# Nova abordagem multidisciplinar para monitorizar e tratar fetos com gastrosquise utilizando o Svetliza Reducibility Index e o procedimento EXIT-like

Novel multidisciplinary approach to monitor and treat fetuses with gastroschisis using the Svetliza Reducibility Index and the EXIT-like procedure

Gustavo Henrique de Oliveira<sup>1</sup>, Javier Svetliza<sup>1</sup>, Denise Cristina Mós Vaz-Oliani<sup>1</sup>, Humberto Liedtke Junior<sup>1</sup>, Antonio Helio Oliani<sup>1</sup>, Denise Araujo Lapa Pedreira<sup>2</sup>

#### **RESUMO**

Objetivo: Descrever a experiência inicial com a nova técnica cirúrgica EXIT-like para acompanhamento e correção de gastrosquise no "minuto zero". Métodos: Foram avaliados onze fetos com diagnóstico pré-natal de gastrosquise. O Svetliza Reducibility Index foi usado prospectivamente para avaliar cinco casos, e seis foram utilizados como controles. O índice foi calculado dividindo-se o diâmetro do defeito da parede abdominal pela maior alça intestinal que coubesse neste espaço. O procedimento EXIT-like compreendeu cesárea programada, analgesia fetal e redução da víscera herniada para a cavidade abdominal, antes da deglutição de ar pelo recémnascido. Não são necessários anestesia geral e nem relaxamento uterino. A redução da víscera exteriorizada é realizada enquanto se mantém a circulação do cordão umbilical. Resultados: Quatro casos, dos cinco, foram submetidos ao EXIT-like. A correção foi completa em três casos. Os demais casos foram partos a termo planejados, e a correção do defeito foi feita com Silo. O tempo médio de redução da víscera foi de 5,0 minutos no grupo submetido ao procedimento EXITlike, e a oximetria foi mantida dentro dos valores de variação normal em todos os casos. No período perinatal, foram observadas diferenças estatisticamente significativas no tempo de ventilação mecânica (p=0,0169), duração da nutrição parenteral (p=0,0104) e da nutrição enteral (p=0,0294). **Conclusão:** O *Svetliza Reducibility Index* e o procedimento EXIT-like podem ser novas opções para acompanhar e tratar gastroquise, com desfecho neonatal significativamente melhor em nossa unidade. Novos estudos randomizados são necessários para avaliar esta nova abordagem.

Descritores: Gastrosquise/cirurgia; Parede abdominal/anormalidades; Terapias fetais; Diagnóstico fetal; Feto/cirurgia

#### **ABSTRACT**

**Objective:** To describe our initial experience with a novel approach to follow-up and treat gastroschisis in "zero minute" using the EXITlike procedure. Methods: Eleven fetuses with prenatal diagnosis of gastroschisis were evaluated. The Svetliza Reductibility Index was used to prospectively evaluate five cases, and six cases were used as historical controls. The Svetliza Reductibility Index consisted in dividing the real abdominal wall defect diameter by the larger intestinal loop to be fitted in such space. The EXIT-like procedure consists in planned cesarean section, fetal analgesia and return of the herniated viscera to the abdominal cavity before the baby can fill the intestines with air. No general anesthesia or uterine relaxation is needed. Exteriorized viscera reduction is performed while umbilical cord circulation is maintained. Results: Four of the five cases were performed with the EXIT-like procedure. Successful complete closure was achieved in three infants. The other cases were planned deliveries at term and treated by construction of a Silo. The average time to return the viscera in EXIT-like Group was 5.0 minutes, and, in all cases, oximetry was maintained within normal ranges. In the perinatal period, there were significant statistical differences in ventilation days required (p=0.0169), duration of parenteral nutrition (p=0.0104) and duration of enteral feed (p=0.0294). **Conclusion**: The Svetliza Reductibility Index and EXIT-like procedure could be new options to follow and treat gastroschisis, with significantly improved neonatal outcome in our unit. Further randomized studies are needed to evaluate this novel approach.

Keywords: Gastroschisis/surgery; Abdominal wall/abnormalities; Fetal therapies; Fetal diagnosis; Fetus/surgery

Autor correspondente: Gustavo Henrique de Oliveira - Rua Independência, 2.390 - CEP: 15025-095 - São José do Rio Preto, SP, Brasil - Tel.: (17) 3519-3030 - E-mail: gustavo@imrfetal.com.br Data de submissão: 5/1/2017 - Data de aceite: 15/8/2017

Conflitos de interesse: não há

DOI: 10.1590/S1679-45082017AO3979



<sup>&</sup>lt;sup>1</sup> Faculdade de Medicina de São José do Rio Preto, São José do Rio Preto, SP, Brasil.

<sup>&</sup>lt;sup>2</sup> Universidade de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil.

# **INTRODUÇÃO**

A gastrosquise é caracterizada por um defeito na formação da parede abdominal anterior, associado à extrusão de órgãos abdominais, principalmente intestino, estômago, bexiga e fígado. Trata-se de uma malformação com baixas morbidade e mortalidade. Porém, tem se mostrado mais frequente, com estimativa de 1:2.000-3.000 por bebê nascido vivo. (1,2)

Embora a gastrosquise seja uma malformação relativamente benigna, não há consenso com relação ao melhor algoritmo para seu tratamento. Há muita controvérsia sobre a idade gestacional na hora do parto e a melhor técnica cirúrgica a ser utilizada. (1,3-5) Alguns estudos sugerem que a antecipação eletiva do parto pode reduzir danos ao intestino e melhorar o desfecho neonatal. (1,6-11)

Até o momento, recomenda-se que o tratamento para a gastrosquise seja feito o mais precocemente possível após o parto, para evitar a evaporação e a exsudação da víscera herniada, que podem levar à desidratação, hipotermia e infecção neonatal. (1) As principais técnicas atualmente usadas são o fechamento primário da malformação com redução completa do conteúdo herniado, ou a redução gradual durante os primeiros dias de vida, utilizando-se um Silo customizado ou pré-formado. (12-17)

Desde 2005, um grupo multidisciplinar na Argentina tem usado uma nova abordagem, que combina parâmetros ultrassonográficos intuitivos e cirurgias imediatas "zero minute" para tratar a doença, chamada procedimento EXIT-like (ex utero intrapartum treatment). Seu objetivo era prever o maior diâmetro de alça intestinal que poderia permitir a redução primária da víscera exteriorizada para dentro da cavidade abdominal, imediatamente após o nascimento, antes que o ar começasse a distender o intestino, quando o neonato começa a respirar. Uma cesariana planejada permitiu que o cirurgião pediátrico realizasse a operação enquanto a circulação do cordão umbilical era mantida. No entanto, ao contrário do EXIT clássico, não foram necessários a anestesia geral nem o relaxamento uterino para a mãe. O cordão umbilical foi clampeado e cortado, e o neonato foi levado para a incubadora, onde o aconteceu o completo fechamento da malformação da parede abdominal.(18)

#### **OBJETIVO**

Apresentar uma experiência inicial com a proposta de correção cirúrgica "minuto zero" por meio da técnica *EXIT-like* para o tratamento de gastrosquise.

# **MÉTODOS**

Todos os casos de diagnóstico pré-natal de gastrosquise em nossa região foram avaliados no complexo do Hospital da Criança e Maternidade da Fundação Faculdade Regional de Medicina de São José do Rio Preto, centro de referência para cuidados terciários de malformações fetais, no nordeste do Estado de São Paulo. A unidade contava com especialistas em medicina fetal, anestesiologistas, cirurgiões pediátricos, obstetras, neonatologistas e outros profissionais. O estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa, resolução 1.864.004, CAAE: 2913216.4.0000.5415. Todas as mães assinaram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido, autorizando a coleta de dados e a publicação dos resultados.

Foi proposta uma mudança no protocolo de tratamento de gastrosquise, e cinco casos foram submetidos à avaliação prospectiva para parto programado eletivo entre a 35ª e a 37ª semanas de gestação. A partir da 28ª semana de gestação, as pacientes foram semanalmente submetidas a ultrassonografias de acompanhamento. O acompanhamento longitudinal do índice de redutibilidade foi útil na hora de decidir o melhor momento para o parto. Tal índice, proposto por Svetliza, *Svetliza Reducibility Index* (SRI) é calculado multiplicando o maior diâmetro pela maior espessura da alça sentinela – definida como a alça intestinal e a alça extra-abdominal com a maior dilatação. Este valor é dividido pela maior medida do defeito da parede abdominal anterior (incluindo o cordão umbilical) (Figura 1).

SRI = maior diâmetro da alça sentinela x maior espessura da alça sentinela medida do defeito da parede abdominal anterior (incluindo o cordão umbilical).

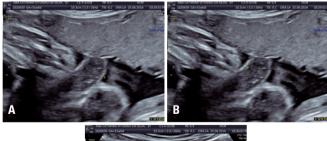




Figura 1. Imagens ultrassonográficas para o cálculo do *Svetliza Reducibility Index*. (A) O maior diâmetro da alça sentinela; (B) a maior espessura da alça sentinela; (C) medida do defeito da parede abdominal anterior (incluindo o cordão umbilical)

A interpretação dos valores do SRI foi feita da seguinte forma: em caso de valores ≤1,5, a correção *EXIT-like* foi considerada aplicável e provável; para valores maiores do que 1,5 e menores do que 2,5, a correção *EXIT-like* foi considerada aplicável e possível; e para valores ≥2,5, a correção *EXIT-like* foi considerada pouco provável.

O objetivo da avaliação prospectiva do índice foi garantir a oportunidade da cirurgia "minuto zero", ou seja, se o SRI estava abaixo de 1,5, o parto era programado para entre 36 e 37 semanas, e se o SRI tivesse aumento progressivo antes de ultrapassar 2,5, o parto era programado para quando a idade gestacional passasse de 34 semanas.

A técnica *EXIT-like* foi planejada em casos em que o SRI estava abaixo de 2,5, sendo favorável à redução primária no "minuto zero". Este procedimento é caracterizado pela reintrodução completa das alças intestinais no abdômen fetal, utilizando a circulação fetal-placentária, ou seja, antes do clampeamento do cordão umbilical. O procedimento difere da técnica clássica do *EXIT*, já que não há necessidade de anestesia geral nem de medicamento para relaxamento uterino.<sup>(18)</sup>

Para a técnica *EXIT-like*, a sala cirúrgica foi preparada da mesma forma que para uma cesariana, com a adição de uma mesa acessória com o material necessário para correção de gastrosquise, incluindo pinça atraumática para manipulação segura das alças intestinais, além de berço aquecido para os neonatos após clampeamento do cordão umbilical. Além disto, outra sala cirúrgica foi preparada para o caso de necessidade de anestesia geral para o neonato.

A anestesia materna foi feita por bloqueio subaracnóideo, com 10 a 20mg de bupivacaína, dependendo do peso e da altura da paciente,  $100\mu g$  de morfina e máscara de oxigênio como suporte ventilatório. A analgesia do neonato foi feita com uma dose de 0,07 a 0,09mg/kg/minuto de remifentanil, administrada em bomba de infusão na circulação materna, com início pelo menos 15 minutos antes da extração fetal e mantida até o clampeamento do cordão umbilical. Foi oferecida ao recém-nascido uma chupeta embebida em sacarose (5g de sacarose diluída em 100mL de água). A temperatura foi mantida, e o berço estava a menos de 1m da mesa de operação.

A equipe cirúrgica foi formada por dois anestesistas, dois obstetras, dois cirurgiões pediátricos, dois neonatologistas e um instrumentador. A disposição da equipe está demonstrada na figura 2. Após extração suave, o feto foi colocado em posição supina nas coxas da mãe, com muito cuidado para não haver tração excessiva do cordão umbilical. Neste momento, um neonatologista

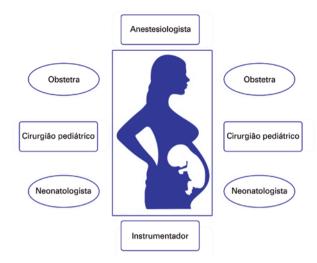


Figura 2. Imagem esquemática da disposição da equipe cirúrgica

ofereceu a chupeta com sacarose ao neonato, para evitar o choro, enquanto o outro neonatologista colocou um oxímetro de pulso para monitoramento. Um dos obstetras foi encarregado de proteger a área cirúrgica da cesariana, enquanto o outro observava a pulsação do cordão umbilical por palpitação ininterrupta. Ambos os cirurgiões pediátricos iniciaram a redução dos órgãos abdominais, das alças intestinais mais dilatadas até as menos dilatadas, até a redução total. Após clampeamento do cordão umbilical, o neonato foi levado ao berço aquecido para bloqueio anestésico local da parede abdominal, com dose de 2mg/kg de bupivacaína e sutura em camada única com fio absorvível 3.0 (Figura 3).

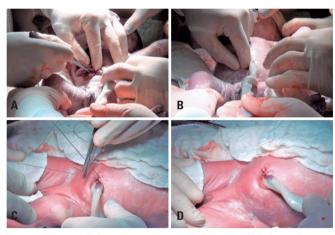


Figura 3. Etapas cirúrgicas do procedimento EXIT-like. (A e B) Redução de gastrosquise com circulação umbilical; (C e D) fechamento da parede abdominal

Foram analisados os seguintes parâmetros pósoperatórios em todos os casos: duração da ventilação mecânica, duração da nutrição parenteral exclusiva e mista, nutrição enteral total, ocorrência de sepse, necessidade de reintervenção e duração da internação. Estes dados foram comparados aos resultados de casos em que foi realizada a colocação de Silo de policloreto de vinila (PVC).

Seis casos consecutivos tratados com Silo foram escolhidos como controles e avaliados retrospectivamente. Antes do protocolo *EXIT-like*, a conduta era expectante até a gestação a termo. O fechamento tardio por colocação de Silo sempre foi a primeira escolha, e a correção primária era considerada uma alternativa em casos com baixo conteúdo herniado e de fácil redução. A mudança na abordagem clínica foi aprovada por equipes de medicina fetal, obstetrícia, neonatologia e cirurgia pediátrica. O comitê de ética médica institucional foi consultado como procedimento compassivo.

A análise de dados foi baseada em cálculos estatísticos descritivos, tabelas de frequência e no teste não paramétrico de Mann-Whitney, e o nível de significância estatística foi estabelecido em 5%.

#### **RESULTADOS**

Dos cinco casos avaliados prospectivamente, o SRI estava abaixo de 2,5 em quatro deles submetidos à técnica *EXIT-like*. No caso em que o SRI não estava favorável (maior de que 2,5) e nos seis casos controle, a correção da gastrosquise foi feita pelo fechamento tardio clássico, com uso de Silo customizado. As características demográficas dos casos estão apresentadas na tabela 1.

Tabela 1. Características demográficas

| Características                        | Grupo <i>EXIT-like</i><br>n (%) ou média<br>(variação)<br>n=4 | Grupo Silo<br>n (%) ou média<br>(variação)<br>n=7 |  |
|--|---|---|--|
| Idade materna no parto, anos           | 21,5 (15-33)  | 20,14 (14-29)                                     |  |
| Paridade                               |   |   |  |
| Primípara                              | 3 (75)  | 5 (71,73)   |  |
| Multípara                              | 1 (25)  | 2 (28,57)   |  |
| Sexo fetal                             |   |   |  |
| Masculino                              | 2 (50)  | 4 (57,14)   |  |
| Feminino                               | 2 (50)  | 3 (42,86)   |  |
| Idade gestacional no parto, semanas    | 35,61 (35,00-36,43)   | 37,08 (35,29-38,43)                               |  |
| Peso ao nascer, g                      | 2.189,25 (1.556-2.975)  | 2.420 (1.700-3.480)                               |  |
| Tempo para redução da víscera herniada | 5,0 minutos (4,0-5,8)   | 11,6 dias (6,0-18,0)                              |  |

A idade materna variou entre 14 e 33 anos (metade das gestantes tinha menos de 19 anos). A mesma equipe multidisciplinar estava envolvida na discussão, no planejamento e na cirurgia em todos os casos. Em três deles, uma redução completa das alças intestinais foi feita com sucesso com uso da circulação umbilical. Em um dos casos, após redução de aproximadamente 50% do conteúdo herniado, foi identificada laceração da alça do intestino delgado, provavelmente secundária à manipulação. Assim, a cirurgia EXIT-like foi abandonada, e um Silo foi colocado na sala de cirurgia adjacente (previamente preparada). O tempo médio para redução das alças intestinais ao interior da cavidade abdominal foi de 5,0 minutos (4,0 a 5,8 minutos). Em todos os casos, durante a redução das alças intestinais e o fechamento da parede abdominal, o neonato respirava espontaneamente, com níveis adequados de saturação de oxigênio. Em um caso, aproximadamente 30 minutos após o fechamento da parede abdominal, o neonato desenvolveu desconforto respiratório e dessaturação de oxigênio, tendo sido então realizada a ventilação mecânica - a extubação foi feita no terceiro dia pós-operatório. No caso com laceração da alça do intestino delgado, o neonato foi submetido à anestesia geral, e foi extubado logo após o procedimento. Os resultados pós-operatórios dos quatro casos em que foi feito o procedimento EXIT-like estão demonstrados individualmente na tabela 2. Os resultados e as diferenças significativas com relação ao procedimento EXIT-like e o fechamento tradicional com Silo estão apresentados na tabela 3.

Não foram encontradas diferenças significativas entre os dois grupos com relação à idade materna ao parto (p=0,9240) e à idade gestacional ao parto (p=0,0713). Ao examinar os dados clínicos dos neonatos, notou-se que o peso ao nascer mostrou-se estatisticamente semelhante nos dois grupos (p=0,5083). Porém, no período pós-operatório, foram observadas diferenças entre os grupos, principalmente se considerados os fatores ventilação mecânica e nutrição parenteral e enteral, já que o Grupo EXIT-like apresentou medianas mais baixas e maior homogeneidade de dados do que o Grupo Silo, ou seja, houve dispersão mais baixa no Grupo EXIT-like com relação a estas variáveis.

A figura 4 mostra a dispersão intragrupo de maneira comparativa para todos os parâmetros considerados. Com relação à nutrição mista, as estatísticas não mostraram diferença entre os grupos, embora as medianas tenham sugerido um resultado mais favorável para o Grupo Silo, com a mediana de tempo mais curta. Isto é possível pela alta dispersão de dados considerando esta variável no Grupo *EXIT-like* causada pela duração da nutrição (22 dias) de um dos neonatos. Com relação à duração da internação hospitalar, embora os valores de mediana não tenham estado próximos numericamente

Tabela 2. Casos submetidos à tecnica EXIT-like

| Caso | Idade gestacional<br>no parto<br>(semanas) | Peso ao<br>nascer (g) | Ventilação<br>mecânica (dias) | Nutrição<br>parenteral<br>(dias) | Nutrição<br>mista (dias) | Nutrição<br>enteral (dias) | Sepse | Reintervenção | Internação<br>hospitalar (dias) |
|------|--|-----------------------|-------------------------------|----------------------------------|--------------------------|----------------------------|-------|---------------|---------------------------------|
| 1    | 35,0                                       | 2.080                 | 0                             | 15                               | 9                        | 24                         | Sim   | Não           | 34                              |
| 2*   | 36,71                                      | 2.975                 | 1                             | 18                               | 7                        | 25                         | Não   | Não           | 33                              |
| 3    | 35,29                                      | 2.146                 | 3                             | 14                               | 22                       | 36                         | Não   | Não           | 43                              |
| 4    | 35,71                                      | 1.556                 | 0                             | 14                               | 12                       | 26                         | Não   | Não           | 46                              |

<sup>\*</sup> Caso em que foi identificada laceração superficial da alça intestinal, e a correção não foi completa com circulação umbilical.

Tabela 3. Estatísticas relativas aos dados quantitativos das gestantes e dos neonatos para cada técnica cirúrgica

| Variável por grupo                  | Mediana   | Mínimo | Máximo | Teste de Mann-Whitney |  |
|-------------------------------------|-----------|--------|--------|-----------------------|--|
| Idade materna no parto, anos        |           |        |        |                       |  |
| Silo 19                             |           | 14     | 29     | 0,9240                |  |
| EXIT-like                           | T-like 19 |        | 33     |                       |  |
| Idade gestacional no parto, semanas |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 37,1      | 35,3   | 38,4   | 0,0713                |  |
| EXIT-like                           | 35,5      | 35     | 36,4   |                       |  |
| Peso ao nascer, g                   |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 2.270     | 1.700  | 3.480  | 0,5083                |  |
| EXIT-like                           | 2.113     | 1.556  | 2.975  |                       |  |
| Ventilação mecânica, dias           |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 22        | 2      | 26     | 0,0169                |  |
| EXIT-like                           | 0,5       | 0      | 3      |                       |  |
| Nutrição parenteral, dias           |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 45        | 26     | 55     | 0,0104                |  |
| EXIT-like                           | 14,5      | 14     | 18     |                       |  |
| Nutrição mista, dias                |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 6         | 5      | 12     | 0,1262                |  |
| EXIT-like                           | 10,5      | 7      | 22     |                       |  |
| Nutrição enteral, dias              |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 53        | 31     | 60     | 0,0294                |  |
| EXIT-like                           | 25,5      | 24     | 36     |                       |  |
| Duração da internação, dias         |           |        |        |                       |  |
| Silo                                | 67        | 36     | 83     | 0,0726                |  |
| EXIT-like                           | 38,5      | 33     | 46     |                       |  |

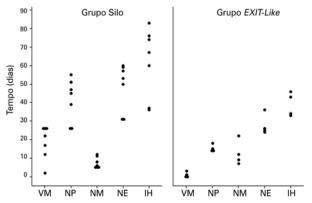


Figura 4. Gráfico de valores individuais para as variáveis: duração da ventilação mecânica (VM), nutrição parenteral (NP), nutrição mista (NM), nutrição enteral (NE) e duração de internação hospitalar (IH) para ambos os grupos estudados

(67 dias para o Grupo Silo e 38,7 dias para o Grupo *EXIT-like*), não foi encontrada diferença estatisticamente relevante entre os grupos se considerarmos o teste de Mann-Whitney, talvez devido à alta dispersão de dados no Grupo Silo.

Foi observada sepse neonatal em apenas um caso no Grupo *EXIT-like* e em três casos no Grupo Silo. Foi necessária a reintervenção em três dos sete pacientes (42,9%).

## **DISCUSSÃO**

A gastrosquise é um defeito congênito frequente que apresenta altos índices de morbidade neonatal e altos

custos para o sistema de saúde. Não há consenso sobre como deve ser feito o tratamento destes casos de malformação. O tipo de parto, a idade gestacional ao parto, o melhor momento para intervenção cirúrgica, e a técnica escolhida variam entre diferentes centros de saúde, já que evidências científicas são fracas e não apoiam, de forma consistente, nenhuma das estratégias terapêuticas. (12-17) Procuramos relatar nossa experiência inicial com um novo índice ultrassonográfico e uma técnica cirúrgica inovadora, a serem aplicados em casos de gastrosquise. O uso deste índice parece intuitivo, já que a dificuldade para reduzir as alças intestinais e o risco de síndrome compartimental estão diretamente relacionados ao grau do edema, que depende da magnitude do defeito na parede abdominal. Mostramos que, quando tal índice está favorável, a técnica EXIT-like é aplicável e parece segura, resultando em desfecho neonatal semelhante ou melhor do que em casos tratados com a abordagem clássica utilizada em nossa unidade.

Na maioria dos centros, a abordagem clássica consiste no fechamento primário nas primeiras horas de vida, com o neonato sob anestesia geral, em sala cirúrgica. Alguns centros de saúde realizam a correção primária na unidade de terapia intensiva neonatal como primeira tentativa de resolução. (12-17) O Silo é uma bolsa sintética elaborada para cobrir a gastrosquise afixado na parede abdominal, normalmente na fáscia. Após a colocação do Silo, as vísceras são reduzidas uma ou duas vezes por dia até que a redução esteja completa, o que ocorre de 1 a 14 dias após o parto. (12-17)

Os dois tipos de Silo mais utilizados são o pré-formado (silicone) e os customizados de PVC. O Silo pré--formado pode ser colocado na sala de parto, no berço, com o neonato sob sedação. Após finalizar a redução, ainda é necessário o fechamento da parede abdominal. Este tipo de Silo tem como objetivo reduzir a morbidade, diminuindo a necessidade de anestesia neonatal, pelo menos nas primeiras horas de vida. Os Silos customizados são geralmente "construídos" durante o procedimento cirúrgico, o que requer a anestesia geral neonatal.(12-17) A colocação do Silo e o fechamento tardio são recomendados principalmente em casos com desproporção víscero-abdominal, devido ao risco de síndrome compartimental. Apesar de não terem relevância científica, muitos estudos foram feitos comparando o Silo ao fechamento primário. (15) Há grande variedade de desenhos de estudo, populações consideradas e resultados obtidos. No entanto, nos grupos de neonatal tratados com a colocação do Silo, a ventilação mecânica foi necessária por um período mais curto,(13-15) o que também pode ser correlacionado a um menor risco de hiponatremia e hipoalbunemia.(19)

A técnica apresentada em nosso estudo é baseada no fechamento primário do defeito, mas sem a presença de ar nas alças intestinais, ou seja, no "minuto zero". Acreditamos que isso tenha sido a razão principal para a melhora nos parâmetros pós-natais estudados. O uso da técnica EXIT clássica levaria a estes resultados, mas, com a técnica apresentada, este procedimento pode ser bastante simplificado, evitando a anestesia geral materna e a necessidade de relaxamento uterino durante a correção do defeito. (20-26) Nesta nova técnica descrita, apenas a redução de víscera é feita com a circulação materna e, considerando-se que o procedimento costuma ser rápido, o feto pode ser totalmente exteriorizado, como em uma cesariana convencional, o que reduz de modo considerável o risco de atonia uterina e a necessidade de transfusão de sangue.

Na técnica *EXIT-like*, a analgesia fetal foi dada por meio da circulação transplacentária materna com utilização de remifentanil, iniciado 15 minutos antes da extração fetal. Este medicamento foi escolhido por cruzar a barreira placentária facilmente, e por seu uso em casos de *EXIT* em que não se recomenda anestesia geral. (27,28) A solução de sacarose é oferecida ao neonato para evitar que engula ar e por ter um impacto positivo na administração da dor. (29-31)

A escolha da técnica *EXIT-like* presume que o parto seja cesáreo. A opção por um parto pré-termo eletivo tardio, com 35 a 37 semanas de gestação, é controversa, mas estudos relevantes mostram que a idade gestacional média de partos espontâneos em casos de gastroquise é muito semelhante. Payne et al., mostraram que a prematuridade foi o único fator que demonstrou prognóstico mais favorável em comparação a outros parâmetros. Acreditamos que o baixo risco de complicações relacionadas à prematuridade tardia justifica e corrobora a antecipação do parto, bem como a potencial prevenção de danos às alças intestinais pela exposição prolongada ao líquido amniótico. (9,33)

Apesar de termos apenas quatro casos operados até o momento, ao analisarmos os resultados pós-operatórios, observamos desfechos mais favoráveis do que aqueles da técnica de colocação postergada de Silo, já utilizada em nosso centro. A tabela 4 mostra os resultados deste estudo comparando a correção primária e o fechamento tardio com colocação de Silo e dois outros estudos. (12,13) Notamos que, com a exceção do número de dias de ventilação assistida, que foi maior no grupo de fechamento primário, nenhum dos outros parâmetros apresenta diferenças estatisticamente significativas entre fechamento primário ou tardio com Silo. (12,13) Mesmo levando-se em conta que o resultado dos dois grupos foi diferente com relação ao número de dias de

Tabela 4. Comparação de resultados, considerando-se as técnicas EXIT-like, fechamento primário e colocação de Silo

|   | EXIT-like<br>n=4 | Silo<br>n=7 | Charlesworth et al. <sup>(13)</sup><br>n=67 | Charlesworth et al.(13)<br>n=89 | Stanger et al. <sup>(12)</sup><br>n=300 | Stanger et al. <sup>(12)</sup><br>n=379 |
|---|------------------|-------------|---|---------------------------------|---|---|
| Características                           | "Minuto zero"    | Silo        | Fechamento primário                         | Silo                            | Fechamento primário                     | Silo                                    |
| Dias de ventilação mecânica, média        | 1                | 18,71       | 5   | 3,5                             | 6,79                                    | 7,04                                    |
| Dias de nutrição parenteral, média        | 15,25            | 41,29       | 19  | 24                              | 16,5                                    | 17,7                                    |
| Dias de nutrição enteral exclusiva, média | 27,75            | 48,71       | 24  | 27                              | 44,3                                    | 43,6                                    |
| Dias de internação, média                 | 39               | 61,86       | 30  | 24                              | 56,6                                    | 53,8                                    |

internação hospitalar e nutrição parenteral/enteral, isto apenas reforçou a importância das diferenças encontradas em nosso grupo. Acreditamos que a diferença encontrada entre os dois estudos pode estar relacionada a diversos protocolos neonatais usados nos dois centros, em relação aos critérios de introdução de nutrição e alta hospitalar. Em nossos casos, considerando-se que o mesmo protocolo foi aplicado nos Grupos Silo e EXITlike, isto pode indicar que esta diferença está relacionada à nova técnica cirúrgica aqui descrita. Em nossa experiência, o procedimento EXIT-like reduziu significativamente o número de dias de transição nutricional e a alta hospitalar. Por outro lado, ainda não é possível afirmar que esta redução ocorreu devido à técnica cirúrgica ou à prematuridade tardia proposta no Grupo EXIT-like, em comparação com gestação a termo, usada no Grupo Silo deste estudo.

Sabe-se que a exposição das alças intestinais ao líquido amniótico durante a gestação pode levar ao espessamento da parede, alterando o peristaltismo e a absorção de mucosa. Por isto, muitos marcadores ultrassonográficos foram descritos em tentativas de demonstrar a gravidade da gastrosquise, e puderam prever o aumento da morbidade e da mortalidade neonatais. (1,6,34,35) Embora a aplicabilidade clínica destes parâmetros seja controversa, não há dúvidas de que as lesões nas alças intestinais progridem durante a gestação. Tais lesões são causadas provavelmente pela exposição progressiva ao líquido amniótico e/ou isquemia de tecido associada à dilatação intestinal, levando ao defeito na parede abdominal. Desta forma, o controle ultrassonográfico seriado com o uso do SRI pode ser importante, já que o aumento e a dilatação da espessura das alças intestinais são levados em conta no cálculo. Mesmo assim, outros estudos são necessários para fazer a validação clínica

Já que nem todos os casos serão apropriados para o procedimento *EXIT-like*, a opção da abordagem clássica continua disponível, sendo importante enfatizar aos pacientes que, dependendo dos achados cirúrgicos, a conversão para esta abordagem será obrigatória. Para isto, uma segunda sala de cirurgia deve sempre estar

preparada no caso de o procedimento alternativo ter que ser abandonado.

Acreditamos que nossos achados ainda não podem estabelecer o impacto real do uso de SRI em casos de gastrosquise para escolher a técnica cirúrgica apropriada e o melhor momento para o parto. Porém, a superioridade do procedimento *EXIT-like* em nossos casos poderia estimular a realização de futuras pesquisas.

Importantes limitações destes estudo foram o número pequeno de casos e a comparação do grupo estudado e controles. No entanto, pelo menos em nosso centro, esta nova abordagem representou uma melhoria neonatal significativa, o que pode ser também uma realidade em outros centros com recursos financeiros escassos, especialmente em países com longas distâncias territoriais.

### **CONCLUSÃO**

O uso do procedimento *EXIT-like* para a correção de gastrosquise foi viável em casos selecionados e pode melhorar o desfecho neonatal, ao reduzir o tempo de permanência na unidade de terapia intensiva neonatal, além da morbidade neonatal. A bem-sucedida aplicação desta nova abordagem "minuto-zero" é um importante primeiro passo para a introdução de uma mudança intuitiva e necessária no tratamento de gastrosquise, especialmente em países com poucos recursos financeiros. Acreditamos que nossos resultados garantirão a realização de um ensaio clínico.

## **REFERÊNCIAS**

- 1. Lepigeon K, Van Mieghem T, Vasseur Maurer S, Giannoni E, Baud D. Gastroschisis what should be told to parents? Prenat Diagn. 2014;34(4):316-26. Review.
- Corey KM, Hornik CP, Laughon MM, McHutchison K, Clark RH, Smith PB. Frequency of anomalies and hospital outcomes in infants with gastroschisis and omphalocele. Early Hum Dev. 2014;90(8):421-4.
- Meller C, Barrio MG, Aiello H, Otaño L. Comment on "secondary bladder herniation in isolated gastroschisis justifies increased surveillance". Prenat Diagn. 2014;34(3):302-3.
- Calcagnotto H, Muller AL, Leite JC, Sanseverino MT, Gomes KW, Magalhães JA. [Associated factors for perinatal mortality in gastroschisis]. Rev Bras Ginecol Obstet. 2013;35(12):549-53. Portuguese.

- Overton TG, Pierce MR, Gao H, Kurinczuk JJ, Spark P, Draper ES, et al. Antenatal management and outcomes of gastroschisis in the U.K. Prenat Diagn. 2012;32(13):1256-62.
- Carnaghan H, Pereira S, James CP, Charlesworth PB, Ghionzoli M, Mohamed E, et al. Is early delivery beneficial in gastroschisis? J Pediatr Surg. 2014; 49(6):928-33; discussion 933.
- Grant NH, Dorling J, Thornton JG. Elective preterm birth for fetal gastroschisis. Cochrane Database Syst Rev. 2013;6:CD009394. Review.
- Nasr A, Wayne C, Bass J, Ryan G, Langer JC; Canadian Pediatric Surgery Network. Effect of delivery approach on outcomes in fetuses with gastroschisis. J Pediatr Surg. 2013;48(11):2251-5.
- Baud D, Lausman A, Alfaraj MA, Seward G, Kingdom J, Windrim R, et al. Expectant management compared with elective delivery at 37 weeks for gastroschisis. Obstet Gynecol. 2013;121(5):990-8.
- Youssef F, Laberge JM, Baird RJ; Canadian Pediatric Surgery Network (CAPSNet). The correlation between the time spent in utero and the severity of bowel matting in newborns with gastroschisis. J Pediatr Surg. 2015; 50(5):755-9.
- Segel SY, Marder SJ, Parry S, Macones GA. Fetal abdominal wall defects and mode of delivery: a systematic review. Obstet Gynecol. 2001;98(5 Pt. 1):867-73.
- Stanger J, Mohajerani N, Skarsgard ED; Canadian Pediatric Surgery Network (CAPSNet). Practice variation in gastroschisis: factors influencing closure technique. J Pediatr Surg. 2014;49(5):720-3.
- Charlesworth P, Akinnola I, Hammerton C, Praveena P, Desai A, Patel S, et al. Preformed silos versus traditional abdominal wall closure in gastroschisis: 163 infants at a single institution. Eur J Pediatr Surg. 2014;24(1):88-93.
- Chesley PM, Ledbetter DJ, Meehan JJ, Oron AP, Javid PJ. Contemporary trends in the use of primary repair for gastroschisis in surgical infants. Am J Surg. 2015;209(5):901-5; discussion 905-6.
- Ross AR, Eaton S, Zani A, Ade-Ajayi N, Pierro A, Hall NJ. The role of preformed silos in the management of infants with gastroschisis: a systematic review and meta-analysis. Pediatr Surg Int. 2015;31(5):473-83. Review.
- Allin BS, Tse WH, Marven S, Johnson PR, Knight M. Challenges of improving the evidence base in smaller surgical specialities, as a highlighted by a systematic review of gastroschisis management. PLos One. 2015;10(1): e0116908. Review.
- Schlueter RK, Azarow KS, Hines AG, Varman M, Abdessalam SF, Raynor SC, et al. Identifying strategies to decrease infectious complications of gastroschisis repair. J Pediatr Surg. 2015;50(1):98-101.
- Svetliza J, Espinosa AM, Gallo M, Vélez MA. New perinatal management by the procedure Simil-EXIT. Rev Colomb Salud Libre. 2011;10:11-22.
- Tannuri AC, Sbragia L, Tannuri U, Silva LM, Leal AJ, Schimidt AF, et al. Evolution of critically ill patients with gastroschisis from three tertiary centers. Clinics (São Paulo). 2011;66(1):17-20.

- Laje P, Howell LJ, Johnson MP, Hedrick HL, Flake AW, Adzick NS. Perinatal management of congenital oropharyngeal tumors: the ex utero intrapartum treatment (EXIT) approach. J Pediatr Surg. 2013;48(10):2005-10.
- Laje P, Johnson MP, Howell LJ, Bebbington MW, Hedrick HL, Flake AW, et al. Ex utero intrapartum treatment in the management of giant cervical teratomas. J Pediatr Surg. 2012;47(6):1208-16. Review.
- Sviggum HP, Kodali BS. Maternal anesthesia for fetal surgery. Clin Perinatol. 2013;40(3):413-27. Review.
- Brusseau R, Mizrahi-Arnaud A. Fetal anesthesia and pain management for intrauterine therapy. Clin Perinatol. 2013;40(3):429-42. Review.
- Taghavi K, Beasley S. The ex utero intrapartum treatment (EXIT) procedure: application of a new therapeutic paradigm. J Paediatr Child Health. 2013; 49(9):E420-7. Review.
- Ngamprasertwong P, Vinks AA, Boat A. Update in fetal anesthesia for the ex utero intrapartum treatment (EXIT) procedure. Int Anesthesiol Clin. 2012; 50(4):26-40. Review.
- Dighe MK, Peterson SE, Dubinsky TJ, Perkins J, Cheng E. EXIT procedure: technique and indications with prenatal imaging parameters for assessment of airway patency. Radiographics. 2011;31(2):511-26.
- Kan RE, Hughes SC, Rosen MA, Kessin C, Preston PG, Lobo EP. Intravenous remifentanil: placental transfer, maternal and neonatal effects. Anesthesiology. 1998;88(6):1467-74.
- Fink RJ, Allen TK, Habib AS. Remifentanil for fetal immobilization and analgesia during the ex utero intrapartum treatment procedure under combined spinalepidural anaesthesia. Br J Anaesth. 2011;106(6):851-5.
- 29. Masters-Harte LD, Abdel-Rahman SM. Sucrose analgesia for minor procedures in newborn infants. Ann Pharmacother. 2001;35(7-8):947-52. Review.
- Anand KJ; International Evidence-Based Group for Neonatal Pain. Consensus statement for the prevention and management of pain in the newborn. Arch Pediatr Adolesc Med. 2001;155(2):173-80. Review.
- Stevens B, Yamada J, Ohlsson A. Sucrose for analgesia in newborn infants undergoing painful procedures. Cochrane Database Syst Rev. 2010;(1): CD001069. Review. Update in: Cochrane Database Syst Rev. 2013;1:CD001069.
- 32. Payne NR, Pfleghaar K, Assel B, Johnson A, Rich RH. Predicting the outcome of newborns with gastroschisis. J Pediatr Surg. 2009;44(5):918-23.
- Logghe HL, Mason GC, Thornton JG, Stringer MD. A randomized controlled trial of elective preterm delivery of fetuses with gastroschisis. J Pediatr Surg. 2005;40(11):1726-31.
- 34. Kuleva M, Khen-Dunlop N, Dumez Y, Ville Y, Salomon LJ. Is complex gastroschisis predictable by prenatal ultrasound? BJOG. 2012;119(1):102-9.
- Page R, Ferraro ZM, Moretti F, Fung KF. Gastroschisis: antenatal sonographic predictors of adverse neonatal outcome. J Pregnancy. 2014;2014:239406. Review.