

Tratamento do coloboma de pálpebra superior pela técnica de Cutler-Beard e sua associação com ambliopia - Relato de caso

Upper eyelid coloboma treatment with the Cutler-Beard technique and its association with amblyopia - case report

André Bezerra de Menezes Reiff¹
 Kleber Nobre da Cunha²
 Eduardo Lazarin Biral³
 Jason César Abrantes de Figueiredo⁴
 José Marcos Mélega⁵

RESUMO

Neste relato é apresentado um caso de coloboma congênito de pálpebra superior reconstruído por meio de retalho de transposição de pálpebra inferior (retalho de Cutler-Beard), com bom resultado estético e funcional. A paciente apresentou como complicação o desenvolvimento de ambliopia por privação de imagem (em função do período de oclusão visual, entre a primeira e a segunda intervenção cirúrgica), que respondeu adequadamente à terapêutica instituída. Realizou-se revisão bibliográfica, comentando-se os princípios que regem a reconstrução de defeitos da pálpebra superior, mostrando vantagens e desvantagens de cada técnica e levantou-se discussão quanto ao melhor método de reconstrução nos recém-nascidos, em função dos riscos da ocorrência de ambliopia.

Descritores: Coloboma/cirurgia; Ambliopia/etiologia; Pálpebras/cirurgia; Cirurgia plástica/métodos; Retalhos cirúrgicos; Relato de caso

INTRODUÇÃO

Colobomas de pálpebra são lesões congênitas infreqüentes, caracterizadas por falhas no desenvolvimento palpebral, com ausência de todos os níveis de sua espessura: pele, tarso e conjuntiva, e cuja extensão pode variar desde um simples entalhe até praticamente toda a pálpebra. Frequentemente podem estar associados a síndromes congênitas, como as Síndromes de Treacher-Collins, Goldenhar e Fraser. Sua importância clínica reside no fato de que, em sua localização mais comum, a pálpebra superior, tais defeitos provocam exposição corneana, o que pode levar a ulcerações e posterior cegueira. Assim, varias opções técnicas foram descritas para o tratamento de tal patologia, levando em conta fatores como a posição e extensão do defeito. Em algumas delas, impõe-se a oclusão temporária do eixo visual, o que pode trazer conseqüências danosas a este sistema que se encontra imaturo em recém-nascidos. Os autores relatam um caso de coloboma palpebral tratado em seu serviço, com a técnica cirúrgica descrita inicialmente por Cutler e Beard em 1955, que apresentou um excelente resultado do ponto de vista estético e funcional, mas onde ocorreu uma complicação que merece a atenção de todos os que realizam procedimentos de reconstrução palpebral em crianças: a ambliopia⁽¹⁾. Assim, em função dos achados do caso e à luz dos dados pertinentes colhidos na literatura, discutem as diferentes alternativas terapêuticas e os mecanismos de ocorrência de ambliopia.

Trabalho realizado no Instituto de Cirurgia Plástica Santa Cruz - SP

¹ Membro Titular da Sociedade Brasileira de Cirurgia Plástica e Assistente do Instituto de Cirurgia Plástica Santa Cruz.

² Membro Associado da Sociedade Brasileira de Cirurgia Plástica.

³ Médico Oftalmologista do Hospital Universitário da Universidade de São Paulo (USP). Membro do Conselho Brasileiro de Oftalmologia.

⁴ Membro Titular da Sociedade Brasileira de Cirurgia Plástica. Médico Assistente do Instituto de Cirurgia Plástica Santa Cruz.

⁵ Membro Titular da Sociedade Brasileira de Cirurgia Plástica e Diretor do Instituto de Cirurgia Plástica Santa Cruz.

Endereço para correspondência: Rua Pará, 90/141 - São Paulo (SP) CEP 01243-020.
 E-mail: andreireiff@uol.com.br

Recebido para publicação em 18.04.2001

Aceito para publicação em 21.02.2002

Nota editorial: Pela análise deste trabalho e por sua anuência na divulgação desta nota, agradecemos os Drs. Renato Luiz Nahoum Curi e Rosana Nogueira Pires da Cunha.

RELATO DE CASO

Paciente J. B. R., feminina, branca, 3 meses de idade, trazida pela mãe com história de defeito na pálpebra superior direita desde o nascimento. Nascida a termo, de parto normal, com 3595kg e 49cm, de gestação que transcorreu sem intercorrências, durante a qual a mãe realizou regularmente as visitas de pré-natal, sendo adotadas as condutas de rotina, não sendo constatadas quaisquer doenças. Após o nascimento foi submetida a avaliação de geneticista que constatou, além da malformação citada, presença de apêndices pré-auriculares bilaterais, e persistência de conduto arterial (PCA). Foi aventada a hipótese de quadro sindrômico óculo-aurículo-vertebral, de forma leve, sem haver, no entanto, achados morfológicos suficientes para confirmação diagnóstica. Foi orientada a utilizar pomadas oftalmológicas e encaminhada ao nosso serviço para conduta especializada. A mãe nega ocorrência de lesão semelhante na família.

No exame físico especializado constatou-se coloboma de pálpebra superior direita, acometendo cerca de 55-60% de sua extensão, em posição central, em toda a sua dimensão vertical (Figura 1). Presença de apêndices auriculares bilaterais, de consistência cartilaginosa, de cerca de 7 mm no seu maior diâmetro, imediatamente anteriores ao tragus.

No exame oftalmológico, exceto pela ocorrência do coloboma, todos os testes visuais apresentavam-se normais: exame ocular externo, fundo de olho, reação à oclusão ocular positiva, ortotropia (motilidade ocular extrínseca normal).

Como tratamento, optou-se pela reconstrução palpebral com retalho de espessura total da pálpebra inferior (Cutler-Beard). O tratamento cirúrgico consistiu, em seu primeiro tempo, na confecção e translocação do retalho supracitado e fechamento do defeito, mantendo-se o pedículo inferior.

Após 21 dias de pós-operatório foi realizado o segundo tempo cirúrgico com a divisão do pedículo do retalho, fechamento simples da área doadora e refinamentos estéticos da pálpebra reconstruída (Figuras 2 e 3).

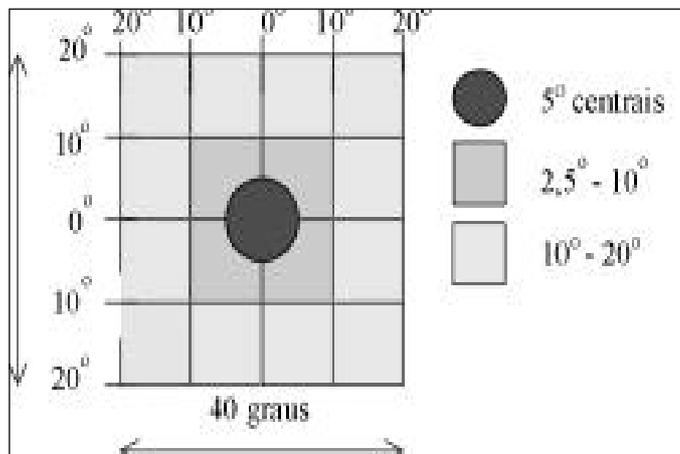


Figura 1 - Pré-operatório. Coloboma de pálpebra superior esquerda comprometendo 55-60% de sua extensão



Figura 2 - Terceira semana após o primeiro tempo cirúrgico, mostrando o retalho de Cutler-Beard de pálpebra inferior transposto para a pálpebra superior, minutos antes de sua divisão

Apresentou boa evolução pós-operatória, com cicatrização completa e reconstituição integral da pálpebra superior, embora com ausência de cílios na área reconstruída e discreto lagoftalmo por retração de pálpebra inferior, ao fechamento espontâneo. Apresentava fenômeno de Bell no olho direito, sem exposição corneana.

Do ponto de vista ocular, a paciente apresentou, logo após o segundo tempo operatório, alterações que chamaram atenção da mãe, principalmente estrabismo. Em avaliação oftalmológica, constatou-se além de esotropia (estrabismo convergente), a ocorrência de ambliopia, com alterações funcionais no olho direito.



Figura 3 - Segundo tempo cirúrgico: divisão do retalho de pálpebra inferior. Segmento malformado de pálpebra superior reconstruído

Passados 25 meses, a paciente ainda se encontra em acompanhamento oftalmológico, com melhora progressiva da função visual e bom resultado estético-funcional da pálpebra. Como seqüelas, apresenta ausência de cílios na área do retalho e discreta exposição escleral em função da retração cicatricial da pálpebra inferior (Figura 4).

DISCUSSÃO

As lesões de pálpebra, especialmente aquelas das pálpebras superiores são muito importantes, uma vez que a proteção ocular, fundamentalmente a corneana, delas dependem. As causas mais comuns destas lesões são os traumas e as ressecções oncológicas⁽²⁾.

No entanto, existem outras causas mais raras que compreendem os defeitos congênitos da pálpebra superior, associados ou não a síndromes genéticas. As pálpebras desenvolvem-se a partir de duas pregas ectodérmicas contendo mesênquima em seu interior, que começam a crescer por volta da sexta semana de vida. Estas pregas encontram-se e fundem-se por volta da décima semana, permanecendo aderidas até a 26ª semana. O ectoderma origina a pele e a conjuntiva, enquanto o mesoderma dá origem aos músculos e à placa tarsal. Qualquer interferência neste processo entre a sexta e a décima semana pode originar defeitos da margem palpebral (colobomas), de extensão variável.

As falhas palpebrais de origem congênita revestem-se de especial importância por duas razões que iremos explicar em seguida:

- Indivíduos desta faixa etária (recém-nascidos) são totalmente dependentes de cuidados dos adultos e portanto muito mais susceptíveis a desenvolver lesões corneanas, estando pois indicado, nestes casos, dependendo das características da lesão (extensão, localização), sua correção precoce e urgente.
- O amadurecimento da função visual continua se proces-

sando durante os primeiros anos de vida. Desta forma o tratamento destas patologias deve levar em consideração os riscos decorrentes da oclusão ocular prolongada que às vezes se faz necessária⁽³⁾.

Nos casos em que a lesão é menor, com posição favorável da falha (porção lateral da pálpebra), e nos quais os pacientes apresentam o reflexo protetor do globo ocular (fenômeno de Bell) bem desenvolvido, há um risco menor da ocorrência de lesão corneana.

Segundo Yeo e colaboradores, em relato publicado em 1997, nos casos de recém-nascidos com colobomas pequenos localizados lateralmente, pode-se optar por um tratamento conservador através do uso de pomadas e colírios, até que as condições clínicas sejam satisfatórias para a realização do tratamento cirúrgico⁽⁴⁾.

O problema maior ocorre quando existem defeitos de maior extensão, localizados na porção central da pálpebra. Estes casos são os que serão o alvo de nossa discussão quanto às possibilidades de terapêutica cirúrgica e quanto aos prós e contras de cada técnica ou opção.

A escolha da técnica ideal para correção das perdas de substâncias da pálpebra superior leva em consideração a localização e principalmente a extensão desta lesão. Segundo os Princípios de Mustardé, a reconstrução palpebral baseia-se em múltiplos de um quarto. Assim, dependendo da extensão do acometimento palpebral: se um quarto da pálpebra, metade, três quartos ou lesão total da pálpebra, as opções de tratamento variam de simples sutura direta da lesão, passando pela realização de cantotomia e cantolise, à mobilização de grandes retalhos de pálpebra inferior para correção da pálpebra superior⁽²⁾.

Além das descritas por Mustardé, outras opções podem ser empregadas. A técnica de Cutler-Beard, que foi por nós utilizada, está indicada para reconstrução de grandes lesões de pálpebra superior acometendo a sua porção central e não atingindo os cantos⁽¹⁾. Trata-se de excelente técnica, uma vez que, através dela, transfere-se tecido composto: pele, conjuntiva e tarso, da pálpebra inferior para a pálpebra superior, através de retalho de avanço, com prejuízo mínimo para a pálpebra doadora. Esta técnica, em que se utilizam todas as camadas básicas da pálpebra para a sua reconstrução, permite um resultado estético e especialmente funcional de grande qualidade (Figura 5). Apresenta o inconveniente de ser uma técnica em 2 tempos e que determina a oclusão palpebral por período prolongado, podendo levar a distúrbios funcionais da visão por desuso, particularmente nos pacientes recém-nascidos. O intervalo de tempo entre a primeira intervenção (elevação do retalho) e a segunda (divisão do pedículo) é também objeto de discussão. Embora a descrição original da técnica preconize que este intervalo seja de seis a oito semanas, este tempo foi sendo gradativamente reduzido, sem riscos de prejuízo para a irrigação do retalho. Atualmente aceita-se que três semanas seriam um prazo seguro, embora haja relatos de divisão do pedículo em duas semanas, sem a ocorrência de necrose^(1-2,5).

Putterman preconiza a reconstrução da pálpebra superior



Figura 4 - Pós-operatório de 1 ano: pálpebra reconstruída com bom resultado estético e funcional, ausência de cílios e discreta retração de pálpebra inferior esquerda

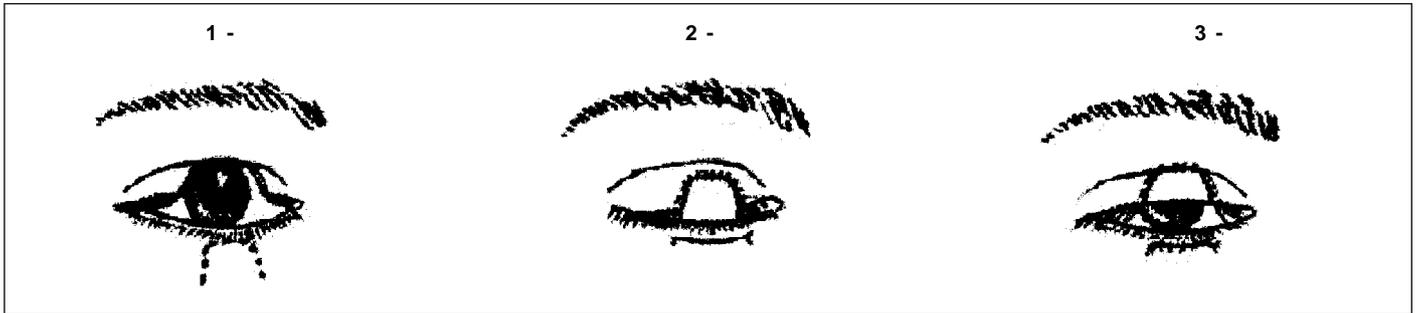


Figura 5 - Técnica de Cutler-Beard

através de enxerto composto tarsoconjuntival que é recoberto por retalho cutâneo da porção medial da pálpebra afetada. O enxerto é, em geral, obtido da pálpebra superior contralateral; e a técnica está indicada para correção de defeitos moderados localizados lateralmente⁽⁶⁾.

Outro retalho que pode ser utilizado é o retalho de transposição de pálpebra superior ou da pele frontal (tipo Fricke); associado ou não com enxerto condromucoso. Este retalho, que tem sua indicação nas reconstruções de pálpebras de adultos, deixa a desejar nas crianças, em razão de ainda não existir grande sobre de pele nessa faixa etária, que sirva como área doadora adequada⁽⁶⁾.

Hauben e Tessler relatam um caso no qual foi empregada uma técnica própria muito engenhosa para correção de grande coloboma congênito (>40%), em tempo único; justamente com o intuito de evitar a ambliopia de privação⁽⁷⁾. Utilizam enxerto de mucosa oral, para reconstrução do revestimento interno; e, para cobertura cutânea, utilizam um retalho mio-cutâneo de orbicular, retirado de região justa superciliar que tem sua porção distal girada inferiormente, de tal forma a dobrar sua espessura, conseguindo assim recobrir toda a extensão da falha palpebral (Figura 6). Esta técnica tem como desvantagens a obrigatoriedade de enxerto mucoso, e dificuldade de emprego nos defeitos muito extensos, já que pode não haver pele em quantidade suficiente para a sua realização. Além disso, carece de uma estrutura que se assemelhe e substitua o tarso ausente.

Outras opções, como a colocação de expansores na região periorbital, parecem ter pouca indicação nas lesões congênitas, sendo uma escolha mais adequada nos casos de trauma ou pós-ressecção tumoral⁽⁸⁾.

Quando se lida com pacientes com colobomas congênitos, nos quais existe o risco de ambliopia, este aspecto também deve ser levado em conta na escolha do tratamento, além da extensão

da lesão. Seguindo este raciocínio, os retalhos a serem utilizados poderiam ser classificados, em última análise, em:

- Procedimentos de tempo único, e que portando não dependeriam de oclusão visual prolongado no pós-operatório;
- Procedimentos em 2 ou mais tempos, e que implicariam necessariamente a oclusão ocular prolongada no pós-operatório.

Partindo desta linha de pensamento, poder-se-ia sintetizar o que, em tese, seria o racional do tratamento das grandes lesões centrais congênitas da pálpebra superior:

- 1- O retalho deve conter os três elementos teciduais básicos da pálpebra: pele, tarso e conjuntiva, com finalidade de se conseguir o melhor resultado estético-funcional;
- 2- O retalho deve ser realizado preferencialmente em tempo único, para se evitar a oclusão prolongada e as seqüelas dela provenientes.

Na prática, no entanto, o que se vê é a impossibilidade da obtenção do retalho ideal, uma vez que o retalho estruturalmente completo é oriundo da pálpebra inferior e a técnica para obtenção do mesmo exige obrigatoriamente uma cirurgia em dois tempos, com oclusão prolongada.

Outra abordagem que poderia ser cogitada para a reconstrução da pálpebra é o emprego de retalhos microcirúrgicos. De fato, esta técnica já tem sido descrita⁽⁹⁾ para reconstrução das pálpebras, porém apenas naqueles casos em que a falha palpebral é apenas parte de um defeito maior da face, como nos traumas de grandes extensões, nos quais não existe a possibilidade do uso de retalhos locais para a reparação. Para a reconstrução somente de defeito palpebral, não se justificaria trazer retalhos distantes, que são muito inferiores nas diversas características (cor, espessura da pele, presença dos tecidos especializados) aos retalhos locais. A utilização de um

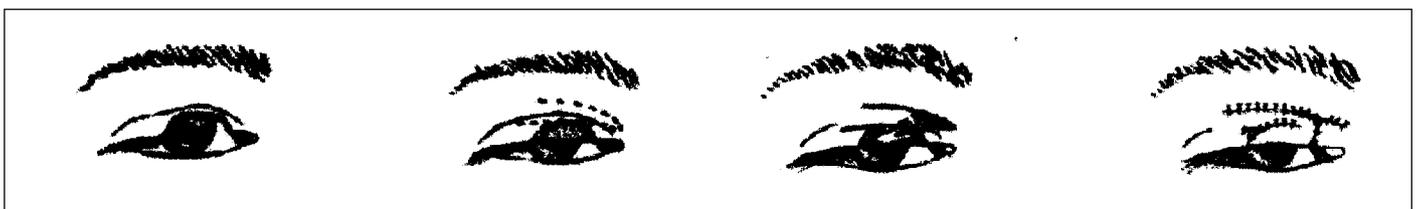


Figura 6 - Técnica de Hauben e Tessler

segmento da pálpebra contralateral como retalho livre esbarra na seqüela que seria deixada na área doadora, além dos riscos inerentes à técnica, principalmente quando se trabalha com vasos de pequenas dimensões, não justificáveis em face às várias opções de retalhos locais.

A paciente em questão apresentou, como conseqüência do procedimento cirúrgico a que foi submetida, ambliopia. A ambliopia, palavra do grego que significa "visão dura" é um defeito adquirido da visão monocular devido a uma experiência visual anormal precocemente na vida. Quando a criança nasce, o sistema visual é relativamente imaturo. Até os 7 anos de idade este sistema apresenta uma plasticidade, quando então se completa seu amadurecimento. Qualquer distúrbio que impeça a formação de uma imagem nítida na retina até os 7 anos causará ambliopia. A vulnerabilidade é maior nos primeiros meses de vida, diminuindo gradualmente após. Com uma prevalência de 2 a 4%, a ambliopia é a causa mais freqüente de limitação visual em crianças e adultos jovens⁽⁹⁾.

O defeito visual na ambliopia é complexo e distinto. Primariamente a ambliopia afeta a visão espacial e de formas. O aspecto principal é a baixa da acuidade visual, ou seja, da capacidade de "resolver" contornos próximos numa curta distância e de "reconhecer" os padrões por eles formados. Assim, se fizermos testes convencionais de acuidade visual, como a tabela de Snellen, observaremos que o olho amblíope apresenta uma redução da acuidade visual. Para crianças que não conseguem informar através deste teste, podemos fazer testes com símbolos, ou usar a técnica do olhar preferencial e potencial visual evocado, no sentido de se inferir a acuidade visual⁽¹¹⁾.

Ptose ou tumores palpebrais podem causar obstrução constante dos eixos visuais levando à ambliopia de privação (ou ex-anopsia). No caso da paciente em questão, o coloboma em si não causa ambliopia. Porém, o procedimento cirúrgico adotado para sua correção, pela rotação do retalho da pálpebra inferior para a superior, levou à oclusão deste olho até o segundo ato cirúrgico.

Somente este período de 21 dias foi o suficiente para que a paciente, em plena idade de maturidade do aparelho visual, passasse a apresentar ambliopia. Não existe um período mínimo de oclusão necessária para o desenvolvimento de ambliopia, que pode, segundo alguns autores, ser de apenas poucos dias, mas sabe-se que há estímulos mais ambliogênicos (como catarata, opacidades de córnea) e menos ambliogênicos (como pequenos erros de refração e ptose palpebral com obliteração do eixo visual)⁽¹²⁾.

Uma vez diagnosticada, a ambliopia deve ser rapidamente tratada, pois, a partir dos 7 anos de idade, não existe terapêutica efetiva, uma vez que o aparelho visual já está com seu desenvolvimento completo, com lesões neuronais definitivas. Após a idade limítrofe, pouco pode ser feito para reverter o quadro, mesmo com a estrutura normal do globo ocular.

O princípio terapêutico consiste em ocluir o olho são, para então forçar o olho amblíope a fixar e olhar. O esquema oclu-

sivo dependerá da idade da criança, preferência de fixação, profundidade da ambliopia e causa da ambliopia, podendo variar de oclusão total (o dia todo), parcial (algumas horas do dia), oclusão fixa (apenas no olho bom) e alternada (ora no olho bom, ora no olho amblíope)⁽¹¹⁾.

A criança será então monitorada através de testes de acuidade visual, até se conseguir um resultado satisfatório, idealmente, 100% de acuidade visual ou acuidade visual semelhante nos dois olhos. O acompanhamento da criança deve continuar até o final da primeira década de vida, pois há grande chance de recidiva⁽¹¹⁾.

O objetivo deste trabalho foi apresentar nossa experiência no tratamento de uma patologia pouco freqüente: o coloboma congênito de pálpebra superior que no presente caso foi por nós reconstruído através do retalho de Cutler-Beard, com bom resultado estético-funcional. No entanto, este relato é apresentado principalmente com o intuito de relatar uma complicação advinda do uso desta técnica, a ambliopia, para que os colegas que se depararem com um caso semelhante atentem para esta possibilidade no momento de decidirem a opção cirúrgica a adotar. Revisando a literatura, pudemos encontrar um grande número de técnicas para a reconstrução da pálpebra superior. Porém pouca discussão existe quanto ao melhor tratamento das grandes lesões palpebrais (>50%) congênicas, em que se levem em conta os riscos das seqüelas funcionais. Aqueles que optarem por retalhos em tempo único não correrão os riscos de desenvolvimento da ambliopia, porém terão um resultado estrutural e funcional mais pobre. Aqueles que optarem pelas técnicas em 2 tempos, conseguirão melhor resultado estético e funcional da pálpebra reconstruída, mas com os riscos de produzirem as seqüelas para a função visual.

Com base nos dados discutidos até este ponto, fazemos algumas considerações a respeito do tratamento dos grandes defeitos congênicos da pálpebra superior (>50%).

- O retalho de Cutler-Beard é uma excelente técnica, pela alta qualidade dos seus resultados estético-funcionais.
- A técnica de Cutler-Beard, assim como outras técnicas em dois tempos apresentam o risco, que não deve ser subestimado, de causar o desenvolvimento da ambliopia pela oclusão temporária do eixo visual.
- Os casos nos quais se instala a ambliopia, quando diagnosticada precocemente e adequadamente tratada, apresentam bom prognóstico.
- As técnicas em tempo único são as ideais para se evitar a instalação da ambliopia. No entanto apresentam pior resultado estético-funcional e limitações no tratamento de grandes lesões.

ABSTRACT

The authors present a case of a large congenital coloboma of the upper eyelid which was reconstructed through a transposition flap from the lower eyelid (Cutler-Beard technique), with

good esthetic and functional result. The patient presented as a complication, development of deprivation amblyopia, (as a result of the time of visual axis occlusion between the first and second operation), which was solved utilizing appropriate therapy. A bibliographic review was made and the principles that rule the treatment of upper eyelid defects were commented, showing the advantages and disadvantages of each technique. Discussion was raised about the best method of reconstruction in newborns, facing the risks of occurrence of amblyopia.

Keywords: Coloboma/surgery; Ambliopia/etiology; Eyelids/surgery; Plastic surgery/methods; Surgical flaps; Case report

REFERÊNCIAS

1. Cutler N L, Beard C. A Method for Partial and Total Upper Lid Reconstruction. *Am. J. Ophthalmol.* 1955;39:1-7.
2. Mustardé J C. Major Reconstruction of the Eyelid: Functional and Aesthetic Considerations. *Clin. Plast. Surg.* 1981;8:227-36.
3. Brady K M, Patrinely J R, Soparkar C N S. Surgery of the Eyelids. *Clin. Plast. Surg.* 1998;25:579-586.
4. Yeo L M, Willshaw H E. Large Congenital Upper Lid Coloboma - Successful Delayed Conservative Management. *J. Pediatr. Ophthalmol. Strabismus* 1997;34:190-2.
5. Dibben K, Rabinowitz Y S, Shorr N R, Graham Jr J M. Surgical Correction of Incomplete Cryptophthalmos in Fraser Syndrome; *Am. J. Ophthalmol.* 1997;124:107-109.
6. Pitangui I, Sbrissa R A. Reconstrução Palpebral. In: Atlas de Cirurgia Palpebral. Rio de Janeiro: Colina/Revinter; 1994. p.259-318.
7. Hauben D J, Tessler Z. One-stage Reconstruction of a Large Upper Lid Defect in a Newborn. *Plast. Reconstr. Surg.* 1989;83:337-40.
8. Tse D T, Mc Cafferty L R. Controlled Tissue Expansion in Periocular Reconstructive Surgery. *Ophthalmology* 1993;100:260-68.
9. Ninkovic M, Hubli E, Anderl H. Facial Reconstruction Using a Retroauricular-Temporal Free Flap. *Plast. Reconstr. Surg.* 1998;102:1147-50.
10. Greenwald M J. Visual Development in Infancy and Childhood. *Pediatr. Clin. North. Am.* 1983;30:977.
11. Ching F C, Friendly D S. Practical Management of Amblyopia. *J. Pediatr. Ophthalmol. Strabismus* 1986;23:12.
12. Vaegan T D. Critical Period for Deprivation Amblyopia in children. *Trans. Ophthalmol. Soc. UK.* 1979;99:432.

1º CIRCE - Curso de Retina, Refrativa, Catarata e Ecografia

23 a 26 de Janeiro de 2003
Fortaleza - CE

Faculdade de Medicina da Universidade Federal do Ceará

INFORMAÇÕES: tel.: (85) 254-6066 (Srta. Jôse)
E-mail: gynandre@uol.com.br