada à observação de baixo risco para DRS no presente estudo, demonstram a importância deste tipo de intervenção para o tratamento da IVF em adultos.

Palavras chave: obstrução nasal, apneia do sono, fissura de palato, insuficiência velofaríngea

INTRODUÇÃO

A apneia obstrutiva do sono (AOS) é uma desordem respiratória do sono (DRS), que pode levar a comorbidades, como doenças cardiovasculares, pulmonares, endócrinas, cognitivas e à ocorrência de acidentes ocupacionais e automobilísticos [1-3]. No Brasil, estudo desenvolvido por Tufik et al.[4] (2010) demonstrou elevada prevalência de AOS, investigada por polissonografia, na população adulta da cidade de São Paulo.

Indivíduos adultos com fissura de palato operada (FP), foco do presente estudo, são propensos a apresentar AOS, como resultado do significativo comprometimento da patência das vias aéreas superiores causada por deformidades nasais, anormalidades estruturais da mandíbula e da maxila e alterações dentoclusais, somadas ao efeito iatrogênico do processo reabilitador, que inclui intervenções de caráter obstrutivo, como a cirurgia de retalho faríngeo, para correção da insuficiência velofaríngea (IVF) [5-11].

Revisões sistemáticas com metanálise de Blacam et al.[12] (2018) e Kurnik et al.[13] (2020) mostraram que a cirurgia de retalho faríngeo é o procedimento mais utilizado para tratamento da insuficiência velofaríngea (IVF) em indivíduos com fissura de palato operada, e, ao mesmo tempo, o procedimento de maior efeito obstrutivo sobre as vias aéreas, e, portanto, de maior risco para AOS. Contudo, técnicas supostamente menos obstrutivas como a palatoplastia de Furlow, Veloplastia Intravelar com ou sem o alongamento do palato, também se mostraram prejudiciais à patência das VAS[13-14].

Neste contexto, a abordagem considerada mais fisiológica é o re-reparo do palato de Sommerlad[15] (2003). A técnica se baseia na confecção de um véu palatino dinâmico, que, na produção de sons orais da fala se eleva, ocluindo, momentaneamente, a região velofaríngea[15-16], o que não ocorre na cirurgia de retalho faríngeo, na qual o palato mole é unido definitivamente à parede posterior da faringe por meio do retalho[16].

O re-reparo do palato de Sommerlad é realizado sob microscopia cirúrgica, combinando dissecção mínima do palato duro, retroposicionamento radical da musculatura velar e tenotomia do tensor do palato[15-17]. O procedimento tem sido associado a bons resultados de fala, mesmo sem ter a natureza obstrutiva do retalho faríngeo[18-19].

Assim sendo, o presente estudo teve por objetivos analisar, em adultos jovens com fissura de palato operada e IVF residual, a patência nasal e faríngea, por meio de rinomanometria, e a ocorrência de DRS e AOS, e sua gravidade, por meio da aplicação de questionários e de polissonografia noturna, antes e após a cirurgia re-reparo do palato de Sommerlad.

MÉTODOS

O presente estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo – HRAC/USP, sob nº 1.905.404 e realizado após a assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido.

Casuística:

Foram considerados como *critérios de inclusão*: indivíduos adultos com fissura de palato±lábio reparada, com idade entre 18 e 30 anos, de ambos os sexos, em atendimento regular na instituição, com indicação para palatoplastia secundária pela técnica de Sommerlad, baseada em avaliação clínica e nasoendoscópica realizadas de rotina pelos cirurgiões plásticos do presente estudo. Os *critérios de exclusão* foram os seguintes: pacientes com palato mole muito curto, fístula no palato duro, síndromes genéticas, cardiopatias, pneumopatias, obesidade obstrução nasal confirmada pela rinomanometria ou outras condições clínicas que não

permitissem a realização de todas as etapas do estudo.

Num período de 24 meses, um total de 32 pacientes adultos foram recrutados. Doze não foram incluídos no estudo por apresentarem fístula no palato duro (n=4), obstrução nasal crônica (n=3) e síndrome genética (n=5). Os 20 pacientes que atenderam aos critérios de inclusão foram submetidos, no pré-operatório, à investigação da patência nasal e faríngea, investigação da qualidade do sono, e, avaliação miofuncional orofacial. Deste total, 15 retornaram para a avaliação pós-operatória, sendo constatada presença de fístula no palato em um paciente e modificação significativa do índice de massa corpórea (IMC) em outro paciente, os quais foram, então, excluídos do estudo, resultando em 13 pacientes, dos quais 7 se submeteram à polissonografia pré- e pós-operatória (Figura 1).

Em suma, foram analisados, prospectivamente, um total de 13 indivíduos adultos, com idade média de 22 anos (18- 30 anos), 11 do sexo masculino e 2 do sexo feminino. Desse total, 4 indivíduos apresentavam fissura de palato isolada e 9, fissura de lábio e palato, todos já submetidos à cirurgia reparadora primária.

Procedimentos:

Os pacientes foram submetidos aos seguintes procedimentos, dois dias antes da cirurgia:

1) investigação da patência nasal e faríngea por meio de questionários e exame rinomanométrico, 2) investigação da qualidade do sono, por meio da aplicação de questionários e exame polissonográfico, e, 3) avaliação miofuncional orofacial e antropométrica. Os exames pós-operatórios foram agendados para o primeiro retorno da rotina médica hospitalar, ou seja, 7 meses após a cirurgia, em média.

Investigação da patência nasal e faríngea por questionário e rinomanometria.

A patência nasal subjetiva foi investigada por meio da aplicação do questionário *Congestion Quantifier Five Item (CQ-5)* de La Banca et al.[20] (2011) adaptado para o Português Brasileiro por Fernandes et al.[21] (2018). Foram investigados os sintomas de obstrução nasal presentes nos últimos 30 dias, graduados de 1 a 4 de acordo com frequência do sintoma (*0*= 1 a 2 vezes por mês; *1*= 1 a 2 vezes por semana; *2*= 3 a 4 vezes por semana; *3*= 5 a 6 vezes por semana e *4*= mais de 6 vezes por semana). A soma dos escores igual ou maior que 6 foi interpretada como percepção (ou presença) de obstrução nasal significativa[20,22].

A análise da patência nasal e faríngea foi feita pela medida da menor área de secção transversa da cavidade nasal (ASTN) e da área de secção transversa da faringe na transição entre naso- e orofaringe, ou seja, na velofaringe (ASTVF) durante a respiração de repouso, utilizando rinomanometria anterior e rinomanometria anterior modificada, respectivamente, segundo o método preconizado por Warren e Dubois[23](1964) e descrito por Bertier e Trindade[24] (2007). Os exames foram realizados no Laboratório de Fisiologia do HRAC-USP, utilizando um sistema PERCI-SARS (versão 4.01, Microtronics Corp., Chapel Hill, NC, USA).

A área de secção transversa mínima (A) da cavidade nasal e da velofaringe (em cm^2) foram determinadas pela equação: $A=F/k(2\Delta P/d)^{1/2}$, onde: F=fluxo nasal (cm^3/s); k=0,65; ΔP=pressão oronasal diferencial ($dinas/cm^2$) ; d=densidade do ar ($0{,}001g/cm^3$). As áreas nasais foram comparadas com os valores normativos[25].Na análise da área velofaríngea, o valor de $100mm^2$ foi considerado como o limite inferior de normalidade[26].

Investigação da qualidade do sono por questionários, escalas e polissonografia

Sintomas de DRS (ronco habitual, pausas respiratórias, sonolência excessiva e fadiga,

foram investigados por meio do *questionário de Berlin*[27] e da *Escala de Sonolência de Epworth*[28], conforme recomendações da AASM-American Academy of Sleep Medicine.[29]A intensidade do ronco foi avaliada pela *Escala do Ronco de Stanford* [30] e graduada de 0 a 10 (ausente, leve, alto, muito intenso e não suportável).

Os distúrbios do sono foram investigados por meio de polissonografia tipo I, supervisionada, de noite inteira, realizada na Unidade de Estudos do Sono da instituição. Para tanto, foram utilizados polígrafos EMBLA N7000 (Embla Systems, Inc.,Broomfield,CO) ou FINDER 900 (Meditron), conforme a disponibilidade, com sistemas de áudio e vídeo sincronizados. Antes de cada exame, ambiente, equipamentos e sua montagem foram ajustados conforme as recomendações da Academia Americana de Medicina do Sono (AAMS), descritas em Berry et al.[31] (2018).

A montagem, calibração e o monitoramento do paciente durante o sono foram realizados pelo pesquisador principal. As condições clínicas basais dos pacientes foram avaliadas pelos profissionais de enfermagem da instituição, antes e após a realização do exame, sendo que todos os pacientes foram orientados a não ingerir estimulantes e evitar cochilos no dia do exame.

Para os fins do presente estudo, foi priorizada a análise dos eventos respiratórios e aspectos relacionados, realizada por médico do sono com base na *Version 2.6* do "*AASM Manual for the Scoring of Sleep and Associated Events- Summary of Updates)*[32]. Foram avaliados os seguintes eventos: ronco primário, hipopneias, apneias obstrutivas, mistas e centrais. A AOS foi definida com base na nova Classificação Internacional dos Distúrbios do Sono (CIDS-3)[33] que estabelece para o diagnóstico da AOS: 1) índice indicativo de gravidade leve (entre 5 e 14 eventos/hora) associado a uma ou mais das seguintes queixas: sono não reparador, despertar com falta de ar, sonolência diurna, fadiga ou insônia, 2) índice indicativo de gravidade moderada, com 15 ou mais eventos/hora ou grave, a partir de 30 eventos/hora. Os pacientes com distúrbios confirmados ao exame polissonográfico e/ou com evidências de outros

distúrbios do sono foram encaminhados para o ambulatório do sono da instituição para as devidas orientações clínicas.

Avaliação Miofuncional Orofacial

Para a identificação de comorbidades associadas a AOS (hipertrofia de amigdalas, alterações dento-oclusais e prejuízos no tônus muscular) utilizou-se o protocolo "Myofunctional Orofacial Evaluation" de Genaro et al.[34] (2009). Para a determinação do índice de massa corpórea (IMC), foram medidos altura e peso e o IMC calculado pela equação: IMC= peso (kg)/altura $(m)^2$.

Análise dos dados

Os resultados obtidos foram submetidos à análise pelo software SigmaPlot (SigmaPlot, San Jose, CA, EUA) versão 12.0. Para a comparação das *variáveis quantitativas contínuas e discretas*, obtidas antes e após cirurgia, utilizou-se o teste t pareado, no caso de distribuição normal dos dados, e o teste de Wilcoxon, quando não observada distribuição normal, sendo adotado um nível de significância de 5%.

RESULTADOS

A tabela 1 mostra características demográficas (idade, IMC) da população estudada, número de pacientes e resultados nos questionários de CQ-5 e Berlin, nas escalas de Epworth e Stanford e os principais achados da rinomanometria e polissonografia, antes e após a cirurgia.

Nenhum paciente necessitou de intervenção pós-operatória por obstrução das vias

aéreas superiores.

Rinomanometria:

A tabela 1 mostra os valores da patência nasal e velofaríngea dos casos analisados, avaliadas por rinomanometria.

Os valores médios de ASTN pré- e pós-operatórios corresponderam a 67±16mm^2 e 60±15mm^2, respectivamente, sendo a diferença não significante (p=0,052). Os valores médios de ASTVF corresponderam a 108±5mm^2 e 109±9mm^2, respectivamente, sendo a diferença não significante (p>0,05).

Todos os pacientes apresentaram valores de ASTN e ASTVF normais antes da cirurgia, indicando boa patência nasal e velofaríngea na respiração de repouso. Após a cirurgia, apenas um caso apresentou área nasal reduzida (ASTNpós=36mm^2) não associada a queixas respiratórias. Não houve alteração de ASTVF em nenhum caso.

Questionário de Berlin e escalas de Epworth e Stanford

A média dos escores observados nos três instrumentos antes e após a cirurgia não diferiram significantemente entre si ($p \geq 0.05$). Dos 13 pacientes avaliados, 2 apresentaram resultado positivo no questionário de Berlin no pré-operatório e 2, no pós-operatório. Sete relataram sonolência excessiva na escala de Epworth no pré- e no pós-operatório, e, na escala de Stanford**,** 6 relataram ronco no pré- e 5 no pós-operatório. Do total de 13, 11 pacientes que apresentaram os sintomas no pré-operatório, mantiveram os mesmos sintomas no pós-operatório.

Questionário CQ5

Dos 13 pacientes, 10 não relataram sensação de congestão nasal no pré- e no pós-operatório. Os 3 pacientes restantes, relataram sensação de congestão nasal no pré-operatório e um deles no pós-operatório, não confirmada pela medida da rinomanometria (ASTN).

Polissonografia

Nenhum paciente relatou histórico de doenças sistêmicas, bem como insônia, consumo de bebidas alcoólicas, uso de medicamentos sedativos e relaxantes musculares nas noites anteriores ao exame polissonográfico. Não foram constatadas intercorrências durante os exames. Todos os pacientes apresentaram boas condições clínicas basais antes e após o exame. A tabela 1 mostra que não houve variação estatisticamente significativa dos valores médios de todos os parâmetros analisados na polissonografia ($p>0,05$), e, em particular, os valores da saturação de O_2 observados no pré- e pós-operatório (97±1,3% e 97±0,5%, respectivamente). Na avaliação pré-cirúrgica, 2 dos 7 casos analisados apresentaram IAH >5 eventos/hora associados a sintomas de desordens respiratórias, ou seja, AOS leve, também observada no pós-cirúrgico. Nenhum caso passou a apresentar IAH sugestivo de AOS após a cirurgia.

DISCUSSÃO

O presente estudo teve por objetivo avaliar, prospectivamente, o impacto da cirurgia de re-reparo do palato de Sommerlad sobre a patência nasal e velofaríngea, e, sobre aspectos respiratórios do sono, em adultos com fissura de palato±lábio operada. Para este fim, foram

adotados critérios de inclusão/exclusão rígidos, que levaram a uma amostra populacional relativamente pequena, porém, representativa e uniforme.

Na avaliação subjetiva do *efeito da cirurgia*, observou-se que os escores médios dos três testes utilizados (Berlin , Epworth e Stanford) não diferiram entre o pré- e pós-operatório, sugerindo que, na percepção dos pacientes, a cirurgia não havia causado obstrução significativa nas vias aéreas superiores. Reforçando este achado, a análise individual dos resultados obtidos no pós-operatório mostrou que, em alguns pacientes, sintomas de ronco, pausas respiratórias, sonolência excessiva e/ou fadiga, identificados pela escala de Berlin, e de sonolência excessiva diurna, pela escala de Epworth, já estavam presentes no pré-operatório, não podendo, portanto, ser atribuídos à cirurgia. Esta foi a primeira observação a indicar que a cirurgia de Sommerlad não teve efeito obstrutivo na velofaringe. Há que se destacar, no entanto, que, na aplicação da escala de Stanford, dos seis pacientes que relataram ronco no pré-operatório, dois passaram a relatar ronco mais intenso no pós-operatório. Este achado é provavelmente resultante da remodelação anatômica das estruturas velofaríngeas e não do efeito obstrutivo da cirurgia, em si. Para reforçar essa hipótese, não foram observadas variações clinicamente significativas nas medidas faríngeas e nos parâmetros polissonográficos daqueles pacientes.

De modo a comprovar os achados subjetivos, os pacientes foram submetidos à exame rinomanométrico. Quanto à *patência nasal*, embora tenha sido observada redução da média da área de secção transversa mínima nasal (ASTN) após a cirurgia, esta não foi significante do ponto de vista estatístico e, igualmente não impactante do ponto de vista clínico. Este achado foi reforçado pela redução observada nos escores do CQ-5 em 2 pacientes após a cirurgia, significando melhora da respiração nasal. Quanto à *patência da região velofaríngea*, também não foi constatada redução significativa da área de secção transversa velofaríngea, que poderia levar a obstrução respiratória e AOS.

Os presentes resultados diferem substancialmente dos achados de Yamashita e Trindade[9]

(2008) em adultos submetidos à cirurgia de retalho faríngeo, que observaram redução significativa da área velofaríngea, causada pelo retalho, acompanhada de queixas respiratórias em 55% dos casos analisados a curto prazo e em 36% dos casos, a longo prazo.

Resta, portanto, analisar a ocorrência de AOS, e sua gravidade, antes e após a cirurgia re-reparo do palato de Sommerlad. A análise dos dados polissonográficos mostrou que a cirurgia não levou a variações significativas de todos os parâmetros analisados ($p>0,05$), sendo que a saturação de O_2 pré- e pós-operatório não apresentou variações significativas (97±1,3% e 97±0,5%, respectivamente). Adicionalmente, observou-se que nenhum caso passou a apresentar índices sugestivos de AOS após a cirurgia, o que difere substancialmente do observado na literatura para a cirurgia de retalho faríngeo[13].

Estes resultados reforçam os achados de Mehendale et al.[16] (2013), em crianças, que também avaliaram o efeito da cirurgia do re-reparo de Sommerlad, e não encontraram efeito adverso significativo sobre a qualidade do sono. Em contrapartida, os autores encontraram evidências de aumento da resistência de vias aéreas na faringoplastia Hynes, também analisada naquele estudo, com presença de AOS no pós-cirúrgico.

Em conclusão, os resultados do presente estudo demonstram que, em adultos com fissura de palato operada, o re-reparo de Sommerlad não prejudica a patência das vias aéreas na vigília e no sono, sendo, portanto, uma opção cirúrgica segura do ponto de vista respiratório e, portanto, mais conservadora para o tratamento dos distúrbios de fala resultantes de insuficiência velofaríngea residual palatoplastia primária nessa população.

REFERÊNCIAS

1- Heilbrunn E, Ssentongo P, Chinchilli VM, Ssentongo. Sudden death in individuals with obstructive sleep apnoea: protocol for a systematic review and meta-analysis. BMJ Open. 2020 Aug 26;10(8):e039774.

2- Garbarino S, Guglielmi O, Sanna A, Mancardi GL, Magnavita N. Risk of occupational accidents in workers with obstructive sleep apnea: systematic review and meta-analysis sleep. 2016 Jun 1;39(6):1211-8. doi: 10.5665/sleep.5834.

3- Koyama RG, Esteves AM, Oliveira e Silva L, LiraFS, Bittencourt LR, Tufik S et al. Prevalence of and risk factors for obstructive sleep apnea syndrome in Brazilian railroad workers. Sleep Med. 2012; 13(8):1028-32.

4- Tufik S, Santos-Silva R, Taddei JA, Bittentcourt LR. Obstructive sleep apnea syndrome in the São Paulo Epidemiologic Sleep Study. Sleep Med. 2010; 11:441-6.

5- Campos LD, Trindade IEK, Yatabe M, Trindade SHK, Pimenta LA, Kimbell J, Drake AF, Trindade-Suedam IK. Reduced pharyngeal dimensions and obstructive sleep apnea in adults with cleft lip/palate and Class III malocclusion.Cranio. 2019;Sep 17:1-7.

6- Madrid JR, Ortega VG, Echeverri P, Velasquez NL. Prevalence of obstructive sleep apnea after orticochea pharyngoplasty for velopharyngeal insufficiency management. Cleft Palate Craniofac J. 2015 Nov;52(6):682-7.

7- MacLean JE, Hayward P, Fitzgerald DA, Waters K. Cleft lip and/or palate and breathing during sleep. Sleep Med Rev. 2009a; 13(5):345-54.

8- Maclean JE, Waters K, Fitzsimons D, Hayward P, Fitzgerald DA. Screening for obstructive sleep apnea in preschool children with cleft palate. Cleft Palate Craniofac J. 2009b; 46(2):117- 23.

9- Yamashita RP, Trindade IEK. Long-term effects of pharyngeal flaps on the upper airways of subjects with velopharyngeal insufficiency. Cleft Palate Craniofac J. 2008;45(4):364-70.

10- Muntz H, Wilson M, Park A, Smith M, Grimmer JF. Sleep disordered breathing and obstructive sleep apnea in the cleft population. Laryngoscope. 2008; 118(2):348-5.

11- Fukushiro AP, Trindade IE. Nasal airway dimensions of adults with cleft lip and palate: differences among cleft types. Cleft Palate Craniofac J. 2005;42:396–402.

12- Blacam C, Smith S, Orr D. Surgery for Velopharyngeal Dysfunction: A Systematic Review of Interventions and Outcomes. Cleft Palate Craniofac J. 2018; 55: 405-422.

13- Kurnik NM, Weidler EM, Lien KM, Cordero KN, Williams J, Temkit M, Beals S, Singh D. The Effectiveness of Palate Re-Repair for Treating Velopharyngeal Insufficiency: A

Systematic Review and Meta-Analysis. Cleft Palate Craniofac J. 2020; 57: 860-71.

14- Abdel-Aziz M, Hussien A, Kamel A, Azooz K, Fawaz M. The Impact of Velopharyngeal Surgery on the Polysomnographic Parameters After Cleft Palate Repair.J Craniofac Surg. 2018; 29: 717-19.

15- Sommerlad BC. A technique for cleft palate repair. Plast Reconstr Surg. 2003;112(6):1542- 8.

16- Mehendale FV, Lane R, Laverty A, Dinwiddie R, Sommerlad BC. Effect of palate re-repairs and hynes pharyngoplasties on pediatric airways: an analysis of preoperative and postoperative cardiorespiratory sleep studies. Cleft Palate Craniofac J. 2013;50(3):257-67.

17- Baillie L, Sell D. Benchmarking Speech, Velopharyngeal Function Outcomes and Surgical Characteristics Following the Sommerlad Protocol and Palate Repair Technique. *Cleft Palate Craniofac J*. 2020; 1055665620923925.

18- Sommerlad BC, Mehendale FV, Birch MJ, Sell D, Hattee C, Harland K. Palate re-repair revisited. Cleft Palate Craniofac J. 2002;39:295-307 2.

19- Elsherbiny A, Amerson M, Sconyers L, Grant JH. Outcome of palate re-repair with radical repositioning of the levator muscle sling as a first-line strategy in postpalatoplasty Velopharyngeal Incompetence Management Protocol. Plast Reconstr Surg. 2018; 141: 984- 991.

20- La Banca RO, Corti ACR, Camelo-Nunes IC, Mallozi MC, Solé D. [Congestion nasal index in the evaluation of nasal obstruction of children and adolescents with allergic rhinitis]. Rev Bras Alerg Imunopatol. 2011;34(1):19-22.

21- Fernandes MBL, Salgueiro AGNS, Bighetti EJB, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Symptoms of Obstructive Sleep Apnea, Nasal Obstruction, and Enuresis in Children With Nonsyndromic Cleft Lip and Palate: A Prevalence Study. Cleft Palate Craniofac J. 2018; 56: 307-13.

22- Stull DE, Meltzer EO, Krouse JH, Roberts L, Kim S, Frank L, et al. The congestion quantifier five-item test for nasal congestion: refinement of the congestion quantifier seven- item test. Am J Rhinol Allergy. 2010;24(1):34-8.

23- Warren DW, Dubois AB. A pressure-flow technique for measuring velopharyngeal orifice area during continuous speech. Cleft Palate J. 1964;1:52–71.

24- Bertier CE,Trindade IEK. Deformidades nasais: avaliação e tratamento cirúrgico. In: Trindade IEK, Silva Filho OG. Fissuras labiopalatinas: uma abordagem interdisciplinar. São Paulo: Santos, 2007, p. 87-107.

25- Dalston RM, Warren DW, Dalston ET. A preliminary study of nasal airway patency and its potential effect on speech performance. Cleft Palate Craniofac J. 1992;29:330–335.

26- Araújo LL, Silva ASC, Araújo BMAM, Yamashita RP, Trindade IEK, Fukushiro AP. Nasopharyngeal dimensions in normal individuals: Normative data. CoDAS 2016;28(4):403- 408.

27- Netzer NC, Stoohs RA, Netzer CM, Clark K, Strohl KP. Using the Berlin Questionnaire to identify patients at risk for the sleep apnea syndrome. Ann Intern Med. 1999; 131(7):485-91. 28-Johns MW. A new method for measuring daytime sleepiness: the Epworth sleepiness scale. Sleep. 1991; 14(6):540-5.

29- Kapur VK, Auckley DH, Chowdhuri S, Kuhlmann DC, Mehra R, Ramar K, Harrod CG. Clinical practice guideline for diagnostic testing for adult obstructive sleep apnea: an American Academy of Sleep Medicine clinical practice guideline. J Clin Sleep Med. 2017;13(3):479–504.

30- Araújo-Melo MH, Neves DD, Ferreira LVMV, Moreira MLV, Nigri R, Simões SMG. Questionários e escalas úteis na pesquisa da síndrome da apneia obstrutiva do sono. Revista HUPE, Rio de Janeiro, 016;15(1):49-55.

31- Berry RB, Albertario CL, Harding SM, Lloyd RM, Plante DT, Quan SF, et al. The AASM manual for the scoring of sleep and associated events: rules, terminology and technical specifications,version 2.5. Darien, IL: American Academy of Sleep Medicine;2018.

32- American Academy of Sleep Medicine. The AASM Manual for the Scoring of Sleep and Associated Events Summary of Updates in Version 2.6. Available online: https://j2vjt3dnbra3ps7ll1clb4q2-wpengine.netdna-ssl.com/wp-t/uploads/2020/01/Summary-of-Updates-in-v2.6-1.pdf (accessed on May 2019).

33- American academy of sleep medicine, international classification of sleep disorders. 3rd ed. 2014, Darein,IL.

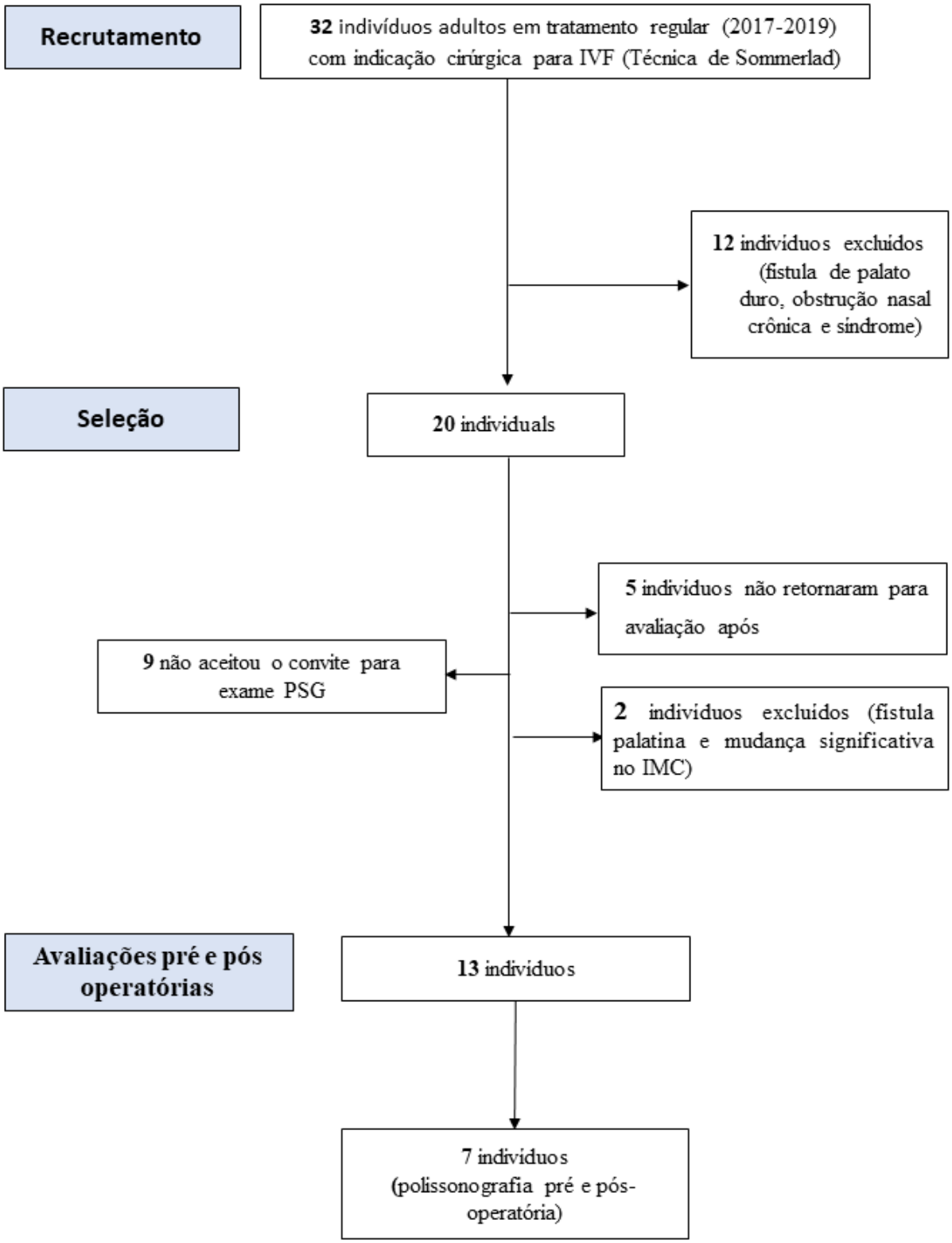
34- Genaro KF, Berretin-Félix G, Rehder MIBC, Marchesan IQ. Avaliação miofuncional orofacial - Protocolo MBGR. Rev CEFAC. 2009;11(2):237-55.

Tabela 1: Valores médios e desvio padrão de dados gerais e de parâmetros aferidos por escalas, questionários, rinomanometria, e polissonografia na população estudada, antes e após a cirurgia de Sommerlad.

Instrumentos	Variáveis	PRÉ n=13	PÓS n=13	p*
	Idade (anos), média±dp	22±2	22±2	-
	IMC, média±dp	21±2	22±2	
Rinomanometria	ASTN,mm^2	67±16	60±15	*0,052*
n=13	ASTNF,mm^2	108±5	109±9	*0,725*
Escalas	Berlin(+), n(%)	2 (15%)	2 (15%)	*1,0*
n=13	Epworth(+), n(%)	7 (54%)	7 (54%)	*1,0*
	Stanford-R,(+), n(%)	6 (46%)	5 (38%)	*1,0*
	CQ-5, ,(+), n(%)	3 (23%)	1 (8%)	*0,375*
Polissonografia	IAH	4,5±3,5	4,7±3,2	*0,59*
n=7	IAO	1,7±1,5	1,1±1,4	*0,1*
	IAC	0,2±0,2	0,1±0,2	*0,6*
	IAM	0,9±1,9	0,1±0,1	*0,8*
	IH	2,4±2,4	3,4±2,3	*0,07*
	DM-AO	20,5±2,8	12,9±12,1	*0,15*
	SatO2,média	97±1,3	97±0,5	*0,267*
	IDO	1,4±2,9	0,4±0,5	*1,0*

Legenda: IMC - índice de massa corporal; ASTN - área seccional transversa mínima nasal; ASTNF - área seccional transversa mínima nasofaríngea; IAH - índice de apneia e hipopneia por hora; IAO - índice de apneia obstrutiva por hora; IAC - índice de apneia central por hora; IAM - índice de apneia mista por hora; IH - índice de hipopneia por hora; DM - AO duração média da apneia obstrutiva em segundos; SatO2 média - saturação média da oxihemoglobina; IDO - índice de dessaturação da oxihemoglobina por hora.

Figura 1: Seleção da amostra.



5 CONCLUSÕES GERAIS

5 CONCLUSÕES GERAIS

Os artigos 1 e 2 em conjunto, comprovam que o re-reparo (*re-repair*) do palato pela técnica de Sommerlad em crianças e adultos com fissura de palato operada é eficaz no tratamento da IVF. Além de levar a uma melhora substancial da fala, conforme constatado na literatura, a técnica se mostrou segura do ponto de vista respiratório. Com base em métodos subjetivos e objetivos de análise - questionários, escalas, rinomanometria e polissonografia - constatou-se que a técnica não comprometeu a patência das vias aéreas superiores na vigília e no sono, conferindo ao procedimento um perfil mais fisiológico e, portanto, mais conservador.

REFERÊNCIAS

REFERÊNCIAS

1- World Health Organization. Global strategies to reduce the heath-care burden of craniofacial anomalies. Geneva: The Organization; 2002.

2- Shaw WC, Semb G. Princípios e estratégias da reabilitação: recomendações da Organização Mundial da Saúde (OMS) In: Trindade IEK; Silva Filho OG, org. *Fissuras labiopalatinas: uma abordagem interdisciplinar*. São Paulo: Santos; 2007. p.87-107.

3-Freitas JAS, Neves LT, Almeida AL, Garib DG, Trindade-Suedam IK, Yaedú RY et al. Rehabilitative treatment of cleft lip and palate: experience of the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies/USP (HRAC/USP) – Part 1: overall aspects. J Appl Oral Sci. 2012;20(1):9-15

4- Muntz H, Wilson M, Park A, Smith M, Grimmer JF. Sleep disordered breathing and obstructive sleep apnea in the cleft population. Laryngoscope. 2008; 118(2):348-5.

5- Trindade-Suedam IK, Lima TF, Campos LD, Yaedú RYF, Nary Filho H,Trindade IEK. Tomographic Pharyngeal Dimensions in Individuals With Unilateral Cleft Lip/Palate and Class III Malocclusion Are Reduced When Compared With Controls. The Cleft Palate–Craniofacial Journal 54(5) pp. 502–508 September 2017.

6- Campos LD, Trindade IEK, Yatabe M, Trindade SHK, Pimenta LA, Kimbell J, Drake AF, Trindade-Suedam IK.Reduced pharyngeal dimensions and obstructive sleep apnea in adults with cleft lip/palate and Class III malocclusion.Cranio. 2019;Sep 17:1-7.

7- Bertier CE, Trindade IEK, Silva Filho, OG. Cirurgias primárias de lábio e palato. In: Trindade IEK, Silva Filho OG. Fissuras labiopalatinas: uma abordagem interdisciplinar. São Paulo: Santos, 2007, p. 73-86.

8- Bertier CE,Trindade IEK. Deformidades nasais: avaliação e tratamento cirúrgico. In: Trindade IEK, Silva Filho OG. Fissuras labiopalatinas: uma abordagem interdisciplinar. São Paulo: Santos, 2007, p. 87-107.

9- Fukushiro AP, Trindade IEK. Nasometric and aerodynamic outcome analysis of pharyngeal flap surgery for the management of velopharyngeal insufficiency. J Craniofac Surg. 2011;22(5):1647-51 23.

10- Collins J, Cheung K, Farrokhyar F, Strumas N. Pharyngeal flap versus sphincter pharyngoplasty for the treatment of velopharyngeal insufficiency: a meta-analysis. J Plast Reconstr Aesthet Surg. 2012;65(7):864-8.

11- Blacam C, Smith S, Orr D. Surgery for Velopharyngeal Dysfunction: A Systematic Review of Interventions and Outcomes. Cleft Palate Craniofac J. 2018; 55: 405-422.

12- Witt PD, D'Antonio LL. Velopharyngeal insufficiency and secondary palatal management: A new look at an old problem. Clin Plast Surg. 1993;20(4):707-21.

13-Witt PD, Myckatyn T, Marsh JL. Salvaging the failed pharyngoplasty: intervention outcome. Cleft Palate Craniofac J. 1998;35(5):447-53.

14-Zuiani TBB, Trindade IEK, Yamashita RP, Trindade Junior AS. The pharyngeal flap surgery in patients with velopharyngeal insufficiency: perceptual and nasometric speech assessment. Braz J Dysmorphol Speech Dis. 1998;2(1):31-42.

15- Yamashita RP, Trindade IEK. Long-term effects of pharyngeal flaps on the upper airways of subjects with velopharyngeal insufficiency. Cleft Palate Craniofac J. 2008;45(4):364-70.

16- Cardia CCO. Apnéia obstrutiva do sono após tratamento cirúrgico da insuficiência velofaríngea: análise de sinais e sintomas em adultos de meia-idade [tese]. Bauru: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo; 2011.

17- Campos LD, Trindade-Suedam IK, Sampaio-Teixeira AC, Yamashita RP, Lauris JR, Lorenzi- Filho G, Trindade IE. Obstructive Sleep Apnea Following Pharyngeal Flap Surgery for Velopharyngeal Insufficiency: A Prospective Polysomnographic and Aerodynamic Study in Middle-Aged Adults. Cleft Palate Craniofac J. 2016;53(3):e53-9.

18- Marrone O, Lo Bue A, Salvaggio A et al. Comorbidities and survival in obstructive sleep apnea beyond the age of 50. Eur J Clin Invest 2013;43 (1):27-33.

19-Trindade SHK, Trindade IEK, Silva ASC, Araújo BMAM, Trindade-Suedam IK, Sampaio-Teixeira ACM, Weber SAT. Are reduced internal nasal dimensions a risk factor for obstructive sleep apnea syndrome? Braz J Otorhinolaryngol. 2020 Jul 30;S1808-8694(20)30114-2.

20- Beebe DW, Gozai D. Obstructive sleep apnea and the prefrontal cortex: towards a comprehensive model linking nocturnal upper airway obstruct ion to daytime cognitive and behavioral deficits. J Sleep Res. 2002;11(1):1-1 6.

21- Heilbrunn E, Ssentongo P, Chinchilli VM, Ssentongo. Sudden death in individuals with obstructive sleep apnoea: protocol for a systematic review and meta-analysis. BMJ Open. 2020 Aug 26;10(8):e039774.

22- Hoth KF, Zimmerman ME, Meschede KA, Arnedt JT, Aloia MS. Obstructive sleep apnea: impact of hypoxemia on memory. Sleep Breath. 2013;17(2):811-7.

23- Kylstra WA, Aaronson JA, Hofman WF, Schmand BA. Neuropsychological functioning after CPAP treatment in obstructive sleep apnea: A meta-analysis. Sleep Med Rev. 2012; 12:101-3.

24- Rodenstein D. Sleep apnea: traffic and occupational accidents: individual risks, socioeconomic and legal implications. Respiration. 2009; 78(3):241-8.

25- Koyama RG, Esteves AM, Oliveira e Silva L, LiraFS, Bittencourt LR, Tufik S et al. Prevalence of and risk factors for obstructive sleep apnea syndrome in Brazilian railroad workers. Sleep Med. 2012; 13(8):1028-32.

26-Guilleminault C, Korobkin R, Winkle R.A Review of 50 Children With Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Lung. 1981;159: 275-87.

27-Fernandes MBL, Salgueiro AGNS, Bighetti EJB, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Symptoms of Obstructive Sleep Apnea, Nasal Obstruction, and Enuresis in Children With Nonsyndromic Cleft Lip and Palate: A Prevalence Study. Cleft Palate Craniofac J. 2019; 56: 307-13.

28-MacLean JE, Hayward P, Fitzgerald DA, Waters K. Cleft lip and/or palate and breathing during sleep. Sleep Med Rev. 2009a; 13(5):345-54.

29-Maclean JE, Waters K, Fitzsimons D, Hayward P, Fitzgerald DA. Screening for obstructive sleep apnea in preschool children with cleft palate. Cleft Palate Craniofac J. 2009b; 46(2):117-23.

30- Fukushiro AP, Zwicker CVD, Genaro KF, Yamashita RP, Trindade IEK. Dimensões nasofaríngeas e sintomas respiratórios após a cirurgia de retalho faríngeo em crianças e adultos. ACR 2013;18(2):57-62.

31- Graham WP, Hamilton R, Randall P, Whinchester R, Stool S. Complications following posterior pharyngeal flap surgery. Cleft Palate.1973;Apr;10:176-80.

32- Leiberman A, Tal A, Sofer S. Obstructive sleep apnea in children. Harefuah.1987;Jan;112(2):57-9.

33- Kurnik NM, Weidler EM, Lien KM, Cordero KN, Williams J, Temkit M, Beals S, Singh D. The Effectiveness of Palate Re-Repair for Treating Velopharyngeal Insufficiency: A Systematic Review and Meta-Analysis. Cleft Palate Craniofac J. 2020; 57: 860-71.

34- Sommerlad BC, Mehendale FV, Birch MJ, Sell D, Hattee C, Harland K. Palate re-repair revisited. Cleft Palate Craniofac J. 2002;39:295-307 2.

35- Sommerlad BC. A technique for cleft palate repair. Plast Reconstr Surg. 2003;112(6):1542-8

36- Mehendale FV, Lane R, Laverty A, Dinwiddie R, Sommerlad BC. Effect of palate re-repairs and hynes pharyngoplasties on pediatric airways: an analysis of preoperative and postoperative cardiorespiratory sleep studies. Cleft Palate Craniofac J. 2013;50(3):257-67.

APÊNDICE

APÊNDICE 1: Declaração de uso exclusivo de artigos em tese

DECLARAÇÃO DE USO EXCLUSIVO DE ARTIGOS EM TESE

Declaramos que estamos cientes de que o trabalho "Desordens respiratórias do sono após palatoplastia secundária de Sommerlad para tratamento da insuficência velofaríngea", **composto pelos artigos originais 1 e 2**, será apresentado na tese da aluna Andressa Sharllene Carneiro da Siva e que não foi, tampouco será utilizado em outra dissertação ou tese dos Programas de Pós Graduação do HRAC-USP.

Bauru, 18 de abril de 2021.

Andressa S.Carneiro da Silva
Autor-Aluno

Inge Elly Kiemle Trindade
Autor-Orientador

Colaboradores:

Bruna MAM Araújo

Carlos Eduardo Bertier

Telma VS Brosco

Ana Paula Fukushiro

Sergio H Kiemle Trindade

Ana C M Sampaio-Teixeira

ANEXO

ANEXO 1: Parecer do Comitê de Ética em Pesquisa da instituição.

USP - HOSPITAL DE REABILITAÇÃO DE ANOMALIAS CRANIOFACIAIS

PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

DADOS DO PROJETO DE PESQUISA

Título da Pesquisa: FALA E SONO NAS FISSURAS DE PALATO: resultados da palatoplastia secundária de Sommerlad.

Pesquisador: Inge Elly Kiemle Trindade

Área Temática:

Versão: 1

CAAE: 63645317.1.0000.5441

Instituição Proponente: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da USP

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 1.905.404

Continuação do Parecer: 1.905.404

Ausência	12_12_2016_TCLE_Sommerlad.docx	12/12/2016 16:45:43	Inge Elly Kiemle Trindade	Aceito

Situação do Parecer:
Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:
Não

BAURU, 02 de Fevereiro de 2017

Assinado por:
Silvia Maria Graziadei
(Coordenador)