

Síndrome de apneia obstrutiva do sono de causa insólita - A propósito de um caso clínico

Obstructive sleep apnea syndrome of unusual cause - Clinical case

Nadia Hassamo Ramos • Carlos Alexandre • Luís Antunes

RESUMO

Introdução: Os autores descrevem um caso clínico de SAOS de grau ligeiro, cujo estudo revelou neoformação parafaríngea direita a nível da apófise estilóide e adjacente à base do crânio. **Material e Métodos:** Doente do sexo feminino de 58 anos com o diagnóstico de síndrome de apneia obstrutiva do sono de grau ligeiro. Efectuou uvulopalatoplastia em 2008 sem resolução da doença. Estruturalmente apresentava uma classe I do estágio anatómico modificado de Friedman, com classe dentoesquelética de Angle tipo 1 e índice de massa corporal de 24. O estudo endoscópico das vias aerodigestivas superiores não revelou aspectos morfológicos a salientar. Solicitámos exames complementares de diagnóstico sequenciais para avaliação de eventuais anomalias da via aérea superior. **Resultados:** Através da imagiologia concluiu-se da existência de lesão com características expansivas centrada ao espaço parafaríngeo direito, de configuração ovalada, com volume de cerca de 20cm³ que condicionava desvio medial da vertente direita da orofaringe. Em face do estudo efectuou-se cirurgia electiva tendo o exame anatomopatológico revelado o diagnóstico de adenoma pleomórfico de glândula salivar menor.

Conclusão: A síndrome de apneia obstrutiva do sono resulta de alterações estruturais das vias aéreas superiores. A determinação do nível de obstrução é o ponto fulcral para o tratamento desta entidade nosológica. Este caso representa uma etiologia insólita e rara que no entanto cumpre, pela sua localização, os critérios requeridos para a existência de SAOS. **Palavras-chave:** apneia obstrutiva, sono, morfologia, imagiologia

ABSTRACT

Introduction: The authors describe a clinic case of mild obstructive sleep apnea syndrome, whose study has revealed a right parapharyngeal neoformation at the level of the styloid apophysis, adjacent to the skull base.

Material and Methods: 58 year old female patient with with a mild obstructive sleep apnea syndrome diagnosis. The patient had been submitted to uvulopalatoplasty in 2008 without clinical resolution.

Structurally the patient presented a classe I modified Friedman's anatomic classification for Obstructive Sleep Apnea Syndrome, with a type 1 Angle's class and body mass index of 24. The endoscopic study of the upper airway has not revealed morphological aspects to point out. Sequential diagnostic exams were requested to evaluate possible anomalies of the upper airways.

Results: Imaging studies revealed the existence of a expansive lesion centered to the right parapharyngeal area, with oval configuration, and an estimated volume of 20 cm³, conditioning medial deviation of the oropharynx. Elective surgery was performed. The histology was compatible with pleomorphic adenoma of a minor salivary gland.

Conclusion: The obstructive sleep apnea syndrome results from structural changes of the upper airway. The determination of the obstructive level is corner stone for decision about treatment planning of this entity.

This case represents an unusual and rare etiology that nonetheless fulfils the required criteria for obstructive sleep apnea syndrome to occur, simply because of its location.

Keywords: Obstructive apnea, sleep, morphology, imaging

Abbreviated title: Obstructive sleep apnea syndrome of unusual cause

INTRODUÇÃO

A apneia obstrutiva do sono caracteriza-se por episódios de obstrução faríngea completa ou parcial durante o sono.

Os aparelhos que mantêm uma pressão positiva contínua da via aérea durante o sono continuam a ser o gold standard no tratamento da apneia obstrutiva do sono. No entanto, é significativo o número de doentes incapazes de adaptação a estes aparelhos no tratamento a longo prazo, procurando uma solução cirúrgica.^{1, 2, 3}

A uvulopalatofaringoplastia (UPP) continua a ser a técnica mais frequentemente apresentada pelos cirurgiões como tratamento cirúrgico da síndrome de

Nadia Hassamo Ramos
Interno do Internato Complementar de Otorrinolaringologia
Hospital Garcia de Orta

Carlos Alexandre
Assistente Hospitalar Graduado de Otorrinolaringologia
Hospital Garcia de Orta

Luís Antunes
Director de Serviço de Otorrinolaringologia
Hospital Garcia de Orta

Correspondência:
Nadia Hassamo Ramos
Av. Torrado da Silva, Pragal - 2801-951 ALMADA
T. 21 272 72 95
nadiaramosorl@gmail.com

apneia obstrutiva do sono.^{1,2,4}

Esta técnica resulta na maioria dos casos na diminuição da percepção de roncopatia, mas não na resolução da patologia de base como se verifica pelos resultados na Polisonografia de controlo.² Com efeito, o sucesso da UPP varia entre os 25 e os 85% dependendo das definições de sucesso dos vários estudos.² Meta-análises existem indicando que, em doentes não seleccionados, a UPP tem uma taxa de sucesso de 40%.^{1,2}

Os autores pretendem mostrar que é necessária uma avaliação mais completa do doente e uma correcta adaptação da solução cirúrgica a cada doente em particular.

MATERIAIS E MÉTODOS

Doente do sexo feminino de 58 anos que se apresenta em consulta com o diagnóstico prévio de roncopatia crónica associada a síndrome de apneia do sono de grau ligeiro (Índice de apneia/hipopneia = 8).

Dois anos antes refere ter realizado uvulopalatoplastia, não tendo conseguido a resolução da sua doença de base. O estudo clínico da doente baseou-se no sistema de estadiamento anatómico modificado de Friedman associado ao estadiamento de severidade baseado na Polisonografia² e ao estudo de alterações estruturais da via aérea superior através de exame de imagem - Tomografia computadorizada e/ou Radiografia da face para estudo cefalométrico.^{3,5,6}

A nasofaringolaringoscopia é realizada, nunca substituindo os exames de imagem referidos anteriormente, e sabendo que apenas fornece uma ideia aproximada das dimensões da faringe, não permitindo efectuar medições exactas.^{7,8,9}

O sistema anatómico modificado de Friedman baseia-se na observação da cavidade oral com a língua em posição neutra (sem protusão) registando a posição da última em relação ao palato e tamanho das amígdalas.^{1,2}

A estes dados acrescenta-se o índice de massa corporal (IMC) e o registo de alterações craniofaciais relevantes. Distribuem-se os doentes em classes de I a IV consoante os achados morfológicos.²

Sistema anatómico modificado de Friedman¹⁻²:

Posição do palato mole de Friedman:

Grau I: São visíveis na totalidade a úvula e as amígdalas ou pilares amigdalinos, Grau II: A úvula é visível mas não as amígdalas, Grau III: Apenas o palato mole é visível, Grau IV: Apenas o palato duro é visível.

Volume das amígdalas:¹⁻²

Grau 0: Doente amigdalectomizado, Grau 1: As Amígdalas encontram-se dentro da fossa amigdalina, Grau 2: As amígdalas encontram-se ao nível do bordo livre dos pilares amigdalinos, Grau 3: As amígdalas ultrapassam os pilares amigdalinos mas não chegam à linha média, Grau 4: As amígdalas encontram-se na linha média.

Índice de Massa Corporal:¹⁻²

Calculado dividindo o peso em quilogramas pela altura ao quadrado em metros.

Estádios:¹⁻²

I: posição do palato I ou II, amígdalas tamanho 3 ou 4 e IMC inferior a 40, II: posição do palato I ou II, amígdalas de tamanho 0, 1 ou 2 ou posição do palato III ou IV, amígdalas de tamanho 3 ou 4 e IMC inferior a 40, III: posição do palato III ou IV, amígdalas tamanho 0, 1 ou 2 e/ou IMC inferior a 40, IV: doentes com deformações craniofaciais significativas ou outras alterações anatómicas com IMC superior a 40.

As deformações craniofaciais podem ser classificadas em três categorias major:⁵⁻⁶

(1) Displasias dentárias, (2) Displasias esqueléticas, (3) Displasias dento-esqueléticas.

A grande porção de doentes cai na última categoria que se caracteriza por uma oclusão alterada associada a uma relação desproporcional entre a maxila e a mandíbula. Dentro das variadas classificações e termos existentes optou-se pela utilização da escala das relações dento-esqueléticas de Angle modificada, pela sua simplicidade, pois permite um diagnóstico de suspeição sobre alterações na via aérea, não dispensando uma investigação mais objectiva da última.^{6,7}

Classificação oclusal de Angle:^{6,7}

Baseia-se na relação do primeiro molar da mandíbula com o primeiro molar da maxila:

Classe I (oclusão neutra): A cúspide mesiobucal do primeiro molar da maxila articula com o sulco mesiobucal do primeiro molar da mandíbula.

Classe II (disto-oclusão): O primeiro molar da mandíbula articula numa posição distal à cúspide mesiobucal do primeiro molar da maxila.

Classe III (mesio-oclusão): O sulco mesiobucal do primeiro molar da mandíbula é mesial à cúspide mesiobucal do primeiro molar da maxila.

RESULTADOS

Em termos estruturais a doente apresentava uma classe I do estádio anatómico modificado de Friedman, associada a uma classe 1 dento-esquelética de Angle e índice de massa corporal de 24. A orofaringe não revelava alterações.

A tomografia computadorizada da faringe e seios perinasais revelou a “existência de lesão com características expansivas, limites regulares e contornos bem definidos, centrada ao espaço parafaríngeo direito, com máximos eixos que se estimam em cerca de 27x25x29mm, perfazendo em termos volumétricos aproximadamente 20 cm³.” (Figuras 1 e 2)

Não era identificável “continuidade da lesão com o lobo profundo da parótida, com a artéria carótida interna

que se encontrava localizada posteriormente à lesão (da qual se individualiza) ou com a base do crânio.”

Finalmente determinava “desvio medial da vertente direita do espaço mucoso da orofaringe, com desvio para a esquerda da sua coluna aérea.”

Não eram visualizadas “formações adenopáticas com características semiológicas que sugerissem natureza patológica.”

A nasofaringolaringoscopia não revelou a lesão.

Foi colocado o diagnóstico diferencial em termos de imagem entre adenoma pleomórfico e schwannoma. Não sendo viável a realização de citologia aspirativa pela localização profunda e o risco inerente à proximidade da artéria carótida, foi realizada cervicotomia paramediana

direita estendida até à linha mediana cervical para excisão e exame histológico extemporâneo e definitivo da lesão.

A cervicotomia alargada foi efectuada de modo a otimizar a exposição do campo operatório e assegurar o controlo dos actos cirúrgicos, evitando osteotomias mandibulares.

O exame extemporâneo intra-operatório revelou neoplasia mista com áreas epiteliais, sugerindo provável adenoma pleomórfico.

Foi efectuada a excisão em bloco da massa através da incisão tentando evitar ao máximo o extravasamento de material patológico para o campo cirúrgico e reduzir o potencial de recidiva. Foi removido um “nódulo castanho-amarelado e elástico, de superfície bosselada e lisa, medindo 3,5x2,5x2,0cm”.

O exame histológico da massa parafaríngea foi compatível com adenoma pleomórfico de glândula salivar menor. A lesão estava capsulada invadindo a margem cirúrgica apenas no local onde fora realizada a biopsia extemporânea sendo as restantes margens cirúrgicas livres.

Devido ao risco inerente de recidiva neste tipo de lesão e acrescida agressividade dos carcinomas pós adenoma pleomórfico das glândulas salivares menor, assim como pela sua localização profunda e relações anatómicas, optou-se pela realização de radioterapia.

Verificou-se a resolução da sintomatologia de base confirmada por Polisonografia que se revelou negativa. É possível apreciar o aumento do diâmetro da via aérea superior após a cirurgia pela tomografia axial computadorizada de controlo. (Figuras 3 e 4)

FIGURA 1

Tomografia computadorizada de partes moles do pescoço: massa parafaríngea direita em corte axial (estrela)

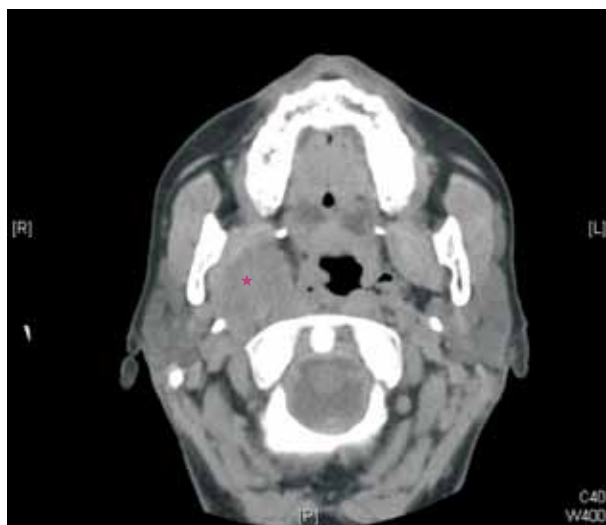


FIGURA 2

Tomografia axial computadorizada das partes moles do pescoço - Corte coronal: massa parafaríngea direita (estrela)



FIGURA 3

Tomografia axial computadorizada das partes moles do pescoço – corte axial: pós operatório

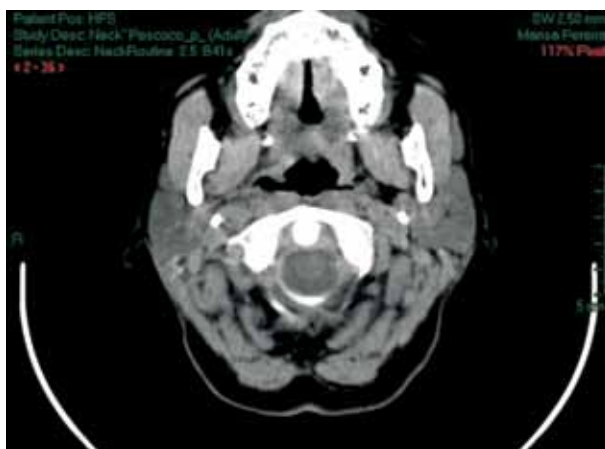


FIGURA 4

Tomografia axial computadorizada das partes moles do pescoço - Corte coronal: pós-operatório



DISCUSSÃO

Logicamente o resultado cirúrgico para a correcção de uma anomalia está mais dependente da anatomia que da fisiologia^{1,2,6,10} o que reforça a ideia que o sucesso da cirurgia da apneia obstrutiva do sono estará relacionado mais com o estágio anatómico do doente do que com a severidade fisiológica baseada na Polisonografia.²

É necessária a identificação de indicadores de prognóstico que levam à estratificação dos doentes para adequar as técnicas cirúrgicas e melhorar a qualidade terapêutica do doente.^{1,2,6}

A nossa doente apresentava síndrome de apneia obstrutiva do sono de grau ligeiro, encontrando-se em estágio I do sistema anatómico de Friedman modificado que, segundo Li *et al*⁸, terá uma taxa de sucesso de 100% nos doentes com apneia obstrutiva do sono submetidos a uvulopalatofaringoplastia. O facto de a cirurgia ter sido ineficaz revela que o estudo clínico através do exame objectivo e da polisonografia continua a não ser suficiente para a avaliação do doente com apneia do sono.^{7,10,11}

Faz sentido associar ao estudo fisiológico dado pela Polisonografia, e ao estágio anatómico modificado de *Friedman*, com as suas variadas determinantes, uma avaliação radiológica da face e da via aérea com medições objectivas do espaço aéreo nos seus vários níveis e das relações anatómicas tanto a nível esquelético como das partes moles.

Os exames de imagem permitem o estudo da via aérea a três níveis: hipofaringe, orofaringe e nasofaringe. Possibilita ainda uma análise mais clara do esqueleto facial e da sua relação com a diminuição do calibre do espaço aéreo, determinando a posição da mandíbula, maxila ou mento.^{5,10}

A imagem da via aérea confere informação adicional a respeito da anatomia da mesma visto que o exame clínico nem sempre é suficiente na determinação dos factores anatómicos que contribuem para gerar doença.^{5,11}

O caso apresentado reflecte a última afirmação. Apenas o exame de imagem foi capaz de identificar a etiologia e o nível de obstrução da via aérea onde todos os outros exames falharam.

É necessária uma abordagem sistemática do doente com apneia obstrutiva do sono. A sintomatologia do doente, o exame objectivo, o exame fisiológico dado pela polisonografia e os exames de imagens fazem parte de um conjunto de passos que deverão ser dados para uma avaliação clara e correcta destes doentes.

Esta avaliação permite a adequação da terapêutica a cada doente, neste caso a remoção da massa com efeito de massa parafaríngeo, versus a uvulopalatoplastia sem o resultado clínico pretendido.

CONCLUSÃO

A síndrome de apneia obstrutiva do sono resulta de alterações estruturais das vias aéreas superiores. A determinação do nível de obstrução é fulcral para o tratamento desta entidade. Para tal um estudo sistemático e completo é essencial.

Este caso representa uma etiologia insólita e rara que no entanto cumpre, pela sua localização, os critérios requeridos para a existência de SAOS, apenas descoberto e correctamente tratado após uma avaliação clínica adequada.

Referências bibliográficas:

1. Friedman M, Ibrahim H, Bass L. Clinical Staging for sleep-disordered breathing. *Otolaryngology-Head and Neck Surgery* 2002; 127: 13-21
2. Li HY, Wang PC, Lee LA, Chen NH et al. Prediction of Uvulopalatopharyngoplasty Outcome: Anatomy-Based Staging System Versus Severity-Based Staging System. *SLEEP* 2006;29(12):1537-1541
3. Balbani APS, Formigoni GGS. Ronco e síndrome da apnéia obstrutiva do sono. *Rev Ass Med Brasil* 1999; 45(3): 273-8
4. Colin WB. Comprehensive reconstructive surgery for obstructive sleep apnea KWA 2004 Apr; 12:154-162
5. Filho VAP, Jeremias F, Tedeschi L, Souza RF. Avaliação cefalométrica do espaço aéreo posterior em pacientes com oclusão Classe II submetidos à cirurgia ortognática. *R Dental Press Ortodon Ortop Facial*.2007; 12 (5):119-125
6. Schellenberg JB, Maislin G, Schwab RJ. Physical Findings and the Risk for Obstructive Sleep Apnea - The Importance of Oropharyngeal Structures. *Am J Respir Crit Care Med* 2000;162:740-748
7. Togeiro SM, Chaves Jr. CM, Palombini L, Tufik S et al. Evaluation of the upper airway in obstructive sleep apnoea. *Indian J Med Res* 131, 2010 Feb, pp 230-235
8. Núñez-Fernández D, García-Osornio M, Vokurka J, Upper Airway Evaluation in Snoring and Obstructive Sleep Apnea <http://emedicine.medscape.com/article/868925-overview>
9. Gregório M, Jacomelli M, Figueiredo A, Cahali M et al. Evaluation of airway obstruction by Nasopharyngoscopy: comparison of the Müller maneuver versus induced sleep. *Rev Bras Otorrinolaringol* 2007;73(5):618-22
10. Kiliç AS, Arslan SG, Kama JD, Ozer T et al. Effects on the sagittal pharyngeal dimensions of protraction and rapid palatal expansion in Class III malocclusion subjects. *European Journal of Orthodontics* 2008; 30: 61-66
11. Sakakibara H, Tong M, Matsushita K, Hirata M et al. Cephalometric abnormalities in non-obese and obese patients with obstructive sleep apnoea. *Eur Respir J* 1999; 13: 403-410