

# *Abordagem Clínica e Cirúrgica da Criança que Baba*

Dennis J. Kitsko

## **Farmacoterapia sistêmica**

Historicamente, os medicamentos anticolinérgicos têm sido a farmacoterapia mais comumente usada para controlar a sialorreia ou baba. Como mencionado anteriormente, o sistema nervoso parassimpático e seu neurotransmissor primário, a acetilcolina, são responsáveis pelas secreções de volume mais elevado no paciente que baba (com sialorreia). Estes medicamentos, que incluem glicopirrolato, escopolamina, atropina e cloridrato de benzexol, atuam para bloquear os receptores colinérgicos, diminuindo assim o fluxo salivar. Os efeitos colaterais sistêmicos são muito comuns, no entanto, seus efeitos não são direcionados especificamente a um local em particular. Estes incluem retenção urinária, taquicardia, cefaleia, visão turva, constipação e excitação. A medida da eficácia pode ser difícil e muitas vezes subjetiva. O glicopirrolato mostrou-se muitas vezes eficaz em diminuir significativamente a baba, mas a taxa de efeitos adversos varia de 40-70% com 20-30% dos indivíduos comprovadamente com efeitos adversos secundários <sup>1,2</sup>. A escopolamina transdérmica também demonstrou ser eficaz e tem a vantagem de só precisar ser aplicada a cada 3 dias <sup>3</sup>, no entanto, por ser outro efeito anticolinérgico sistêmico, os efeitos colaterais em longo prazo ainda são significativos <sup>4</sup>. A terapia antirrefluxo também tem sido usada na sialorreia, porém estudos randomizados e controlados com a ranitidina não mostraram diferenças, quando comparados com placebo <sup>5</sup>. Mais recente, o modafinil, um psicoestimulante usado para tratar a espasticidade em pacientes com paralisia cerebral mostrou ter efeito benéfico na sialorreia, de maneira incidental, em dois pacientes <sup>6</sup>. Estes dois casos são os únicos relatos, sendo necessários mais estudos antes de uma conclusão definitiva.

## **Toxina botulínica**

A toxina botulínica é uma neurotoxina colhida da bactéria *Clostridium botulinum* e age inibindo a liberação pré-sináptica do neurotransmissor parassimpático acetilcolina na fenda sináptica. É através deste mecanismo que a toxina botulínica funciona como um agente com potencial para o tratamento. Os primeiros usos publicados de toxina botulínica purificada injetável foram para estrabismo e bléfaroespasmos <sup>7,8</sup>. Outras utilizações publicadas incluem agora distonia cervical, disfonia espasmódica e espasmo hemifacial. Devido à alta taxa de efeitos adversos com medicamentos anticolinérgicos sistêmicos, o uso da toxina botulínica na sialorreia foi introduzido na literatura por Bushara em 1997 em pacientes adultos com esclerose lateral amiotrófica <sup>9</sup>. Foi publicado para uso em crianças com paralisia cerebral em 2001 <sup>10</sup>, e desde então tem crescido muito em popularidade. Foram publicados mais de 40 artigos em crianças apenas até a época desta publicação.

Vários estudos têm mostrado uma redução da sialorreia em crianças com paralisia cerebral com injeção nas glândulas parótidas, nas glândulas submandibulares ou em ambas<sup>11-13</sup>. Parece que o pico do efeito ocorre entre 2 – 6 semanas após a injeção e então começa a diminuir, embora a duração do benefício pareça ser variável em cada criança em particular<sup>4</sup>. Houve muito pouca concordância ou padronização quanto à dosagem em cada glândula salivar, com diferentes estudos usando entre 10 – 30 U em cada glândula submandibular e 15 – 40 U em cada glândula parótida.<sup>4,12,13</sup> As injeções geralmente são realizadas em dois locais por glândula. Os efeitos colaterais relatados na literatura incluem a dificuldade de deglutição temporária, dor de garganta, diarreia e alteração da marcha<sup>4</sup>. Apesar da paralisia sistêmica e até mesmo de morte ter sido relatada em injeções cosméticas da toxina botulínica, não foram relatados casos semelhantes no paciente que baba. A redução dos efeitos adversos é considerada possível por meio do uso do ultrassom (US) para guiar a agulha para a injeção em cada glândula.<sup>11,14</sup> Em um ensaio controlado que comparou a toxina botulínica com um agente anticolinérgico oral, houve uma redução semelhante na sialorreia (49 – 53%), mas quase ¾ dos pacientes do grupo anticolinérgico desenvolveram efeitos colaterais sistêmicos, em comparação com apenas 5% com efeitos colaterais locais temporários no grupo que recebeu a toxina botulínica<sup>4</sup>. Além disso, pode haver atrofia das glândulas salivares com injeções repetidas que teoricamente podem levar a intervalos de injeção muito maiores. Isso precisará ser comprovado com mais estudos controlados, em longo prazo.

Deve ser ressaltado que a toxina botulínica não é aprovada pela FDA para uso injetável na sialorreia. É altamente recomendável obter um consentimento por escrito. Além dos efeitos colaterais, há certas desvantagens ao uso da toxina botulínica injetável na sialorreia. Em crianças, geralmente é necessária a anestesia geral. As crianças que respondem bem irão necessitar injeções repetidas, fato que pode ocorrer com uma frequência de três a quatro meses. Além disso, pode haver resistência e subsequente diminuição da eficácia com injeções repetidas, embora a extensão na qual isto ocorre permanece desconhecida. Em resumo, a toxina botulínica injetável não é uma panaceia para a criança que baba, mas certamente oferece vantagens significativas, particularmente quando comparada com outras escolhas farmacológicas.

### **Tratamento cirúrgico**

A intervenção cirúrgica não é recomendada até que uma criança tenha apresentado falha na terapia motora oral intensiva por pelo menos 6 meses. Se for observada a melhora contínua com a terapia motora oral, deverá ser considerado evitar a cirurgia, uma vez que esta é uma indicação em um paciente sem a maturação terminal da função oromotora. A conduta cirúrgica é geralmente adiada até pelo menos com 5 – 6 anos de idade, por este motivo. Em casos de pneumonite recorrente por aspiração crônica, no entanto, a cirurgia será considerada em idades mais precoces. A maioria dos candidatos a cirurgia deverá apresentar sialorreia profusa e comprometimento neurológico até um grau que impeça a adesão à terapia não cirúrgica. A falha farmacológica não é um pré-requisito, mas muitos pacientes chegam a um otorrinolaringologista, pois a sialorreia não respondeu à terapêutica anticolinérgica oral no passado, mais comumente com efeitos colaterais secundários.

Ao classificar as cirurgias destinadas a controlar a sialorreia, há duas grandes categorias: aquelas que diminuem a quantidade total de saliva produzida (neurectomia timpânica, excisão da glândula submandibular, ligadura do ducto submandibular e parotídeo) e aquelas que redirecionam o fluxo salivar mais posteriormente, de modo que a saliva é mais rapidamente deglutida (deslocamento do ducto submandibular, deslocamento do ducto parotídeo). Há controvérsias quanto ao tipo de procedimento que é superior. Aqueles que favorecem o deslocamento argumentam que o problema não é a superprodução de saliva, mas a dificuldade com a transferência da saliva da boca para a orofaringe. Direcionar o fluxo posteriormente mantém a produção normal de saliva, reduzindo as complicações como a xerostomia e a cárie dentária<sup>15</sup>. Os cirurgiões que favorecem os procedimentos de diminuição do fluxo argumentam que o deslocamento posterior aumenta o risco de problemas nas vias aéreas inferiores em crianças que já podem mostrar tendência à aspiração secundária, pelo comprometimento neurológico. Eles também argumentam que na maioria dos casos um fluxo salivar adequado para prevenir a xerostomia e a cárie dentária é mantido por glândulas salivares menores<sup>16</sup>.

### **Neurectomia Timpânica**

As fibras parassimpáticas pós-ganglionares das glândulas sublingual, submandibular e parótida passam através da orelha média. Através de um retalho timpanomeatal transcanal, o plexo timpânico e o nervo de Jacobson (glândula parótida) e o nervo corda do tímpano (glândulas submandibular e sublingual) são divididos bilateralmente<sup>17</sup>. Embora este seja um procedimento relativamente simples, a cirurgia otológica bilateral pode levar ao risco de perda auditiva sensorineural permanente. A alteração da gustação também está associada à manipulação do nervo corda do tímpano. Mais importante, no entanto, é que dentro de 6 meses na maioria dos pacientes, a sialorreia volta aos níveis pré-operatórios. Este procedimento foi amplamente abandonado no tratamento da sialorreia, por este motivo.

### **Excisão da Glândula Submandibular e da Ligadura do Ducto Submandibular/Parotídeo**

A excisão externa da glândula submandibular bilateral, com ou sem ligadura do ducto parotídeo é o procedimento de redução de fluxo mais comum para a sialorreia. Uma revisão de cerca de cem crianças mostrou melhora significativa em 65% dos pacientes com um acompanhamento médio de mais de 4 anos<sup>16</sup>. A taxa de complicações foi de 13%, a maioria relacionada à xerostomia e à cárie dentária. Outras complicações potenciais incluem lesões marginais do nervo mandibular, hipoglossos e lingual, bem como hematoma. O procedimento também requer uma estadia no hospital e deixa cicatrizes externas do pescoço. Alguns autores argumentam que a ligadura do ducto parotídeo é desnecessária na maioria dos casos, pois a saliva basal é produzida principalmente pela glândula submandibular: a *Drooling Control Clinic*, em Toronto, relatou que apenas 5% dos pacientes necessitaram de ligadura do ducto parotídeo devido à salivagem persistente, após o deslocamento do ducto submandibular<sup>18</sup>.

Mais recentemente, foi descrita a ligadura do ducto submandibular, em vez da excisão da glândula<sup>19</sup>. Esta técnica elimina muitas das complicações e a morbidade da excisão aberta das glândulas submandibulares, além de diminuir o

tempo operatório. Acredita-se que a atrofia funcional da glândula seja a base fisiológica para o sucesso deste procedimento. Em uma revisão de cinco pacientes, houve melhora substancial com um seguimento médio de 13 meses, sendo descrito apenas edema temporário no pescoço, no pós-operatório<sup>19</sup>. Não foram observados casos de xerostomia. A formação de rânula, embora não seja descrita neste estudo, é um risco a ser ponderado e, portanto, mais dados em longo prazo serão necessários para equacionar este problema.

Foi recentemente publicada a excisão da glândula submandibular por via intraoral como uma alternativa à excisão aberta<sup>20</sup>. Uma revisão com 77 pacientes, principalmente adultos com sialadenite, submetidos a esta técnica, mostrou bons resultados em longo prazo, sem cicatriz externa do pescoço ou risco de lesão marginal do nervo mandibular. Houve uma incidência alta de diminuição da mobilidade da língua (70%) e parestesia do nervo lingual (74%), porém essas complicações foram temporárias em todos os casos, e se resolveram após seis semanas, sem intervenção. Uma desvantagem desta técnica é a dissecação cirúrgica mais difícil, quando comparada com uma abordagem externa.

#### **Deslocamento do Ducto Parotídeo**

A intervenção parotídea é controversa no paciente que baba. Como mencionado anteriormente, alguns autores argumentam que a intervenção é desnecessária, na maioria dos casos. O que é bastante claro, no entanto, é que a cirurgia do ducto da glândula parótida nunca deverá ser realizada sem uma prévia ou concomitante cirurgia do ducto da glândula submandibular. O deslocamento da artéria parotídea em conjunto com a amigdalectomia (tonsilectomia) e a excisão da glândula submandibular foi descrito anteriormente, ao final da década de 1970.<sup>21</sup> Embora o controle da sialorreia fosse adequado, foi relatada uma taxa de complicação de 35%, que incluiu escara cirúrgica, estenose do ducto e infecções, incluindo parotidite séptica. Este procedimento foi amplamente abandonado, particularmente devido à menor morbidade e diminuição do tempo operatório para a ligadura do ducto.

#### **Deslocamento do Ducto Submandibular / Excisão da Glândula Sublingual**

O deslocamento do ducto submandibular foi descrito pela primeira vez em 1969 e tem sido o “cavalo de batalha” nos procedimentos de desvio de saliva nos últimos 30 anos. Este procedimento envolve a criação de uma ilha mucosa com uma incisão oval ao redor de ambas as papilas ductais. Os ductos são então identificados e dissecados de volta para o nível da glândula submandibular. As ilhas mucosas são então separadas e cada ducto com sua própria papila é trazido pela submucosa mais posteriormente, sendo suturados no lugar na fossa tonsilar ipsilateral. Isto é, muitas vezes, realizado em conjunto com a tonsilectomia, particularmente em casos de hipertrofia tonsilar ou naqueles casos com detritos profundos nas criptas tonsilares. Em dois grandes centros que cuidam de sialorreia, esse procedimento foi relatado como tendo excelentes resultados e pouca morbidade, porém a rânula e a formação de cisto lateral no pescoço que necessitaram de excisão de glândula sublingual ocorreram em 8 – 13% dos casos<sup>22,23</sup>. Como esforço para eliminar a formação de rânula, a excisão da glândula sublingual foi adicionada ao deslocamento ductal no final da década de 1980.<sup>22</sup>

Os dados em longo prazo mostraram controle da sialorreia em 2/3 dos pacientes com cinco anos de seguimento, sem a presença de rânulas no pós-operatório<sup>15</sup>. Foi relatada uma taxa de complicação de cerca de 10%, incluindo obstrução das vias aéreas secundária a edema da língua, lesão do nervo lingual, abscesso e pneumonia por aspiração.

### Conclusão

O manejo da criança com sialorreia é um desafio, com uma abordagem individualizada que deverá ser tomada com cada paciente e família. Não há nenhum tratamento “tamanho único”. É crítico que uma abordagem multidisciplinar seja instituída para excluir causas facilmente reversíveis da sialorreia. A determinação das complicações clínicas da sialorreia, particularmente as pneumonias por aspiração e a doença pulmonar crônica, são importantes na avaliação da agressividade da intervenção potencial. Na ausência de complicações, a angústia dos pais e as expectativas de tratamento precisam ser avaliadas ao determinar se a intervenção é prudente. Após o controle dos fatores situacionais, a terapia motora oral permanece como o procedimento de primeira linha. A farmacoterapia sistêmica tem produzido bons resultados em curto prazo, com eficácia em longo prazo limitada por efeitos colaterais e taquifilaxia. A toxina botulínica injetável produziu resultados promissores em curto prazo com um baixo perfil de efeitos secundários, mas os efeitos são temporários e requerem injeções repetidas. Alguns dados sugerem que a atrofia glandular ocorre com múltiplas injeções, porém mais dados em longo prazo serão necessários para confirmar esta hipótese. A cirurgia é a opção final de tratamento, sendo geralmente adiada até que as opções acima tenham falhado. Existem dois tipos gerais de procedimentos: os que redirecionam o fluxo salivar normal e os que diminuem o fluxo salivar. Cada um destes tipos tem vantagens e desvantagens, e não há dados adequados para suportar as vantagens de um procedimento sobre outro.

### Referências bibliográficas

1. Bachrach SJ, Walter RS, Trzcinski K. Use of glycopyrrolate and other anticholinergic medications for sialorrhea in children with cerebral palsy. *Clin Pediatr (Phila)* 1998;37:485.
2. Mier RJ, Bachrach SJ, Lakin RC, *et al.* Treatment of sialorrhea with glycopyrrolate: a double-blind, dose-ranging study. *Arch Pediatr Adolesc Med* 2000;154:1214.
3. Lewis DW, Fontana C, Mehallick LK, *et al.* Transdermal scopolamine for reduction of drooling in developmentally delayed children. *Dev Med Child Neurol* 1994;36:484.
4. Jongerius PH, van den Hoogen FJ, van Limbeek J, *et al.* Effect of botulinum toxin in the treatment of drooling: a controlled clinical trial. *Pediatrics* 2004;114:620.
5. Heine RG, Catto-Smith AG, Reddihough DS. Effect of antireflux medication on salivary drooling in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1996;38:1030.
6. Hurst D, Cedrone N. Modafinil for drooling in cerebral palsy. *J Child Neurol* 2006;21:112.
7. Scott AB. Botulinum toxin injection into extraocular muscles as an alternative to strabismus surgery. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus* 1980;17:21.
8. Frueh BR, Felt DP, Wojno TH, *et al.* Treatment of blepharospasm with botulinum toxin: a preliminary report. *Arch Ophthalmol* 1984;102:1464.

9. Bushara KO. Sialorrhea in amyotrophic lateral sclerosis: a hypothesis of new treatment – botulinum toxin A injections of the parotid glands. *Med Hypothesis* 1997;48:337.
10. Jongerius PH, Rotteveel JJ, van den Hoogen F, *et al.* Botulinum toxin A: a new option for treatment of drooling in children with cerebral palsy. Presentation of a case series. *Eur J Pediatr* 2001;160:509.
11. Jongerius PH, Joosten F, Hoogen FJ, *et al.* The treatment of drooling by ultrasound-guided intraglandular injections of botulinum toxin type A into the salivary glands. *Laryngoscope* 2003;113:107.
12. Savarese R, Diamond M, Elovic E, *et al.* Intraparotid injection of botulinum toxin A as a treatment to control sialorrhea in children with cerebral palsy. *Am J Phys Med Rehabil* 2004;83:304.
13. Suskind DL, Tilton A. Clinical study of botulinum A toxin in the treatment of sialorrhea in children with cerebral palsy. *Laryngoscope* 2002;112:73.
14. Hassin-Baer S, Scheuer E, Buchman AS, *et al.* Botulinum toxin injections for children with excessive drooling. *J Child Neurol* 2005;20:120.
15. Greensmith AL, Johnstone BR, Reid SM, *et al.* Prospective analysis of the outcome of surgical management of drooling in the pediatric population. *Plast Reconstr Surg* 2005;116:1233.
16. Stern Y, Feinmesser R, Collins M, *et al.* Bilateral submandibular gland excision with parotid duct ligation for treatment of sialorrhea in children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;128:801.
17. Crysedale WS. The drooling patient: evaluation and current surgical options. *Laryngoscope* 1980;90:775.
18. Crysedale WS, McCann C, Roske L, *et al.* Saliva control issues in the neurologically challenged: a 30 year experience in team management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2006;70:519.
19. Klem C, Mair EA. Four duct ligation: a simple and effective treatment for chronic aspiration from sialorrhea. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1999;125:796.
20. Hong KH, Yang YS. Surgical results of the intraoral removal of the submandibular gland. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;139:530.
21. Wilkie TF, Brody GS. The surgical treatment of drooling: a ten year review. *Plast Reconstr Surg* 1977;59:791.
22. Crysedale WS, White A. Submandibular duct relocation for drooling: a 10 year experience with 194 patients. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1989;101:87.
23. Webb K, Reddihough DS, Johnson H. Long-term outcome of saliva-control surgery. *Dev Med Child Neurol* 1995;37:755.