

# Importância do Diagnóstico Pré-Natal de Gastrosquise

## Importance of Prenatal Diagnosis of Gastroschisis

Lourenço Sbragia Neto<sup>1</sup>, Antônio Aldo Melo Filho<sup>1</sup>, Ricardo Barini<sup>2</sup>, Priscila Ribeiro Huguet<sup>1</sup>, Sérgio Marba<sup>3</sup>, Joaquim Murray Bustorff-Silva<sup>1</sup>

### RESUMO

**Objetivo:** *avaliar o papel do diagnóstico pré-natal da gastrosquise na qualidade do atendimento e na evolução de neonatos (RN) com gastrosquise.*

**Métodos:** *estudo retrospectivo de 25 casos de RN com gastrosquise, abordados na Universidade Estadual de Campinas, entre janeiro de 1989 e junho de 1998.*

**Resultados:** *comparando-se os grupos com diagnóstico pré-natal (PN) e neonatal (NN), não foram observadas diferenças quanto à incidência de prematuridade, peso ao nascer e relação peso com idade gestacional. A mediana do tempo entre o nascimento e a correção da gastrosquise foi de 5 horas. Tal intervalo foi menor no grupo PN que no grupo NN (2,25 h versus 13 h;  $p < 0,05$ ). Em 17 RN (68%) foi possível o fechamento primário do defeito, sem diferença no número de casos entre os grupos PN e NN. Embora esta diferença não tenha atingido significância estatística, a sobrevida foi maior no grupo PN (85,7 versus 45,5%).*

**Conclusões:** *o diagnóstico pré-natal de gastrosquise contribui favoravelmente para o atendimento perinatal adequado, resultando em melhora sensível dos índices de mortalidade destas crianças.*

**PALAVRAS-CHAVE:** *Gastrosquise. Diagnóstico Pré-Natal. Malformações fetais.*

## Introdução

Gastrosquise é uma anomalia congênita caracterizada pela extrusão, durante a vida intra-uterina, do intestino fetal, secundária a um defeito na parede abdominal anterior. Sua embriogênese tem sido relacionada à atrofia prematura ou persistência anormal da segunda veia umbilical, seguida de dano mesenquimal e falência da epiderme em se diferenciar neste sítio. Possui incidência que varia de 1 para cada 4.000 a 10.000 nascimentos e geralmente não está associada com outras anomalias estruturais ou de cariótipo<sup>1</sup>.

Após o advento da nutrição parenteral e o aprimoramento das técnicas cirúrgicas e recursos de terapia intensiva, as taxas de sobrevida entre os casos com gastrosquise têm sido cada vez maiores. Contudo, a morbidade ainda permanece alta, suscitando discussões quanto à abordagem diagnóstica e terapêutica. É controverso o impacto de variáveis, como o diagnóstico pré-natal (PP), o tipo de parto e o tempo entre o nascimento e a operação, sobre a evolução destes neonatos (NN).

O presente estudo objetiva avaliar o papel do diagnóstico pré-natal na qualidade do atendimento e na evolução de neonatos portadores de gastrosquise.

## Pacientes e Métodos

Foi realizada uma análise retrospectiva dos prontuários de 25 neonatos portadores de gastrosquise, avaliados e operados pela equipe da Disciplina de Cirurgia Pediátrica da Faculdade de Ciências Médicas, Universidade Estadual de Campinas (UNICAMP), entre janeiro de 1989 e junho de 1998. Foram revisadas as informações

<sup>1</sup>Disciplina de Cirurgia Pediátrica - Departamento de Cirurgia, <sup>2</sup>Departamento de Tocoginecologia e <sup>3</sup>Departamento de Pediatria - Faculdade de Ciências Médicas - Universidade Estadual de Campinas - São Paulo - Brasil

Correspondência:

Lourenço Sbragia Neto  
Universidade Estadual de Campinas - Faculdade de Ciências Médicas

Depto. Cirurgia - Disciplina de Cirurgia Pediátrica

Rua Alexandre Fleming, 181

Cidade Universitária "Zeferino Vaz" - Distrito Barão Geraldo  
13087-970 - Campinas - SP

Fone: (19) 258-2181; Fax: (19) 788-9437

e-mail: sbragia@head.fcm.unicamp.br

relativas à mãe e à criança incluindo-se dados de diagnóstico, tratamento e evolução. Dos 25 neonatos, 14 tinham diagnóstico pré-natal de gastrosquise. Os dados referentes aos períodos pré e pós-natais foram tabulados e comparados entre dois grupos: grupo PN (n = 11; 44%) e grupo NN (n = 14; 56%).

Na análise estatística dos resultados foram empregados os testes exato de Fisher e Mann-Whitney, consoante o tipo de dados analisados.

## Resultados

A idade materna média foi de 21 anos. Dez eram primigestas (40%), quatro secundigestas

(16%) e em oito prontuários (32%) não havia registro de tal informação. Não foi encontrado registro de outras malformações congênicas nas irmandades. Foi realizado ultra-som pré-natal em 15 pacientes (60%), sendo que em 14 (93,3% destes) foi diagnosticada a gastrosquise. Nestes pacientes, a idade gestacional média ao diagnóstico foi de 28 semanas. A análise de diferentes parâmetros entre o grupo com diagnóstico PN e o NN se encontra na Tabela 1.

O acompanhamento durante o pré-natal foi realizado por 18 mães (72%). Observou-se, contudo, que ele nem sempre foi eficiente em diagnosticar a gastrosquise antes do nascimento. No grupo NN, estão incluídas quatro pacientes (36,4%) com acompanhamento pré-natal, sendo que em apenas uma delas foi realizada ultra-sonografia obstétrica.

**Tabela 1** - Comparação entre os neonatos com diagnóstico pré-natal de gastrosquise (grupo PN) com os diagnosticados ao nascer (grupo NN).

Características	Grupo PN (n = 14)		Grupo NN (n = 11)	
Acompanhamento pré-natal	14	(100%)	4	(36,4%)
Nascimento fora da UNICAMP	1	(7,1%)	11	(100%)
Tipo de parto *				
- Normal	1	(7,1%)	6	(54,5%)
- Cesárea	13	(92,9%)	4	(36,4%)
Prematuridade	6	(42,9%)	6	(54,5%)
Peso ao nascer (mediana)	2.190 g		2.320 g	
Peso: relação c/ idade gestacional				
- Adequado	9	(64,3%)	7	(63,6%)
- Pequeno	5	(35,7%)	4	(36,4%)
Intervalo nascimento – operação (mediana)	2,25 h		13 h	
Fechamento primário	8	(57,1%)	9	(81,8%)
Complicações				
- Respiratórias	4	(28,6%)	3	(27,3%)
- Infecção sítio superficial	2	(14,3%)	-	
- Perfuração de alça	-		2	(18,2%)
Reoperação por complicações	1	(7,1%)	2	(18,2%)
Óbitos	2	(14,3%)	6	(54,5%)
- Sepsis	1	(7,1%)	5	(45,5%)
- Outra causa	1	(7,1%)	1	(9,1%)

\* p<0,05 pelo teste de Fisher

\*\* p<0,05 pelo teste de Mann-Whitney

Todas as onze crianças do grupo NN nasceram em outros serviços, sendo transferidas posteriormente para atendimento pela equipe de Cirurgia Pediátrica da UNICAMP. Por outro lado, apenas um dos casos do grupo PN nasceu fora da UNICAMP. O conhecimento pré-natal da malformação foi também fator decisivo na indicação

do tipo de parto: 92,9% de cesárea no grupo PN versus 36,4% no grupo NN (p<0,05).

Não se evidenciou preponderância de sexo entre os neonatos (12 meninos e 13 meninas). A mediana do peso ao nascer foi de 2.200 g. Em 12 casos a idade gestacional foi menor que 38 semanas (48%). O peso para a idade gestacional foi

considerado apropriado em 16 (64%) e pequeno em nove pacientes (36%). A média do Apgar no 1º e 5º minuto foi de sete e nove, respectivamente. Não foram observadas diferenças entre os grupos PN e NN quanto à incidência de prematuridade, peso ao nascer e relação peso com idade gestacional.

Cinco neonatos (20%) demonstraram outras anomalias: um com epispádia; outro com malformações de trato digestivo e urinário e hipoplasia pulmonar e três com atresia de alça intestinal (dois no íleo e um no cólon ascendente).

O tempo entre o nascimento e a correção da gastrosquise variou de 1 a 24 horas, sendo a mediana de 5 horas. Este intervalo foi menor no grupo PN que no grupo NN (2,25 h versus 13 h;  $p < 0,05$ ).

O tratamento cirúrgico mais freqüentemente empregado foi o fechamento primário do defeito em 17 pacientes (68%), com colocação de tela de polipropileno em dois destes (8%). A síntese da parede foi realizada quando anatomicamente possível e na ausência de comprometimento dos parâmetros cardio-respiratórios (avaliados por oximetria de pulso, pressão intratraqueal, capnografia, entre outros). Nos últimos três pacientes, aferiu-se, ainda, a pressão intravesical como medida indireta da pressão intra-abdominal. A obtenção de valores superiores a 20 cmH<sub>2</sub>O nos permitiu a confecção da sutura primária. O Silo (prótese de silicone recoberto as alças, em forma de cilindro, que é progressivamente comprimida, para reduzir as vísceras para o interior da cavidade abdominal) foi colocado em oito neonatos (32%) por, em média, cinco dias, seguido de fechamento com tela em três destes (12%). Não houve diferença quanto ao número de casos de fechamento primário entre os grupos PN e NN.

A associação de antibióticos mais empregada foi ampicilina com aminoglicosídeo (15 casos - 60%), com a substituição do primeiro pela oxacilina nos últimos pacientes. A mediana do período de administração de nutrição parenteral foi de 18 dias e do tempo de permanência em unidade de terapia intensiva de 11 dias.

As principais complicações observadas foram: respiratórias (sete neonatos - 28%), sepse (seis neonatos - 24%), sangramento digestivo (quatro neonatos - 16%), íleo adinâmico prolongado (dois neonatos - 8%) e reação à tela (um neonato - 4%). Três neonatos (12%) foram submetidos a nova operação por perfuração de alça (dois pacientes) e estenose de anastomose para correção de atresia intestinal (um paciente).

A mediana da permanência hospitalar foi de 39 dias.

Oito pacientes (32%) foram a óbito, sendo septicemia a causa mais comum (seis casos). Os

outros dois faleceram por insuficiência respiratória e hemorragia cerebral, respectivamente. Embora a diferença não tenha sido estatisticamente significativa, observou-se melhor sobrevida entre os neonatos do grupo PN (85,7%) quando comparados aos do grupo NN (45,5%).

## Discussão

O presente trabalho confirma dados existentes na literatura em relação ao perfil epidemiológico da gastrosquise. Observa-se que a afecção não possui predileção por sexo, acometendo particularmente filhos de jovens mães primíparas<sup>2,3,4,5</sup>. Sessenta e oito por cento dos neonatos em nossa casuística eram de baixo peso, sendo 11 prematuros (44%). Blakelock et al.<sup>6</sup> relataram que os neonatos com gastrosquise apresentam, de fato, menor peso que os da população geral. É possível que isto resulte de um trato intestinal que não funciona adequadamente, não permitindo um crescimento fetal satisfatório.

Diversos autores têm buscado determinar o papel do diagnóstico pré-natal no prognóstico de neonatos com gastrosquise. Acreditam alguns que, apesar de útil no aconselhamento dos pais e na vigilância pré-parto, esta variável *per se* não influi no prognóstico da doença. Outros sustentam que, embora não se tenha encontrado diferença de sobrevida em relação à idade do diagnóstico, o prévio conhecimento da patologia é importante na correção mais precoce da afecção<sup>7,8</sup>. A identificação pré-natal da gastrosquise, na presente casuística, permitiu transferência ao hospital terciário antes do parto e menor tempo entre parto e operação, resultando em melhor sobrevida dos neonatos.

A observação de alças intestinais dilatadas, com diâmetro maior que 17 mm, ao ultra-som no pré-natal corresponderia a uma elevada morbidade, indicando necessidade de antecipação do parto<sup>9,10</sup>. Por outro lado, autores que não encontraram correlação entre a aparência das alças no anteparto com a morbidade ou mortalidade contestam esta opinião<sup>7,11</sup>. O achado de dilatação intestinal poderia, no máximo, predizer o achado de atresia intestinal, sugerindo um maior risco de complicações<sup>11</sup>. Ademais, a aferição da dilatação de alças por ultra-som é um processo sujeito a erros e significativas variações intra e entre-observadores<sup>7</sup>.

É digno de nota que a ultra-sonografia apresenta um número de falso-negativos que pode atingir 22%, o qual corresponderia particularmente aos casos de gastrosquise de início peri-natal<sup>12,13</sup>. Em nosso estudo, apenas em um paciente (4% das

ultra-sonografias realizadas) não foi possível identificar o defeito da parede abdominal.

O tipo de parto a ser realizado é outro ponto de controvérsia. Na presente casuística, observou-se que, em geral, foi realizada a cesárea quando havia diagnóstico prévio de gastrosquise. Todavia, não houve qualquer correlação entre o tipo de parto e a taxa de óbitos neonatais. Alguns autores têm demonstrado que o parto cesárea não altera ou mesmo piora a morbidade e/ou a mortalidade dos recém-nascidos afetados<sup>2,7,8,11,14</sup>. Por outro lado, outros o defendem por acreditar em menor risco de infecção e trauma<sup>15,16,17</sup>. Contudo, lesões como a avulsão de segmento intestinal também já foram descritas na extração por cesárea<sup>18</sup>.

Considerando os efeitos deletérios da exposição ao líquido amniótico e da constricção mesentérica, há quem defenda a antecipação do parto, após adequada maturidade pulmonar<sup>8,19</sup>. Entretanto, esta conduta não abrevia o índice de colocação de Silo ou o tempo de hospitalização<sup>20</sup>. Na presente casuística, não houve casos de antecipação do parto.

Por sua vez, existem evidências de que o tratamento cirúrgico precoce após o parto seria um fator prognóstico<sup>15,17</sup>. Coughlin et al.<sup>15</sup> demonstraram que o reparo da gastrosquise imediatamente após o nascimento resultou em maior índice de fechamento primário da parede, bem como extubação, início de dieta oral e alta hospitalar mais precoces. Já outros estudos revelaram que o intervalo entre o nascimento e a operação não interfere no prognóstico dos neonatos<sup>7,14</sup>.

No presente trabalho, a associação deste intervalo com a sobrevida é notória (2,7 h versus 13,5 h;  $p < 0,05$ ). No entanto, observam-se particularidades adicionais no grupo de neonatos que só foram abordados após 6 horas de vida. Assim, 63,6% deles não possuíam relato de acompanhamento pré-natal, 81,8% não tinham diagnóstico pré-natal de gastrosquise e 90,9% haviam nascido em outro hospital. Estes dados sugerem que uma atenção primária à saúde inadequada, oferecendo cuidados pré-natais de baixa qualidade, tem influência decisiva no prognóstico e no manejo destes pacientes. O desconhecimento da malformação antes do parto resulta provavelmente em ausência de cuidados adicionais no parto visando diminuir a contaminação da cavidade abdominal. O diagnóstico pré-natal resultou na transferência materna para um centro de atenção terciária, possibilitando uma tomada de decisões mais adequada em relação à criança. Quirk et al.<sup>14</sup> também relataram pior evolução para os neonatos que nasceram fora de um centro regional. Estes necessitaram elevado número de dias para o início da dieta enteral, maior permanência e encargos hospitalares que os nascidos no centro terciário.

A abordagem cirúrgica preferida foi síntese primária do defeito da parede abdominal, conseguida em 68% dos pacientes. Não houve correlação entre tempo desde nascimento à operação e tipo de tratamento cirúrgico aplicado. São descritos vários parâmetros capazes de prever o sucesso ou não do fechamento primário da gastrosquise. Yaster et al.<sup>21</sup> determinaram a importância da pressão intragástrica, da pressão venosa central e do índice cardíaco. Puffinbarger et al.<sup>22</sup> relataram que a capnografia substituiria tais monitorizações mais invasivas.

A medida da pressão intravesical tem sido utilizada mais recentemente. Pressões menores que 20 cm H<sub>2</sub>O autorizariam a realização da síntese primária. Este método resulta supostamente em menor morbidade, por reduzir a incidência de isquemia renal e intestinal associada à pressão intra-abdominal elevada<sup>23</sup>.

Diversos trabalhos indicam que o fechamento primário está associado com menor tempo de nutrição parenteral e de hospitalização, quando comparado com o tratamento com Silo<sup>2,24</sup>. Por outro lado, Komuro et al.<sup>25</sup> demonstraram que, quando necessário, o reparo estadiado é também método simples e seguro, oferecendo resultados igualmente satisfatórios. Na presente casuística, a decisão sobre fechamento primário ou estadiado foi baseada na variação da pressão intratorácica durante a cirurgia e, mais recentemente, na avaliação complementar da pressão intravesical. Não se observou influência do tipo de tratamento no tempo de nutrição parenteral, hospitalização ou índice de sobrevida dos neonatos.

Dados da literatura vêm mostrando diminuição sensível da mortalidade associada à gastrosquise<sup>2,4,13,23</sup>. Contudo, a presente casuística revelou uma alta taxa de óbito (32%). Dos oito neonatos em questão, observa-se que apenas dois foram abordados nas primeiras 6 horas de vida. Um era portador de malformações múltiplas, tendo evoluído com insuficiência respiratória secundária à hipoplasia pulmonar, e o outro apresentava, já ao nascimento, volvo de delgado com necrose intestinal. Os seis recém-nascidos restantes nasceram fora do hospital terciário e foram abordados tardiamente, sendo cinco deles operados de 13 a 24 horas após o parto. Estes dados sugerem que a abordagem tardia tenha tido um papel importante na alta taxa de mortalidade observada.

Em conclusão, os dados apresentados confirmaram a visão de que o diagnóstico pré-natal de gastrosquise contribui favoravelmente para o atendimento perinatal adequado a estas crianças. Uma abordagem mais rápida e eficiente torna-se possível, evitando a necessidade de transporte do recém-nascido e diminuindo o tempo entre o parto e a operação. Isto resultou em melhora sensível dos índices de mortalidade destas crianças.

## SUMMARY

**Purpose:** *to evaluate the role of prenatal diagnosis of gastroschisis in the quality of assistance to and in the evolution of neonates with gastroschisis.*

**Methods:** *a retrospective survey of 25 charts of neonates with gastroschisis treated at the State University of Campinas, between January 1989 and June 1998.*

**Results:** *comparing the groups with prenatal (PN) and neonatal (NN) diagnosis, no differences regarding incidence of prematurity, birth weight and relations hip between weight and gestational age were observed. The median time from birth to surgery was 5 h. Such interval was shorter in the PN than the NN group (2.25 h versus 13 h;  $p < 0.05$ ). Primary closure of the defect was achieved in 17 neonates (68%) of both groups. Although this difference was not statistically significant, survival was higher among infants of the PN group (85.7% versus 45.5%).*

**Conclusions:** *prenatal diagnosis of gastroschisis contributes favorably to improve perinatal assistance, resulting in reduced mortality of these children.*

**KEY WORDS:** *Gastroschisis. Prenatal Diagnosis. Birth defects.*

## Referências

1. Torfs C, Curry C, Roeper P. Gastroschisis. *J Pediatr* 1990; 116:1-6.
2. Blakelock RT, Harding JE, Kolbe A, Pease PWB. Gastroschisis: can the morbidity be avoided? *Pediatr Surg Int* 1997; 12:276-82.
3. Goldbaum G, Daling J, Milham S. Risk factors for gastroschisis. *Teratology* 1990; 42: 397-403.
4. Novotny DA, Klein RL, Boeckman CR. Gastroschisis: an 18-year review. *J Pediatr Surg* 1993; 28:650-2.
5. Roeper PJ, Harris J, Lee G, Neutra R. Secular rates and correlates for gastroschisis in California (1968-1977). *Teratology* 1987; 35:203-10.
6. Blakelock RT, Upadhyay V, Pease PW, Harding JE. Are babies with gastroschisis small for gestational age? *Pediatr Surg Int* 1997; 12:580-2.
7. Adra AM, Landy HJ, Nahmias J, Gómez-Marín O. The fetus with gastroschisis: impact of route delivery and prenatal ultrasonography. *Am J Obstet Gynecol* 1996; 174:540-6.
8. Sipes SL, Weiner CP, Sipes DR 2d, Grant SS, Williamson RA. Gastroschisis and omphalocele: does either antenatal diagnosis or route of delivery make a difference in perinatal outcome? *Obstet Gynecol* 1990; 76:195-9.
9. Bond SJ, Harrison MR, Filly RA, Callen PW, Anderson RA, Golbus MS. Severity of intestinal damage in gastroschisis: correlation with prenatal sonographic findings. *J Pediatr Surg* 1988; 23:520-5.
10. Pryde PG, Bardicef M, Treadwell MC, Klein M, Isada NB, Evans MI. Gastroschisis: can antenatal ultrasound predict infant outcomes? *Obstet Gynecol* 1994; 84:505-10.
11. Brun M, Grignon A, Guibaud L, Garel L, Saint-Vil D. Gastroschisis: are prenatal ultrasonographic findings useful for assessing the prognosis? *Pediatr Radiol* 1996;26: 723-6.
12. Knott PD, Colley NV. Can fetal gastroschisis always be diagnosed prenatally? *Prenat Diagn* 1987; 7:607-10.
13. Roberts JP, Burge DM. Antenatal diagnosis of abdominal wall defects: a missed opportunity? *Arch Dis Child* 1990; 65:687-9.
14. Quirk JGJ, Fortney J, Collins HB, West J, Hassad SJ, Wagner C. Outcomes of newborns with gastroschisis: the effects of mode of delivery, site of delivery and interval from birth to surgery. *Am J Obstet Gynecol* 1996;174:1134-8.
15. Coughlin JP, Drucker DEM, Jewell MR, Evans MJ, Kelin MD. Delivery room repair of gastrochisis. *Surgery* 1993; 114:822-6.
16. Sakala EP, Erhard LN, White JJ. Elective cesarean section improves outcomes of neonates with gastroschisis. *Am J Obstet Gynecol* 1993; 169:1050-3.
17. Swift RI, Singh MP, Ziderman DA, Silverman M, Elder MA, Elder MG. A new regime in the management of gastroschisis. *J Pediatr Surg* 1992; 27:61-3.
18. Dinatti LA, Meagher Jr. DP, Martinez-Frontanilla LA. "Bucket handle" avulsion of intestine in gastroschisis. *J Pediatr Surg* 1993; 28:840.
19. Moore TC. Elective pre-term section for improved primary repair of gastroschisis. *Pediatr Surg Int* 1988; 4:25-6.
20. Simmons M, Georgeson KE. The effect of gestational age at birth on morbidity in patients with gastroschisis. *J Pediatr Surg* 1996; 31:1060-1.
21. Yaster M, Buck JR, Dudgeon DL, Manolio TA, Simmons RS, Zeller P, et al. Hemodynamic effects of primary closure of omphalocele/gastroschisis in human newborns. *Anesthesiology* 1988; 69: 84-8.
22. Puffinbarger NK, Taylor DV, Tuggle DW, Tunell WP. End-tidal carbon dioxide for monitoring primary closure of gastroschisis. *J Pediatr Surg* 1996; 31:280-2.
23. Lacey SR, Carris LA, Beyer J, Azizkhan RG. Bladder pressure monitoring significantly enhances care of infants with abdominal wall defects: a prospective clinical study. *J Pediatr Surg* 1993; 28:1370-5.
24. Di Lorenzo M, Yazbeck S, Ducharme JC. Gastroschisis: a 15-year experience. *J Pediatr Surg* 1987; 22:710-2.
25. Komuro H, Imaizumi S, Hirata A, Matsumoto M. Staged silo repair of gastroschisis with preservation of the umbilical cord. *J Pediatr Surg* 1998; 33:485-8.