

# *Reflexões Sobre o Tratamento Cirúrgico da Atresia de Coana*

*John Robert Newman, Paula Harmon, William Peyton Shirley,  
Jimmy Scott Hill, Audie L. Woolley e Brian J. Wiatrak*

## **Introdução**

A atresia de coana (AC) é a malformação congênita da via aérea superior que anualmente acomete entre 1 em 7000 e 1 em 8000 crianças. A maioria destas crianças (2:1) são portadoras de doença unilateral, com sintomas de congestão nasal unilateral e rinorréia.<sup>1</sup> A AC bilateral é, em geral, diagnosticada ao nascimento, com sintomas de cianose cíclica que melhora com o chôro. Anomalias associadas são encontradas em 50% de todas as crianças com AC, a mais comum sendo a associação CHARGE.<sup>2</sup>

Embora mecanismos embriológicos múltiplos tenham sido implicados como causa potencial da AC, a teoria mais comumente aceita é a falha na reabsorção da membrana nasobucal (de Hochstetter) ao redor da 6ª semana de gestação.<sup>1</sup> Anatomicamente, a persistência desta membrana resulta na medialização da(s) placa(s) pterigóide(s) lateral(ais), (dando um aspecto de obstrução lateral) alargamento do vômer (aspecto medial da obstrução), e a obstrução da via aérea nasofaríngea. A obstrução ocorre mais comumente devido a elementos formados por uma mescla óssea e membranosa, mas ambos os componentes podem ser encontrados de maneira isolada.

A inabilidade de passar um cateter de sucção na via aérea nasal do recém-nascido deverá ser investigada exaustivamente, em geral com uma fibroscopia nasal e depois com a tomografia computadorizada (TC). Uma chupeta de McGovern poderá ser usada para estabilizar a via aérea, permitindo a alimentação até o momento da cirurgia. Devido à natureza da AC bilateral apresentar risco de vida, a intervenção operatória, seja com o reparo cirúrgico ou com a traqueotomia, é sempre realizada imediatamente após o nascimento. Na AC unilateral a cirurgia corretiva para melhorar o desempenho nasal poderá ser sempre retardada, aguardando o crescimento da via aérea nasal ao redor da placa atrésica. Um número substancial de publicações relatam uma variedade de técnicas e terapias adjuvantes, uma vez que esta condição foi primeiro descrita por Roederer em 1755.<sup>3</sup> Inicialmente, a técnica da destruição da placa atrésica foi transnasal. Embora fosse um procedimento, na tentativa de salvar a vida do recém-nascido, esta abordagem durou pouco tempo. A via transpalatal foi introduzida em 1890s por Freer e Schwendt. Esta via de acesso durou até a introdução da tecnologia da endoscopia, descrita por Deutsch em 1997 e, para AC bilateral, por Wiatrak em 1998. Embora a via de reparo transpalatal possa ser necessária para os casos mais refratários, a maioria

dos reparos são atualmente conduzidos por via endoscópica. Entretanto, devido à falta de estudos prospectivos com um grande número de casos, permanecem controvérsias sobre qual técnica seria uma abordagem mais eficiente. Entre as controvérsias estão os benefícios questionáveis da colocação do *stent*, o uso adjuvante de mitomicina C e o tempo ideal para realizar o reparo cirúrgico da AC unilateral. Nós (os autores), em nossa instituição, revisamos o desempenho de pacientes com AC submetidos a reparo cirúrgico nos últimos 15 anos. Nosso objetivo específico foi avaliar o uso do *stent*, da mitomicina C e da época na qual as cirurgias foram realizadas, aspectos estes que possam ter influenciado a necessidade de uma nova revisão cirúrgica neste grupo de pacientes.

### **Pacientes e intervenções**

A aprovação para o estudo foi obtida pelo Comitê de Ética da Universidade do Alabama, em Birmingham.

Foram consultados, para estudo, todos os prontuários dos pacientes que foram operados para AC pelos médicos do *Pediatric ENT Associates do Children's Hospital* do Alabama, entre 1996 e 2010. Um teste genético formal foi realizado em muitos dos casos, e avaliados a história e o exame físico completos. Todos os pacientes haviam sido submetidos ao reparo endoscópico transnasal por médicos otorrinolaringologistas treinados.

Os dados incluídos para análise foram: se a AC era uni ou bilateral, a idade na qual foi feito o diagnóstico, a idade em que foi realizada a cirurgia, o tipo de atresia (óssea, mista ou membranosa), presença de síndrome ou anomalias associadas, uso de mitomicina C no intra-operatório, uso de *stent* ao término da cirurgia inicial, bem como o tempo em que o mesmo foi removido, uso de dilatações subsequentes, o tempo de seguimento e a necessidade de reintervenção cirúrgica. Todas as intervenções, com exceção das dilatações seriadas ou da colocação de *stent*/remoção de tecido de granulação foram consideradas revisão cirúrgica.

Com base nestes critérios, foram identificados 40 crianças.: 3 foram excluídas por dados inadequados para análise ou pelo período de seguimento ser muito curto. Seis dos pacientes restantes do grupo de 37 que haviam sido inicialmente operados de AC por outros médicos que não do nosso serviço, foram excluídos dos nossos cálculos de reestenose/reoperação. O total resultou em 31 pacientes que foram submetidos a 43 cirurgias endoscópicas (19 foram unilaterais e 12 tiveram procedimentos bilateralmente).

A análise estatística foi realizada usando o *software* GraphPad (GraphPad Software, Inc., San Diego, CA). O teste exato de Fisher foi usado, sendo aceito que o  $p \leq 0,05$  era significante.

### **Técnica endoscópica operatória**

Após a anestesia geral com o paciente intubado, é colocado no paciente um abridor de boca Dingman. Usamos o endoscópio Carl Storz com lentes de angulação de 120°, com retrator de palato, para obtenção de visualização endoscópica diretamente da coana posterior. A coana atrésica é perfurada com uma sonda uretral van Buren (em geral de tamanho 10 Fr), sob visualização direta. Este procedimento pode ser feito com pouca dificuldade, mesmo no caso

de atresia óssea pura. Um microdebridador pode ser usado nos casos de atresia óssea que são difíceis de perfurar. Uma vez que uma abertura foi criada na placa atrésica, progressivamente são usadas sondas uretrais cada vez mais largas, para dilatar a nova abertura recém criada, até que seja obtido um tamanho suficiente amplo para permitir a passagem do endoscópio do nariz para a nasofaringe.

O vômer hipertrofiado posteriormente é então removido, o que é um passo chave no procedimento como um todo. Nós geralmente usamos por via endoscópica o fórceps tipo *back-biting* para atingir este ponto, embora ocasionalmente um microdebridador seja necessário para completar esta porção operatória. A parede esfenopalatina póstero-lateral é então removida, usando o microdebridador.

Se *stents* forem usados, eles serão inseridos neste passo cirúrgico. Todos os *stents* usados em nossos pacientes foram feitos com um tubo endotraqueal 3,5 sem o *cuff*. Para isto o tubo é modificado, curvando-o, na metade do seu comprimento e cortando-se a metade através do seu diâmetro, o que permite o tubo manter-se curvado. O tubo modificado é então colocado circunferencialmente ao redor da coana posterior reparada com a porção cortada, virada para trás. Um pedaço do tubo irá ser exteriorizado discretamente de ambas as narinas. Os *stents* são presos por uma sutura de Prolene “0” através das duas extremidades do *stent*, passando ao redor da coana posterior, sendo preso anteriormente. Para prevenir a necrose da columela, o *stent* é desenhado de tal forma que sua parte anterior descansa atrás da cartilagem alar, intranasal. Para prevenir a formação de sinéquia, os pais/cuidadores são instruídos a movimentar o *stent* para frente e para trás, ao menos uma vez por dia, e para irrigar e aspirar o tubo  $\geq 3$  vezes ao dia. Removemos os *stents* na sala de cirurgia. A maioria dos *stents* são removidos entre 14-21 dias, embora o tempo seja muito dependente da impressão do que o cirurgião encontrou no reparo cirúrgico inicial. Quando a mitomicina C for usada, ela é comumente aplicada, ao mesmo tempo da remoção do *stent*.

### Resultados

Nos últimos 15 anos, 31 crianças passaram por correção endoscópica para AC congênita, por quatro médicos otorrinopediatras da nossa instituição. A idade das crianças, na cirurgia, foi entre 3 dias e 15 anos de idade. Dos 31 pacientes que foram acompanhados no pós-operatório, por pelo menos 1 ano, 19 (61%) apresentaram AC unilateral e o lado direito foi acometidos em 12 (63%) (**Tabela 1**). Em 8 (29%) das 31 crianças, a AC foi parte de uma síndrome, mais comumente a associação CHARGE. A idade de 12 crianças (39%) com AC bilateral variou de 3 dias até 11 meses (média de 102 dias), na data da cirurgia inicial; uma criança com AC bilateral membranosa parcial tinha 15 anos de idade, quando foi realizada a primeira cirurgia.

A AC foi óssea (3) ou membranosa (3), em uma minoria de casos, e mista na maioria dos nossos pacientes (25/31 = 81%). Muitos autores, atualmente, só mencionam a consistência da AC como sendo óssea ou mista. Usando essas categorias, 9,7% das nossas 31 crianças tinham atresia óssea e 90,3% tinham atresia mista. O seguimento no pós-operatório variou entre 1-14 anos, com uma média de 6,25 anos (**Tabela 1**).

### **Índices gerais de revisão cirúrgica**

Em geral a revisão cirúrgica foi necessária em 20,9% (9/43) após a cirurgia endoscópica inicial. A média de tempo entre a cirurgia inicial e a revisão foi de 1,28 anos, variando de 35 dias até mais de 9 anos. Dentre aquelas crianças somente com atresia puramente óssea, 33% necessitaram revisão vs. 20% daquelas com atresia mista/membranosa atresia ( $p=0,51$ ). Nas crianças síndrômicas, quatro (40%) das 10 coanas necessitaram de revisão cirúrgica, comparado com cinco (15%) das 33 crianças com AC sem síndrome associada, ou seja, AC isolada ( $p=0,17$ ). A revisão cirúrgica foi necessária em oito (42,1%) dos pacientes com doença unilateral, comparados com 2 (16,6%) dos pacientes com AC bilateral. No último seguimento, nenhum dos pacientes apresentou estenose completa. Houve dois pacientes que tiveram descoberto, no consultório, durante a nasofibrosopia, um estreitamento parcial. Ambos os pacientes eram assintomáticos e não necessitaram de tratamento posterior.

### **Mitomomicina C**

A mitomomicina C foi aplicada como um tratamento coadjuvante à cirurgia, em aproximadamente metade das coanas atrésicas tratadas endoscopicamente (22 de 43 [49%]) de lados operados em 31 pacientes (**Figura 1**). Nós não detectamos uma diferença significativa nos índices de revisão cirúrgica naquelas crianças tratadas (32%) vs. as não tratadas com a mitomomicina C (10%,) ou ( $p=0,13$ ).

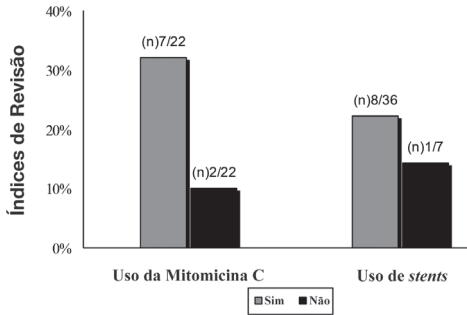
**Tabela 1.** Características da atresia de coana em 31 crianças seguidas por  $\geq 1$  ano após o reparo cirúrgico\*

<b>Características</b>	<b>Todos pacientes (%)</b>
<b>Atresia unilateral</b>	19/31 (61%)
Somente do lado direito	12/19 (63%)
Somente do lado esquerdo	7/19 (37%)
Idade do diagnóstico, média (variação)	33 m (nascimento-10 anos)
Idade da cirurgia, média (variação)	35 m (3 semanas – 10 anos)
<b>Atresia bilateral</b>	12/31 (39%)
Idade ao diagnóstico, média (variação)**	0,18 m (nascimento – 2 meses)
Idade na cirurgia, média (variação)**	2,8 m (3 dias – 1 ano)
<b>Tipo de atresia</b>	
Óssea	3/31 (9,7%)
Mixta (incluindo a membranosa)	28/31 (90,3%)
<b>Associada com síndrome</b>	8/31 (29%)
<b>Mitomomicina C</b> usada ao final da endoscopia reparadora, pelos autores deste capítulo	22/43 lados de atresia de 31 pacientes
Stent usado ao início do reparo endoscópico, pelos autores deste capítulo	36/43 lados de atresia de 31 pacientes

\*Média follow-up 6,25 anos de idade (variação de 1 até 14,9 anos de idade)

\*\*Excluído o caso de 15 anos de idade com atresia parcial bilateral

**Figura 1.** Percentagem de 43 casos (31 crianças) com atresia de coana que foram para revisão cirúrgica, após o reparo endoscópico inicial. O uso da mitomicina C (22 de 43 lados operados;  $p=0,13$ ) e *stents* intranasais (36 de 43 lados operados;  $p=1,0$ ) não houve alteração significantes dos índices de revisão.



### Stents

Em 36 (84%) das 43 coanas operadas, foram usados *stents* intranasais no pós-operatório (**Figura 1**). Os índices de revisão não se alteraram de maneira significativa pelo uso dos *stents* ( $p=1,0$ ). Também, os índices de revisão não diferiram de maneira significativa, se o tempo entre a colocação e remoção do *stent* foi entre 1-14 dias, ou 15-28 dias, ou >28 dias ( $p=0,19$ ).

### Dilatação

A dilatação foi necessária em 25 (58%) dos 43 lados operados. Dos 25 lados tratados com a dilatação, quatro (16%) eventualmente necessitaram

de revisão cirúrgica. A revisão cirúrgica foi necessária em 28% dos 18 lados/pacientes não tratados com a dilatação ( $p=0,45$ ).

### Idade na época da cirurgia

A média de idade dos pacientes que se apresentaram com AC unilateral foi de 33 meses, com variação desde o nascimento até 10 anos de idade (**Tabela 1**). O reparo cirúrgico inicial foi feito com uma idade que variou de 3 semanas até 10 anos. A necessidade para revisão não foi significativamente relacionada com a idade da primeira cirurgia na AC unilateral (< 6 meses vs. 6-24 meses vs. >24 meses;  $p=0,33$ ).

### Discussão

A cirurgia de revisão foi necessária em 20,9% de 31 crianças (43 lados operados) reparadas endoscopicamente. A média do período de seguimento destes pacientes foi de 6,25 anos. Os índices de revisão não foram alterados de maneira significativa com o uso da Mitomicina C, com o uso de *stent*, ou se a criança era <6 meses, ou entre 6 e 24 meses, ou > 24 meses, na época do primeiro reparo cirúrgico.

Embora as diferenças entre os grupos não fossem estatisticamente significantes, encontramos que as tendências encontradas no nosso estudo se equivalem às da literatura.

### Tipo de atresia

Percebemos uma tendência na qual aquelas crianças com atresia óssea necessitaram maior número de revisão cirúrgica que aquelas com atresia mista/membranosa (33% vs. 20%). Outros autores relatam que a abordagem da atresia óssea é mais desafiadora que a atresia com componente membranoso<sup>(3, 7)</sup>, possivelmente devido à “neo-osteogênese” como descrito por Ayari *et al*<sup>9</sup>.

Aquelas crianças com atresia associada a síndromes necessitaram mais de revisão cirúrgica do que aquelas com a doença isolada (40% vs. 15%,  $p=0,17$ ). Este achado foi semelhante ao de outros estudos<sup>5,10-12</sup> que também encontraram índices aumentados de reestenose em pacientes com AC sindrômicos, embora dois estudos mais recentes na literatura não encontrassem diferenças significantes entre os dois grupos<sup>3, 7</sup>.

### **Stents**

Os *stents* foram colocados ao término da cirurgia na maioria (em 36 ou 84%) das 43 coanas operadas endoscopicamente. A colocação do *stent* tem como propósito prevenir o estreitamento do lúmen recém formado, enquanto cicatriza. Entretanto, os opositores ao *stent* se preocupam com a possibilidade do mesmo incomodar a mucosa nasal, resultando em tecido de granulação, formação de escara, fonte de crescimento bacteriano, drenagem alterada do muco – todos elementos que trabalhariam contra o objetivo de restabelecer a patência da abertura<sup>4, 10, 13</sup>. Muitas publicações recentes e a revisão Cochrane relatam não haver diferença no índice de patência para pacientes que receberam o *stent* ou não receberam o mesmo no pós-operatório.<sup>4, 6, 10, 14, 21-23</sup> Nossos achados vão de encontro com os destes autores. Embora estudos retrospectivos continuem surgindo, mostrando não haver diferenças nos índices de revisão cirúrgica em pacientes que receberam o *stent*, são necessários mais estudos prospectivos para chegarmos a uma conclusão definitiva.

Embora não tenha havido diferenças nos índices de revisão quando os *stents* foram ou não usados, isto pode ter ocorrido devido a um viés na seleção dos pacientes que deveriam receber o mesmo, uma vez que a decisão ou não de colocar o *stent* no paciente teve, muitas vezes, como base, a gravidade da doença. Em decorrência disto, nós acreditamos que a decisão de por ou não o *stent* deverá ser deixada para julgamento do cirurgião durante o ato cirúrgico, antes de recomendar a colocação universal do *stent* em todos os pacientes ou até mesmo a não colocação.

Alguns autores relatam que um período curto de *stent* (5-7 dias) minimiza os efeitos negativos do *stent*, enquanto o mesmo promove a patência.<sup>7, 15</sup> Outros autores já sugerem um período mais prolongado para o *stent* (pelo menos 12 semanas).<sup>5</sup> No nosso estudo encontramos uma tendência para um índice de revisão baixo quando os *stents* foram deixados no local por 15-28 dias (7% índice de revisão) vs. 1-14 dias (38% índice de revisão), embora a diferença não fosse estatisticamente significativa ( $p=0,19$ ).

### **Mitomicina C**

Acredita-se que a mitomicina C atue prevenindo novamente o crescimento e prolongando a patência da AC. Alguns autores ainda promovem seu uso na reestenose,<sup>6, 16</sup> enquanto outros acham que não altera os resultados.<sup>3, 17</sup> Nós percebemos uma grande proporção de casos revisados tratados com este agente (7 dos 22 lados tratados vs. 2 de 21 lados não tratados - **Figura 1**), embora a diferença não seja estatisticamente significativa. A mitomicina C foi muitas vezes usada nos casos mais difíceis, podendo ser responsável pelo número aumentado de casos de pacientes com reestenose, tratados com este agente.

### **Idade para a cirurgia**

Existe alguma discordância com relação à idade ideal para realizar o reparo da AC unilateral.<sup>6, 18, 19</sup> O índice de revisão na nossa série de casos foi menor nos pacientes operados entre as idades de 6 e 24 meses comparado com < 6 meses ou > 24 meses, embora estas diferenças não fossem significantes. Alguns autores atrasam de rotina, a cirurgia dos pacientes com AC unilateral, os que não

apresentam problemas alimentares ou respiratórios e fazem a cirurgia próximo dos 12 meses de idade.<sup>8,20</sup> A racionalidade para este atraso é que a abertura criada cirurgicamente não aumenta, enquanto que os tecidos ao redor continuam crescendo, e a abertura torna-se relativamente estreita a medida que a criança desenvolve-se.

Nossos índices de revisão cirúrgica de 20,9% estão de acordo com a média encontrada na literatura: variação entre 12% e 54,7%.<sup>4,6,8,22</sup> Nós acreditamos que 3 fatores contam muito para esta diferença entre os nossos índices para revisão e o índices menores relatados por alguns autores. Primeiro, nossa definição de revisão de cirurgia foi para remoção do *stent* (com tecido de granulação associado) ou dilatação isoladamente, que é uma definição mais ampla que a utilizada para outros estudos. Segundo, nossos períodos de acompanhamento chegaram até 14,9 anos – levando a inclusão de muitas crianças que necessitaram de cirurgia de revisão, anos após o reparo inicial. Terceiro e último fator é que nosso grupo, quem sabe mais que os outros autores, recomenda a revisão cirúrgica na tentativa de aliviar a sintomatologia e ter a coana com a abertura normalizada, como demonstrado pelo fato que, quase todos os nossos pacientes estavam completamente livres da doença, na última visita documentada.

### Conclusões

**O reparo endoscópico transnasal é eficaz para ambas as atresias de coana seja a unilateral como a bilateral. A necessidade de revisão cirúrgica na AC unilateral pode diminuir se a criança tiver > 6 meses de idade na primeira intervenção. Nosso grupo não detectou diferenças nos índices de revisões com ou sem o uso da mitomicina C ou *stents*, embora estes tratamentos coadjuvantes tenham sido empregados nos casos mais graves de atresia.**

### Referências bibliográficas

1. Wiatrak BJ. Unilateral choanal atresia: initial presentation and endoscopic repair. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1998 Nov 15;46(1-2):27-35.
2. Menasse-Palmer L, Marion RW. Choanal atresia. *Pediatr Rev* 1995;16(12):475-6.
3. Teissier N, Couloigner V, Francois M, Van Den Abbeele T. Predictive factors for success after transnasal endoscopic treatment of choanal atresia. *Arch Otolaryngol* 2008;134(1):57-61.
4. Van Den Abbeele T, Narcy P. Transnasal endoscopic treatment of choanal atresia without prolonged stenting. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;128:936-40.
5. Friedman NR, Bailey CM, Albert DM, Leighton SE. Management and outcome of choanal atresia correction. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2000;52:45-51.
6. Gosepath J, Lippert BM, Mann WJ. Forty-one cases of congenital choanal atresia over 26 years - retrospective analysis of outcome and technique. *Rhinology* 2007;45(2):158-63.
7. Romeh HE. A 13-year experience and predictors for success in transnasal endoscopic repair of congenital choanal obliteration. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2010;74:737-42.
8. Hengerer AS, Jeyakumar A. Choanal atresia: embryologic analysis and evolution of treatment, a 30-year experience. *Laryngoscope* 2008;118(5):862-6.
9. Ayari S, Bossard P, Froelich P. CT-assisted surgery in choanal atresia. *Acta Otolaryngol* 2004;124:502-4.
10. Elloy MD, Cochran LA, Albert DM. Refractory choanal atresia: What makes a child susceptible? The great Ormond Street Hospital experience. *J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2008 Dec;37(6):813-20.

11. Coniglio JU, Manzione JV, Hengerer AS. Anatomic findings and management of choanal atresia and the CHARGE association. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1988 Sep-Oct;97(5 Pt 1):448-53.
12. Cedin AC, Cruz OL. Endoscopic transeptal surgery for choanal atresia with a stentless folded-over-flap technique. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;135:693-8.
13. Schoem SR. Transnasal endoscopic repair of choanal atresia: why stent? *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004;131:362-6.
14. Durmaz A, Yildirim N, Sahan M, Kivrakdal C, Gerek M. Transnasal endoscopic repair of choanal atresia: Results of 13 cases and meta-analysis. *J Craniofac Surg* 2008(Sept):1270-4.
15. Pasquini E, Saggese D, Cantaroni C, Maci G, Farneti G. Endoscopic treatment of congenital choanal atresia. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67:27-9.
16. Bozkurt MK, Azimov A, Ozturk K, Arbag H. The use of adjunctive topical mitomycin in endoscopic congenital choanal atresia repair. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2010:733-6.
17. Kubba H, Bailey CM. An update on choanal atresia surgery at Great Ormond Street Hospital for Children: preliminary results with mitomycin C and the KTP laser. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2004;68:939-45.
18. Carpenter R. Correction of congenital choanal atresia in children and adults. *Laryngoscope* 1997;87:1304-11.
19. Liktov B, Gerlinger I. A new endoscopic surgical method for unilateral choanal atresia. *Laryngoscope* 2001;111:364-6.
20. Hengerer AS, Oas RE. *Congenital Anomalies of the Nose: Their Embryology, Diagnosis and Management*. 2nd ed. Alexandria, VA: American Academy of Otolaryngology; 1987
21. Saafan, ME. Endoscopic management of congenital bilateral posterior choanal atresia: value of using stents. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2012 Mar 23. [Epub ahead of print]
22. Uzomefuna V, Glynn F, Al-Omari B, et al. Transnasal endoscopic repair of choanal atresia in a tertiary care centre: a review of outcomes. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2012 May; 76(5):613-7. Epub 2012 Mar 12.
23. Cedin AC, Atallah AN, Andriolo RB, et al. Surgery for congenital choanal atresia. *Cochrane Database Syst Rev*. 2012 Feb 15;2:CD008993.