

Atresia das coanas: a experiência de 13 anos do nosso Serviço

Artigo Original

Autores

Patrícia Fernandes Lopes

Hospital Central do Funchal, SESARAM, Madeira, Portugal

Daniela Serras

Hospital Central do Funchal, SESARAM, Madeira, Portugal

Tatiana Carvalho

Hospital Central do Funchal, SESARAM, Madeira, Portugal

Miguel Furtado

Hospital Central do Funchal, SESARAM, Madeira, Portugal

Carlos Martins

Hospital Central do Funchal, SESARAM, Madeira, Portugal

Correspondência:

Patrícia Fernandes Lopes
andreialopes10@gmail.com

Artigo recebido a 13 de Julho 2023.
Aceite para publicação a 29 de Janeiro de 2024.

Resumo

Objetivo: Descrever a experiência do Serviço de Otorrinolaringologia do Hospital Dr. Nélio Mendonça com Atrésia das Coanas (AC).

Desenho do estudo: Observacional retrospectivo.
Material/Métodos: Analisaram-se os dados clínicos de todos os doentes com AC de 2003-2020 do Hospital Central do Funchal.

Resultados: Dos onze doentes incluídos, 63,64% eram do sexo feminino e 36,36% eram do sexo masculino. As onze crianças estudadas foram divididas em dois grupos: AC unilateral (63,64%) e bilateral (36,36%). Nos dois grupos, o tipo misto foi o mais comum. Na AC unilateral, a correção endoscópica foi realizada em 85,71% dos casos (71,4% com stents) com idade média de 15 anos. Foi realizada uma média de 1,29 cirurgias. O grupo bilateral apresentou mais malformações congénitas (50%) e apresentou mais reintervenções. Todos foram submetidos a cirurgia endoscópica (idade média: 8 dias).

Conclusões: Malformações associadas, idade mais jovem na primeira cirurgia e maior número de cirurgias estiveram mais associadas à AC bilateral.
Palavras-chave: Atresia das coanas; Malformações congénitas; Cirurgia.

Introdução

A atrésia das coanas (AC) é uma malformação congénita rara, devida à persistência da membrana bucofaríngea, sendo que a sua incidência varia entre 1:5.000 e 1:8.000 nados-vivos.^{1,2} É mais frequentemente unilateral do que bilateral (60% vs 40%) e afeta mais o sexo feminino que o masculino (proporção 2:1).² Quando unilateral, afeta mais o lado direito e não é diagnosticada no período neonatal, podendo persistir mesmo até à idade adulta, muitas vezes sem diagnóstico.^{2,3} A necessidade da resolução cirúrgica deste tipo de atrésia depende em grande parte da gravidade dos sintomas como a rinorreia unilateral persistente, que resulta da impossibilidade da realização do percurso normal da clearance muco-ciliar nasal em direção à naso-faringe.³

Quando bilateral coloca em risco a vida do recém-nascido, que tem a respiração nasal como exclusiva e uma vez diagnosticada impõe uma atuação emergente por parte do cirurgião.^{3,4} O diagnóstico de AC pode ser confirmado clinicamente pela impossibilidade da passagem dum cateter de plástico 6F pelo nariz até à nasofaringe (uma distância de aproximadamente 32mm). A endoscopia nasal é importante na visualização direta e na distinção entre atresia e estenose. A estenose das coanas é definida como uma coana estreita, porém patente, medindo menos de 6 mm de diâmetro.⁵ As placas atrésicas podem ser abertas por várias técnicas, mas a melhor técnica ainda não está totalmente estabelecida na literatura, dependendo frequentemente da preferência do cirurgião.²⁻⁴ O objetivo deste trabalho é descrever a experiência do serviço de Otorrinolaringologia do Hospital Dr. Nélio Mendonça-com a AC.

Material e métodos

Através de um estudo retrospectivo observacional, analisaram-se os dados dos processos cínicos de todos os doentes diagnosticados com AC e seguidos entre 2003 e 2020 no Hospital Central do Funchal, com um período de seguimento mínimo de um ano. O Funchal é a capital da Ilha da Madeira, que tem uma população de cerca 250.700 habitantes.⁶

Resultados

Um grupo de onze doentes pediátricos com o diagnóstico de atresia das coanas e submetido a tratamento cirúrgico pelo mesmo cirurgião foi analisado. Dentro desta amostra, 64% eram do sexo feminino e 36% eram do sexo masculino. Para fins analíticos, a amostra foi dividida em dois grupos: atresia unilateral (64%; n=7) e atresia bilateral (36%; n=4). Em relação ao grupo da AC unilateral, 57,4% dos doentes apresentavam tipo misto ósteo-membranosa, que segundo a literatura é o tipo mais comum.² Enquanto 29% apresentavam atresia puramente membranosa, em 14% dos casos, a atresia era puramente óssea. Um doente apresentava malformação cardíaca associada (persistência do canal arterial). Todos os outros

não apresentavam malformações associadas. Na maioria dos casos (85,71%, n=6), a correção endoscópica transnasal foi realizada, mas num caso dum adulto de 26 anos com atresia de tipo misto, uma abordagem transpalatal foi preferida. A idade mediana do procedimento cirúrgico, neste grupo, foi de 15 anos (IQR 25 anos), variando de 1 mês a 42 anos. A mediana de procedimentos cirúrgicos necessários foi de 1,29 ($\sigma=0,49$) e os *stents* foram utilizados em 71,4% (n=5) dos doentes com atresia unilateral que ficaram de 6 a 8 semanas. Em 80% dos casos foram utilizadas sondas de *Nelaton*[®] como *stents* e em 20% casos (n=1) foi utilizada uma sonda de *Foley*[®] de silicone num doente de 42 anos. Neste grupo, a reintervenção cirúrgica sob anestesia geral no bloco operatório foi necessária apenas num doente para a remoção do *stent* de forma segura e confortável pela pouca colaboração do doente pediátrico.

Tabela 1
Idade (meses) dos doentes com AC unilateral no 1º procedimento cirúrgico

Caso	Idade (meses)
A	8
B	180
C	312
D	1
E	300
F	504
G	5

No grupo da atresia bilateral, três doentes (75%) apresentavam atresia do tipo misto e 1 (25%) doente apresentava tipo puramente ósseo. Foram observadas malformações associadas em 50% dos doentes (1 caso de comunicação interventricular e 1 caso de síndrome CHARGE). Todos os doentes foram submetidos a abordagem endoscópica transnasal e a idade média para o primeiro procedimento cirúrgico foi de 8 dias (IQR 4,5 anos), tendo o doente mais novo 3 dias e o mais velho 20 dias de idade. Relativamente às técnicas cirúrgicas, todos os doentes foram submetidos à abordagem endoscópica transnasal. A parte óssea da placa

Figura 1
Distribuição dos doentes com AC bilateral por presença ou ausência de comorbilidades

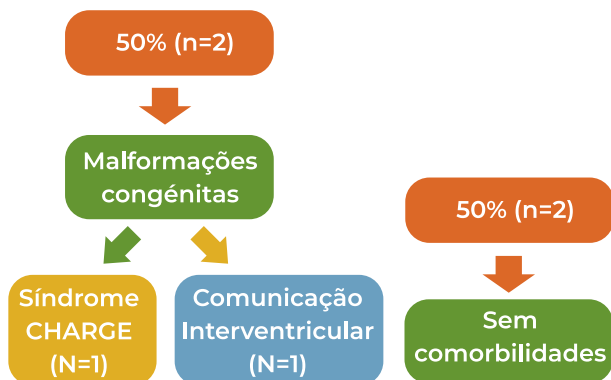


Tabela 2
Idade (dias) dos doentes com AC bilateral no 1º procedimento cirúrgico

Caso	Idade (dias)
H	20
I	6
J	6
K	3

atrésica foi removida com o uso de *micropunch* de Kerrison, exceto num doente em que foi utilizada broca diamantada e foi realizada excisão da parte posterior do vómer. Foram utilizados *stents* de *Nelaton*® em todos os doentes, que ficaram *in situ* por 6 a 8 semanas. Todos os doentes necessitaram reintervenção cirúrgica - o número médio de intervenções cirúrgicas necessárias em cada doente foi de 3 (2 a 5). Assim, O número de reintervenções cirúrgicas necessárias foi maior no grupo bilateral quando comparado ao grupo da atresia unilateral (1,29 vs 3, *p-value*=0,024). Este facto deveu-se à necessidade de revisão cirúrgica e troca do *stent* para um maior ou para remover o *stent* definitivamente. Além disso, num caso de revisão de atresia bilateral, foi realizada dilatação por balão das neocoanas, após a remoção dos *stents*. Nenhuma recidiva foi observada durante o seguimento.

Discussão

Uma grande limitação do nosso estudo é a pequena amostra que obtivemos (11 casos

clínicos), mas é necessário ter em conta que foi realizado numa pequena ilha com uma população de 250.000 habitantes.⁶ No entanto, os nossos resultados são sobreponíveis aos de outros estudos. Os nossos resultados são idênticos aos dos estudos alemão de Van Schaik *et al* e ao estudo multicêntrico canadiano de Paradis J *et al*, que tem a maior amostra estudada até agora (215 doentes).^{2,3} O sexo feminino foi também o mais afetado (63.6% vs 59.6%-65.6%) e a percentagem de AC unilateral do nosso estudo foi sobreponível ao estudo alemão (63,54% vs 58%).³ Comparativamente ao estudo canadiano, registou-se uma percentagem ligeiramente menor de AC mista (63,6% vs 73,22%) e por outro lado uma relativamente maior proporção de doentes com AC puramente membranosa (18% vs 10,5%). Em contraste, na nossa amostra, 91% dos doentes foram submetidos a cirurgia endoscópica transnasal, enquanto que no estudo multicêntrico do Canadá, essa percentagem diminuiu para 32%.² Até à data, não existe nenhum tratamento cirúrgico considerado como *gold standard*, havendo várias técnicas descritas possíveis.^{4,7} A cirurgia transnasal foi preferida à abordagem transpalatina devido ao menor risco de lesão iatrogénica que leva a fibrose pós-operatória e re-estenose.⁴ Outros fatores são os avanços na instrumentação endoscópica, ao menor risco de alterações dentárias e de crescimento facial relatados na literatura.⁸ A utilização de *stent* também teve distribuição semelhante entre o nosso estudo e a literatura supracitada (81% vs 70%).^{2,3} A utilização destes dispositivos é ainda controversa, visto que é conhecida por minimizar o risco de reestenose, mas pode também levar a infeção, alterações cicatriciais (especialmente septo, cartilagens alares e columela) e granulação com a possibilidade de re-estenose.⁴ Há assim maior risco nas crianças, principalmente nos recém-nascidos e nos casos de AC bilateral.⁴ No nosso estudo, apesar de ter havido uma maior proporção de uso de *stents* em relação ao estudo de Paradis *et al*, houve uma menor necessidade de reintervenções cirúrgicas (45% vs 49%).²

Apesar de já estar provado que os *stents* são adequados na AC bilateral, houve alguns estudos que mostraram que nos casos de AC unilateral os melhores resultados foram obtidos através da abordagem transnasal sem recuso a estes dispositivos pelo menor trauma e pela maior facilidade nos cuidados pós-operatórios.⁹⁻¹² No entanto, utilizou-se os mesmos em 71% dos casos de AC unilateral no nosso estudo com bons resultados. Não há um tipo específico de *stent* que seja o melhor e na verdade estes acabam por ser personalizados e medidos intraoperatoriamente.⁴ O material usado deve ser delicado e mantido *in situ* por um pequeno período de tempo.¹³ Os materiais conhecidos e utilizados frequentemente são:

- Policloreto de vinil (*Portex*®) - o tipo de *stent* mais comum, recomendado pelos cirurgiões devido aos seus bons resultados e baixa taxa de complicações.^{14,15} A maior desvantagem é a possibilidade de ceder à temperatura nasal interna e pode não permanecer patente sob a pressão ambiente, levando a re-estenose;¹⁶
- Tubo endotraqueal demonstrou diminuir risco de reestenose ao permitir a re-epitelização da nova choana;¹⁶
- Tubo traqueal de polietileno que não teve diferenças significativas entre atresia uni ou bilateral;¹⁷
- Materiais de silicone podem ser mantidos durante períodos mais curtos na atresia unilateral e mais longos na atresia óssea. No caso bilateral o *stent* pode ser mantido perfurado em forma de “U” na parte posterior nasal.¹⁸ Os cateteres de *Foley*® são um exemplo que podem ser usados com melhor tolerância e com maior facilidade na introdução, fixação e remoção. Além destas vantagens podem ter uma menor taxa de complicações como infecção ou necrose septal e/ou columelar. Usada confortavelmente nos casos unilaterais com menor taxa de reestenose e complicações;¹⁹
- Tubos de *Silastic*® podem ser mantidos 12 a 16 semanas no pós-operatório, no entanto mostraram ter uma taxa de 36% de re-estenose;²⁰
- *Stent* de *Teflon*® parece não afetar a *clearance* mucociliar;²¹
- Tubo de borracha de silicone reforçado

com metal na parede do *stent* (descrito num caso);²²

- Catéter de *Nelator*® descrito pela ampla disponibilidade e baixo custo.²³

Alguns autores acreditam que fazer esta cirurgia sem o uso de *stents* reduz o risco de complicações relacionadas com os mesmos, no entanto a sua utilização apropriada com a correta educação do doente e dos seus familiares sobre o tratamento e limpeza das secreções pode evitar o risco de complicações e re-estenose.⁴ Há autores que recomendam a exérese da parte posterior do vómer nos casos de atresia bilateral. Até El-Ahl MA *et al* e El-Anwar MW *et al* demonstraram que esta ressecção pode dispensar a utilização de *stents*.^{24,25} Neste estudo, uma maior prevalência de malformações associadas, uma idade mais jovem na primeira intervenção cirúrgica e um maior número de procedimentos cirúrgicos, sugerindo maiores taxas de reestenose, foram associados ao grupo bilateral. Estes dados seguem a tendência da literatura.²⁻⁴ Tal como no nosso estudo, um estudo alemão também verificou que o número de intervenções era maior no grupo bilateral.²

Conclusão

De forma geral, a AC foi diagnosticada com maior frequência no sexo feminino. Nesta série, uma maior prevalência de malformações associadas, idade mais jovem na primeira intervenção cirúrgica e maior número de procedimentos cirúrgicos, sugerindo maiores taxas de reestenose, foram associados ao grupo bilateral. Os *stents* foram utilizados com bons resultados, tendo sempre a atenção para a educação do doente e dos seus familiares sobre os cuidados a ter com estes dispositivos.

Conflito de Interesses

Os autores declaram que não têm qualquer conflito de interesse relativo a este artigo.

Confidencialidade dos dados

Os autores declaram que seguiram os protocolos do seu trabalho na publicação dos dados de doentes.

Proteção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estão de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos diretores da Comissão para Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Financiamento

Este trabalho não recebeu qualquer contribuição, financiamento ou bolsa de estudos.

Disponibilidade dos Dados científicos

Não existem conjuntos de dados disponíveis publicamente relacionados com este trabalho.

Referências bibliográficas

1. Assanasen P, Metheetratit C. Choanal atresia. *J Med Assoc Thai.* 2009 May;92(5):699-706.
2. Paradis J, Dzioba A, El-Hakim H, Hong P, Kozak FK, Nguyen LHP, et al. A national study of choanal atresia in tertiary care centers in Canada - part II: clinical management. *J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2021 Jul 13;50(1):46. doi: 10.1186/s40463-021-00503-3.
3. van Schaik CGR, Paasch S, Albrecht T, Becker S. Treatment of choanal atresia in a cohort of 29 patients: determinants for success or failure. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2022 Sep;160:111240. doi: 10.1016/j.ijporl.2022.111240.
4. Alsubaie HM, Almosa WH, Al-Qahtani AS, Margalani O. Choanal atresia repair with stents and flaps: a systematic review article. *Allergy Rhinol (Providence).* 2021 Dec 17;12:21526567211058052. doi: 10.1177/21526567211058052.
5. Flint P, Haughey B, Lund V, Robbins K, Thomas JR, Lesperance M, et al. *Cummings Otolaryngology Head and Neck Surgery, E-Book, 3-Volume Set, 7th ed.* Philadelphia: Elsevier; 2020. 3568 p.
6. DREM. Direção Regional de Estatística da Madeira. Resultados definitivos dos CENSOS 2021. Em foco [Internet] 2023 Jan 12; Disponível em: <https://estatistica.madeira.gov.pt/download-now/social/popcondsoc-pt/popcondsoc-censos-pt/popcondsoc-censos-emfoco-pt/send/47-censos-emfoco/15577-em-foco-censos-2021-resultados-definitivos-1.html>
7. Saraniti C, Santangelo M, Salvago P. Surgical treatment of choanal atresia with transnasal endoscopic approach with stent- less single side-hinged flap technique: a 5-year retrospective analysis. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2017 Mar-Apr;83(2):183-189. doi: 10.1016/j.bjorl.2016.03.009.
8. Saraniti C, Santangelo M, Salvago P. Surgical treatment of choanal atresia with transnasal endoscopic approach with stentless single side-hinged flap technique: 5 year retrospective analysis. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2017 Mar-Apr;83(2):183-189. doi: 10.1016/j.bjorl.2016.03.009.
9. Holzmann D, Ruckstuhl M. Unilateral choanal atresia: surgical technique and long-term results. *J Laryngol Otol.* 2002 Aug;116(8):601-4. doi: 10.1258/00222150260171588.
10. Grundfast KM, Thomsen JR, Barber GS. An improved stent method for choanal atresia repair. *Laryngoscope.* 1990 Oct;100(10 Pt 1):1132-3. doi: 10.1288/00005537-199010000-00020.
11. Brown OE, Smith P, Armstrong E, Grundfast KM. The evaluation of choanal atresia by computed tomography. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 1986 Nov;12(1):85-98. doi: 10.1016/s0165-5876(86)80061-1.
12. Lantz HJ, Brick HC. Surgical correction of choanal atresia in the neonate. *Laryngoscope.* 1981 Oct;91(10):1629-34. doi: 10.1288/00005537-198110000-00007.
13. Velegrakis S, Mantsopoulos K, Iro H, Zenk J. Long-term out- comes of endonasal surgery for choanal atresia: 28 years' experience in an academic medical centre. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2013 Jan;270(1):113-6. doi: 10.1007/s00405-012-1982-y.
14. Lazar RH, Younis RT. Transnasal repair of choanal atresia using telescopes. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1995 May;121(5):517-20. doi: 10.1001/archotol.1995.01890050015003.
15. Nithyasundar A, Narayanan DS. Choanal atresia: experience with transnasal endoscopic technique. *J Pharm Sci Res.* 2016;8(2):86-87.
16. Sadek SA. Congenital bilateral choanal atresia: a novel stenting technique in neonates. *Rev Laryngol Otol Rhinol (Bord).* 2000;121(1):49-51.
17. Van Den Abbeele T, Francois M, Narcy P. Transnasal endo- scopic treatment of choanal atresia without prolonged stenting. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2002 Aug;128(8):936-40. doi: 10.1001/archotol.128.8.936.
18. Rodríguez H, Cuestas G, Passali D. A 20-year experience in microsurgical treatment of choanal atresia. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2014 Mar-Apr;65(2):85-92. doi: 10.1016/j.otorri.2013.09.005.
19. Bartal N. An improved stent for use in the surgical management of congenital posterior choanal atresia. *J Laryngol Otol.* 1988 Feb;102(2):146-7. doi: 10.1017/s0022215100104360.
20. Richardson MA, Osguthorpe JD. Surgical management of choanal atresia. *Laryngoscope.* 1988 Sep;98(9):915-8. doi: 10.1288/00005537-198809000-00002.
21. Mantovani M, Mosca F, Laguardia M, Di Cicco M, Pignataro L. A new dynamic endonasal stent for bilateral congenital choanal atresia. *Acta Otorhinolaryngol Ital.* 2009 Aug;29(4):209-12.
22. Al-Qahtani AS, Messahel FM. Choanal atresia repair. The use of reinforced silicone tube to prevent restenosis. *Rhinology.* 2003 Mar;41(1):54-5.
23. Ceylan K, Emir H, Kizilkaye Z, Samim E. Bilateral congenital choanal atresia in a 7-day-old patient: transnasal endoscopic repair with stent. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2007 Jul;264(7):837-40. doi: 10.1007/s00405-007-0265-5
24. El-Ahl MA, El-Anwar MW. Stentless endoscopic transnasal repair of bilateral choanal atresia starting with resection of vomer. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2012 Jul;76(7):1002-6. doi: 10.1016/j.ijporl.2012.03.019.
25. El-Anwar MW, Nofal AA, El-Ahl MA. Endoscopic repair of bilateral choanal atresia, starting with vomer resection: evaluation study. *Am J Rhinol Allergy.* 2016 May;30(3):95-9. doi: 10.2500/ajra.2016.30.4321.