

Abordagem terapêutica na sialorréia em paralisia cerebral: revisão sistemática

Therapeutic Approach in Drooling on Cerebral Palsy: Systematic Review

BIANCA LISBOA CORSO¹, VALÉRIA CASSEFO SILVEIRA², ANNY M. PAQUIER BINHA², THEREZINHA ROSANE CHAMLIAN³

Data de recebimento: 17/06/2010

Data da aprovação: 13/02/2011

Resumo

Introdução: A sialorréia é o aumento involuntário do fluxo salivar que ultrapassa a margem da boca. Pode ocasionar problemas na saúde e na qualidade de vida dos pacientes com doença neurológica crônica. Diversas formas de manejo para a sialorréia são descritos. **Objetivo:** Essa revisão visa pesquisar a terapêutica da sialorréia em Paralisia Cerebral. **Metodologia:** Pesquisa realizada nos portais PubMed, Biblioteca Virtual de Saúde e Ovid, limitando o assunto, o tempo e o idioma. Selecionados apenas estudos intervencionistas em pacientes com 18 anos ou menos e com diagnóstico de Paralisia Cerebral. **Resultado:** Sete artigos foram descritos, resumidamente, quanto ao tipo de intervenção, resultados, nível de evidência, efeitos adversos e método de avaliação. **Conclusão:** Verificou-se pouca reprodutibilidade na prática médica, baixo nível de evidência e a necessidade de novos estudos.

Palavras chave: Sialorréia/terapia, Paralisia cerebral

Abstract

Introduction: Drooling is the involuntary salivary flow that exceeds the margin of the mouth. It can cause problems in health and quality of life of patients with chronic neurological disease. Many management options for drooling are described. **Objective:** This review aims to investigate the treatment of drooling in cerebral palsy. **Methods:** The research was conducted at PubMed, Virtual Health Library and Ovid, limiting the subject, time and language. Only interventional studies in patients with 18 years or less diagnosed with Cerebral Palsy were selected. **Results:** Seven selected articles were briefly described in tables based on type of intervention, results, level of evidence, adverse effects and method of evaluation. **Conclusion:** Studies have shown that there was poor reproducibility in medical practice, low level of evidence and need for further studies.

Keywords: Sialorrhea/therapy, Cerebral palsy

1. Médica residente do 3º ano de Medicina Física e Reabilitação da Universidade Federal de São Paulo - Escola Paulista de Medicina

2. Médica assistente da Disciplina de Fisiatria do Departamento de Ortopedia e Traumatologia da Universidade Federal de São Paulo - Escola Paulista de Medicina; Fisiatras do Lar Escola São Francisco - Centro de Reabilitação e da AACD (Associação de Assistência à Criança Deficiente).

3. Chefe da Disciplina de Fisiatria do Departamento de Ortopedia e Traumatologia da Universidade Federal de São Paulo - Escola Paulista de Medicina; Diretora Técnica do Lar Escola São Francisco - Centro de Reabilitação

Introdução

A sialorréia é o aumento do fluxo salivar que ultrapassa a margem da boca, de forma involuntária e passiva, devido a uma inabilidade de manuseio da secreção oral^{1,2}. Normalmente ocorre até os dois anos de idade e ocasionalmente entre os 4 e 6 anos durante a dentição; tende a cessar após a fase de maturação da cavidade oral, sendo considerada patológica quando permanece após essa fase¹⁻⁴.

Quando patológica, a sialorréia pode ocorrer devido a doenças neuromusculares, hipersecreção salivar e por alteração da anatomia bucal. Pode produzir efeitos negativos na saúde e na qualidade de vida, especialmente em pacientes com doenças neurológicas crônicas⁵⁻⁷.

As consequências da sialorréia incluem: dermatite facial, odor fétido, aumento de infecções periorais e orais, dificuldade de higiene, necessidade de mudanças frequentes de roupas, danos

de materiais escolares e outros equipamentos utilizados pela criança, isolamento social, alteração do processo mastigatório e da fala, riscos de aspiração e perda de fluidos e eletrólitos, gerando um grande impacto na vida dos pacientes e seus cuidadores⁵.

Na paralisia cerebral não está totalmente clara qual a fisiopatologia da sialorréia. Alguns autores acreditam que ocorra uma disfunção motora oral e outros que existe uma associação entre hipersalivação e mecanismo insuficiente para remoção da saliva^{5,8}.

Os pacientes com paralisia cerebral apresentam fatores que predis põem a sialorréia, tais como: dificuldade de formação de bolo alimentar, redução do vedamento labial, inabilidade de sucção e mastigação, controle cervical ruim, diminuição da movimentação da língua, redução da sensibilidade oral, má oclusão dentária, incoordenação da musculatura orofacial e obstrução das vias aéreas. O grau de concentração nas tarefas e o estado emocional podem agravar a sialorréia^{5,8}.

Devido ao quadro multifatorial, na literatura estão descritas diversas formas de manejo terapêutico, tais como: terapia oro-motora, modificação comportamental via biofeedback, terapia de regulação orofacial, terapia medicamentosa, radioterapia e tratamento cirúrgico. Modalidades minimamente invasivas, como injeção de toxina botulínica, foto-coagulação e acupuntura têm sido descritas⁸⁻¹¹.

Devido a essa diversidade terapêutica para a sialorréia, este estudo tem como objetivo pesquisar na literatura quais as modalidades de tratamento para este sintoma na paralisia cerebral.

Metodologia

Estratégia de pesquisa

A pesquisa foi realizada nos portais PubMed, Biblioteca Virtual de Saúde e Ovid, utilizando como limites: o “asunto”, através do termo “drooling AND cerebral palsy” encontrando, respectivamente, 177, 152 e 91 artigos; a “data” de publicação dos artigos de 1999 até junho de 2009, com 77, 66 e 77 artigos, res-

pectivamente e o “idioma” inglês com respectivos 55, 58 e 60 artigos.

Seleção dos artigos

O artigo era incluído se apresentasse as seguintes características: reportar efeitos de tratamentos em sialorréia; os participantes dos estudos deveriam ter idade menor ou igual a 18 anos e diagnóstico apenas de paralisia cerebral. Foram excluídos relatos de caso; séries de casos; revisões bibliográficas ou sistemáticas e estudos observacionais sem abordagem terapêutica; notas; comentários; prevalências; resumos ou textos completos não acessíveis pela internet e outras doenças neurológicas.

Extração de dados

Os artigos foram revisados por dois pesquisadores após determinação dos critérios de inclusão e exclusão, através do título e do resumo. Os artigos que não apresentassem todas as características dos critérios de seleção no resumo foram averiguados através do texto completo, quando acessível. Foram examinados 173 artigos e foram excluídos 166 artigos.

Dos artigos excluídos, 125 foram por se tratarem de relato de caso, série

de caso, notas, estudos observacionais e revisões bibliográficas não sistemáticas; sete por serem resumos ou textos completos não acessíveis pela internet; nove excluídos devido aos participantes dos estudos serem maiores de 18 anos e 25 excluídos por outros motivos, como outra doença neurológica, referência repetida em mais que uma revista e outros assuntos não relacionados com nossa pesquisa.

Nível de evidência dos artigos

O nível de evidência dos artigos foi avaliado através da revisão disposta pela American Academy of Cerebral Palsy and Developmental Medicine (AACPD), conforme quadro 1.

Resultados

No quadro abaixo estão descritos, resumidamente, os artigos científicos segundo autores, ano, desenho, tipo de intervenção, população, os resultados e o nível de evidência conforme AACPD.

O quadro 3 resume os efeitos colaterais descritos.

Cada estudo apresentou um método de avaliação distinto, algumas vezes utilizando as mesmas escalas para mensuração da sialorréia, conforme o quadro 4.

Quadro 1 - Nível de evidência conforme AACPD

Quadro 1 - Nível de evidência conforme AACPD	
Níveis de Intervenção	
I	Revisão Sistemática de Ensaios Clínicos Randomizados (RCTs) Amplio RCT (com intervalo de confiança estreito) (n>100)
II	Menor RCTs (com maior intervalo de confiança) (n<100) Revisão Sistemática de estudos Coorte “Resultados de Investigação” (estudo ecológico muito grande)
III	Estudos Coorte (com grupo controle) Revisão Sistemática de estudos Caso Controle
IV	Série de Casos Estudo Coorte sem grupo controle (por exemplo: com grupo controle histórico) Estudo Caso controle
V	Opinião de especialista Estudo de Caso ou relato Pesquisa de banco de dados Opinião de especialista com base em pesquisa teórica ou fisiológica Senso comum/anedotas

Quadro 2 – Descrição resumida dos artigos.					
Autor/ano	Desenho	Intervenção	População	Resultados	Nível de Evidência
Alrefai AH, et al /200912	Ensaio clínico controlado, randomizado, duplo cego	TBA x Placebo em glândula parótida	24 crianças entre 21 meses e 7 anos	Grupo com TBA: melhora da gravidade e frequência da sialorréia com altas doses	II
Puraviappan P, et al /200713	Prospectivo	Realocação bilateral do ducto submandibular	8 crianças entre 6 e 14 anos	Melhora na gravidade da sialorréia em 87,5% e 100% de satisfação	IV
Banerjee KJ, et al /200614	Descritivo, prospectivo, não cego	Aplicação de TBA nas glândulas submandibular e parótidas	20 crianças entre 6 e 16 anos	Melhora significativa na frequência e severidade da sialorréia, melhora na qualidade de vida e redução das trocas de babadores por dia	IV
Johnson HM, et al /200415	Ensaio clínico	Efeito do uso do “ISMAR” na melhora da sialorréia, do comer e do beber	18 crianças entre 4 e 13 anos	Melhora na frequência e severidade da sialorréia, assim como no comer e beber	IV
Savarese R, et al /200416	Prospectivo não cego	Uso de TBA na glândula submandibular para melhora da sialorréia	21 crianças entre 5 e 18 anos	Melhora significativa na frequência e severidade da sialorréia, assim como diminuição da produção salivar e número de babadores usados	IV
Jongierius PH, et al /200417	Ensaio clínico controlado	Comparação de uma única dose de TBA na glândula submandibular e escopolamina na sialorréia	45 crianças entre 3 e 18 anos	Ambos apresentaram melhora na frequência e gravidade da sialorréia, porém a escopolamina apresentou mais efeitos colaterais (82.2%)	IV
Hoon Jr AH, et al /200118	Retrospectivo	Uso de Artane nas funções de membros superiores e inferiores, linguagem e sialorréia	22 crianças entre 1 e 12 anos	Melhores resultados para funções de membros superiores e linguagem, se administrado o mais precoce possível e com razoável resposta na sialorréia	IV

TBA: Toxina Botulínica A; ISMAR: Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator

Quadro 3 – Descrição dos efeitos colaterais dos estudos encontrados.		
Autor/ano	Intervenção	Efeitos colaterais
Alrefai AH, et al /2009 ¹²	TBA x Placebo em glândula parótida	Sem efeitos colaterais
Puraviappan P, et al /2007 ¹³	Realocação bilateral do ducto submandibular	Ranula, sialoadenite
Banerjee KJ, et al /2006 ¹⁴	Aplicação de TBA nas glândulas submandibular e parótidas	Lábios secos
Johnson HM, et al /2004 ¹⁵	Efeito do uso do “ISMAR” na melhora da sialorréia, do comer e do beber	Intolerância ao uso do aparelho (nervosismo, choro, mordedura, etc)
Savarese R, et al /2004 ¹⁶	Uso de TBA na glândula submandibular para melhora da sialorréia	Sem efeitos colaterais
Jongierius PH, et al /2004 ¹⁷	Comparação de uma única dose de TBA na glândula submandibular e escopolamina na sialorréia	Escopolamina: xerostomia, sonolência, agitação, visão borrada, confusão; TBA: dificuldade de deglutição, quadro gripal < 2 dias
Hoon Jr AH, et al /2001 ¹⁸	Uso de Artane nas funções de membros superiores e inferiores, linguagem e sialorréia	Constipação, irritabilidade, dificuldade de deglutição, diminuição dos movimentos em membros inferiores

TBA: Toxina Botulínica A; ISMAR: Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator

Quadro 4 – Descrição resumida dos métodos de avaliação de cada estudo.		
Autor /ano	Intervenção	Método de avaliação
Alrefai AH, et al/2009 ¹²	TBA x Placebo em glândula parótida	Escala de frequência e severidade da sialorréia
Puraviappan P, et al /2007 ¹³	Realocação bilateral do ducto submandibular	Escala visual analógica, questionário sobre o número de babadores diários
Banerjee KJ, et al /2006 ¹⁴	Aplicação de TBA nas glândulas submandibular e parótidas	Escala de frequência e severidade da sialorréia, avaliação da qualidade de vida por pais e crianças, quociente de sialorréia, pesagem da saliva e número de babadores/dia
Johnson HM, et al /2004 ¹⁵	Efeito do uso do “ISMAR” na melhora da sialorréia, do comer e do beber	Escala de frequência e severidade da sialorréia, classificação da severidade da disfagia, avaliação psicológica, tempo de tolerância para uso do aparelho e questionário para familiares sobre percepção de problemas e mudanças
Savarese R, et al /2004 ¹⁶	Uso de TBA na glândula submandibular para melhora da sialorréia	Escala visual analógica, número de babadores/dia e quantidade de produção salivar
Jongerius PH, et al /2004 ¹⁷	Comparação de uma única dose de TBA na glândula submandibular e escopolamina na sialorréia	Quociente de sialorréia, escala padrão para sialorréia e escala visual analógica
Hoon Jr AH, et al /2001 ¹⁸	Uso de Artane nas funções de membros superiores e inferiores, linguagem e sialorréia	Questionário para familiares sobre suas percepções de melhoras, via telefone, conforme escala de 1 (pouca melhora ou nenhuma) a 5 (melhora acima da expectativa)

TBA: Toxina Botulínica A; ISMAR: Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator

Discussão

Dos sete artigos finais da seleção, quatro reportaram o uso da toxina botulínica na sialorréia (quadro 2). Desses, um comparou com placebo¹², outro comparou com escopolamina¹⁷ e dois foram não comparativos, com aplicações diretas nas glândulas salivares (parótidas e submandibulares)^{14,16}.

Acredita-se que a toxina botulínica tipo A é eficaz para o tratamento da sialorréia, no entanto, foi encontrado apenas um estudo de nível de evidência II na literatura, sendo assim, mais estudos avaliando a melhor dose da medicação e seguimento a longo prazo são necessários.

Nos estudos com toxina botulínica tipo A, a dose média utilizada foi de 2U a 6U/kg, nas glândulas parótidas e submandibulares, sendo ou não guiados com auxílio de ultrassom nas aplicações. A maioria fez uso de anestesia geral e poucos efeitos colaterais foram observados, entre eles foram lábios secos, dificuldades de deglutição e quadro gripal^{12,14,16,17}.

Um artigo demonstrou o uso de um estabilizador intraoral do vedamento labial e da mobilidade da língua, o ISMAR - Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator¹⁵; apenas um artigo

utilizou a cirurgia para controle da sialorréia¹³ e também, somente um artigo fez tratamento medicamentoso utilizando triexifenidil (Artane[®])¹⁸.

Várias formas de tratamento para a sialorréia são citadas na literatura⁸⁻¹¹, porém com metodologia de pesquisa inadequada ou não há trabalhos publicados, dificultando a conclusão quanto a sua aplicabilidade. Dentre essas, alguns trabalhos citam a terapia multidisciplinar como manejo da sialorréia^{1-3, 6}, porém apresentam resultado subjetivo e sem rigor metodológico.

Quanto às formas de avaliação da sialorréia, os trabalhos utilizaram escalas/questionários subjetivos, mas não de forma sistemática, dificultando a comparação dos estudos.

Conclusão

Nos estudos encontrados, verificamos pouca implicação com a prática clínica. Para melhor reprodutibilidade clínica, buscam-se estudos com níveis de evidência entre 1 a 3. Assim, o baixo nível de evidência encontrado e a terapêutica utilizada nos artigos selecionados, deixaram poucas formas de manejo da sialorréia reprodutíveis para a prática clínica, exceto o artigo de Alrefai AH, et al¹² com nível de evidência II. Dessa for-

ma, são necessários mais estudos para indicar o melhor tratamento da sialorréia em pacientes com paralisia cerebral.

Referências Bibliográficas

1. Meningaud JP, Pitak-Arnop P, Chikhani L, Bertrand JC. Drooling of saliva: A review of the etiology and management options. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radio Endod.* 2006; 101:48-57.
2. Lal D, Hotaling AJ. Drooling. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg.* 2006; 14: 381-6.
3. Hockstein NG, Samadi DS, Gendron K, Handler SD. Sialorrhea: a management challenge. *Am Fam Physician.* 2004; 69:2628-34.
4. Senner JE, Logemann J, Zecker S, Gaebler-Spira D. Drooling, saliva production, and swallowing in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2004; 46:801-6.
5. Morales Chávez MC, Nualart Grollmus ZC, Silvestre Donat FJ. Clinical prevalence of drooling in infant cerebral palsy. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2008; 13:E22-6.
6. Crysedale WS, McCann C, Roske L, Joseph M, Semenuk D, Chait P. Saliva control issues in the neurologically challenged: a 30 year experience in team management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2006; 70:519-27.
7. Bagley V, Gareh M, Lee K, Platt J, Singer E, Tuffner C. Drug treatments to control drooling in pediatric patients with cerebral palsy: an evidence-based review of the literature. [on line] University of Toronto. 2006. [Access 12 Nov 2010] Available

- from: www.utoronto.ca/dentistry/.../evidence_based/drooling.pdf
8. Rosen F, Bailey B. Anatomy and physiology of the salivary glands. Grand Round Presentation, UTMB, Dept of Otolaryngology. [on line] 2001. [Access 12 Nov 2010] Available from: <http://www.otohns.net/default.asp?id=14646>
 9. Van der Burg JJW, Jongerius PH, Van Hulst K, Limbeek JV, Van Limbeek, Rotteveel JJ. Drooling in children with cerebral palsy: effect of salivary flow reduction on daily life and care. *Dev Med Child Neurol.* 2006; 48:103-7.
 10. Van der Burg JJW, Jongerius PH, Van Hulst K, Limbeek JV, Rotteveel JJ. Social interaction and self-esteem of children with cerebral palsy after treatment for severe drooling. *Eur J Pediatr.* 2006; 165:37-41.
 11. Reddihough DS, Johnson H. Assessment and management of saliva control problems in children and adults with neurological impairment. *J Dev Phys Disab.* 1999; 11:17-24.
 12. Alrefai AH, Aburahma SK, Khader YS. Treatment of sialorrhea in children with Cerebral Palsy: A double-blind placebo controlled trial. *Clin Neurol Neurosurg.* 2009; 111:79-82.
 13. Puraviappan P, Dass DB, Narayanan P. Efficacy of relocating the submandibular duct in cerebral palsy patients with drooling. *Asian J Surg.* 2007; 30:209-15.
 14. Banerjee KJ, Glasson C, O'Flaherty SJ. Parotid and submandibular botulinum toxin A injections for sialorrhoea in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2006; 48: 883-7.
 15. Johnson HM, Reid SM, Hazard CJ, Lucas JO, Desai M, Reddihough DS. Effectiveness of the Innsbruck Sensorimotor Activator and Regulator in improving saliva control in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2004; 46:39-45.
 16. Savarese R, Diamond M, Elovic E, Millis SR. Intraparotid injection of botulinum toxin A as a treatment to control sialorrhea in children with cerebral palsy. *Am J Phys Med Rehabil.* 2004; 83:304-11.
 17. Jongerius PH, Van den Hoogen FJA, Limbeek J, Gabreëls FJ, Van Hulst K, Rotteveel JJ. **Effect of Botulinum Toxin in the treatment of drooling: a controlled clinical trial.** *Pediatrics.* 2004; 114: 620-7.
 18. Hoon AH Jr, Freese PO, Reinhardt EM, Wilson MA, Lawrie Jr WT, Harryman SE, et al. Age-dependent effects of trihexypenidyl in extrapyramidal cerebral palsy. *Pediatr Neurol.* 2001; 25:55-8.

Instituição onde o trabalho foi realizado: Lar Escola São Francisco

Endereço para correspondência: Bianca Lisboa Corso. Rua dos Açores, 310 - Jardim Luzitânia - 04032-060 - São Paulo - SP - Brasil.

Telefones: (11)5571.0906 / (11)5549.1211. biancashedid@ibest.com.br - carla.unifesp@lesf.org.br

REVISTA MEDICINA DE REABILITAÇÃO

SIM Eu quero assinar a Revista Medicina de Reabilitação, para receber no período de 1 ano, totalizando 3 edições.

Nome: _____

Endereço: _____

Cidade: _____ Estado: _____

CEP: _____ E-mail: _____

Assinatura: _____

Condições:

Individual
R\$ 100,00

Institucional
R\$ 150,00

Estudante/Residente
R\$ 60,00

* Com apresentação da carta assinada pelo diretor do Programa, com data do início e final do programa

Depósito: Banco Citibank - **Banco** nº 745 - **Agência:** 0031 - **Conta:** 31078257

Nome: Centro de Estudos - Medicina de Reabilitação

Enviar comprovante depósito e cadastro pelo **Telefax:** (11) 2577-7111

Informações: E-mail: revistamedicina@uol.com.br