

Função Intestinal e qualidade de vida de pacientes operados por anomalias anorretais e doença de Hirschsprung

Intestinal function and quality of life in patients operated for anorectal anomalies and Hirschsprung's disease

Arthur Giordani Elias de Almeida¹, Larissa Gabriel Bitencourt², Rodrigo Demétrio³, Christian de Escobar Prado⁴

RESUMO

Introdução: As Anomalias Anorretais (AAR) e a Doença de Hirschsprung (DH) são doenças congênicas que necessitam de tratamento cirúrgico. O qual está associado a complicações na função intestinal. **Objetivo:** Avaliar a função intestinal e a qualidade de vida de pacientes operados por AAR e DH. **Métodos:** Um estudo transversal e descritivo foi realizado com crianças operadas por AAR e DH em dois hospitais terciários entre 2008 e 2018. Foram entrevistados apenas pacientes com idade superior a 3 anos. A população final foi de 12 pacientes. A função intestinal foi avaliada por meio da Classificação Internacional de Krickenbeck para resultados pós-operatórios. Foi aplicado também um questionário para avaliação da qualidade de vida. **Resultados:** A média de idade dos pacientes no momento da entrevista foi de 7,08 anos \pm 2,28. Dentre os 12 pacientes entrevistados, 66,7% tinham o diagnóstico de AAR e 33,3% de DH. 91,7% dos pacientes apresentavam escapes fecais após a cirurgia. 33,3% da amostra tinham constipação. Apenas um paciente tinha história prévia de enterocolite, e este apresentou o pior escore de qualidade de vida. Os resultados do questionário de qualidade de vida mostraram que o único paciente sem escapes fecais tinha o melhor escore. Além disso, observou-se que os pacientes com malformações altas possuíam piores escores de qualidade de vida. **Conclusão:** A função intestinal, após o tratamento cirúrgico, estava prejudicada. A maioria dos pacientes apresentou escapes fecais. Esse desfecho parece afetar os escores de qualidade de vida. O que enfatiza a necessidade de seguimento clínico e manejo intestinal após o tratamento cirúrgico.

PALAVRA-CHAVE: Malformações anorretais, doença de Hirschsprung, anormalidades congênicas, incontinência fecal, constipação intestinal

ABSTRACT

Introduction: Anorectal Anomalies (ARA) and Hirschsprung Disease (DH) are congenital diseases that require surgical treatment, which is associated with complications in intestinal function. **Objective:** To assess intestinal function and quality of life in patients operated on for ARA and DH. **Methods:** A cross-sectional descriptive study was carried out with children operated on for ARA and DH in two tertiary hospitals between 2008 and 2018. Only patients aged over 3 years were interviewed. The final population consisted of 12 patients. Intestinal function was assessed using the Krickenbeck International Classification for postoperative outcomes. A questionnaire to assess quality of life was also applied. **Results:** The mean age of patients at the time of the interview was 7.08 years \pm 2.28. Among the 12 patients interviewed, 66.7% had a diagnosis of ARA and 33.3% of DH. Fecal leakage after surgery affected 91.7% of the patients, and 33.3% of the sample had constipation. Only one patient had a previous history of enterocolitis, and he had the worst quality of life score. The results of the quality of life questionnaire showed that the only patient without fecal leakage had the best score. Furthermore, it was observed that patients with high malformations had worse quality of life scores. **Conclusion:** Intestinal function, after surgical treatment, was impaired. Most patients had fecal leakage. This outcome appears to affect quality of life scores. This emphasizes the need for clinical follow-up and intestinal management after surgical treatment.

KEYWORDS: Anorectal malformations, Hirschsprung disease, congenital abnormalities, fecal incontinence, constipation

¹ Graduando de Medicina (Estudante do Curso de Medicina da Universidade do Extremo Sul Catarinense – Unesc)

² Graduanda de Medicina (Estudante do Curso de Medicina da Unesc)

³ Mestre em Ciências da Saúde (Cirurgião Pediátrico, Professor de Graduação do Curso de Medicina da Unesc)

⁴ Mestre em Ciências da Saúde (Cirurgião Pediátrico, Professor de Graduação do Curso de Medicina da Unesc)

INTRODUÇÃO

As anomalias anorretais (AAR) são um conjunto de anomalias congênitas, cuja etiologia permanece pouco esclarecida (1). Essas anomalias afetam ambos os sexos e envolvem o ânus distal e o reto, assim como tratos urinário e genital (2). É comum haver associação das AAR com outras malformações (3).

Já a doença de Hirschsprung (DH), também conhecida como aganglionose intestinal congênita, ocorre a partir da ausência completa de células ganglionares neuronais em uma porção do trato intestinal. Em 80% dos casos, restringe-se a reto e sigmoide (4).

As AAR e a DH compartilham o fato de serem doenças congênitas, afetarem cerca de 1 a cada 5.000 nascidos vivos e necessitarem de tratamento cirúrgico, ainda nos primeiros anos de vida. Mesmo com os avanços conquistados na área de cirurgia pediátrica para o tratamento dessas doenças, muitos pacientes apresentam repercussões a longo prazo, que afetam diretamente a sua qualidade de vida (5,6).

As alterações da função intestinal em pacientes com AAR dependem de fatores como gênero e subtipo da doença. No geral, sabe-se que crianças operadas por AAR são mais afetadas por incontinência fecal severa do que crianças saudáveis. A constipação também ocorre mais neste grupo (7). Se considerados apenas os pacientes operados por anomalias anorretais “baixas”, as quais são associadas a um melhor prognóstico, a maior parte deles necessita de tratamento adequado para se obter melhora da função intestinal quanto às evacuações (8).

A abordagem cirúrgica na DH, independentemente da técnica utilizada, tende a consequências funcionais no intestino do paciente. A incontinência fecal é a complicação mais comum, e esta pode persistir até a vida adulta. O dano psicológico é uma importante sequela da incontinência. O constrangimento, e até mesmo a depressão podem ser observados em uma quantidade significativa desses pacientes (9,10).

A literatura nacional carece de estudos que verifiquem a presença de sequelas intestinais e seu possível prejuízo psicossocial nos pacientes operados por AAR e DH. Desta forma, é fundamental a realização de estudos que permitam conhecer o perfil intestinal desses pacientes anos após as cirurgias corretoras. Portanto, o objetivo do presente estudo foi avaliar a função intestinal e a qualidade de vida de pacientes operados por AAR e DH.

MÉTODOS

Tipo de estudo

Trata-se de um estudo observacional, transversal e descritivo.

Procedimentos para coleta de dados

Os dados foram coletados primeiramente nos hospitais, através de prontuários, dos quais foram coletados os seguin-

tes dados: idade no momento da cirurgia (em meses completos); sexo (masculino; feminino); tipos de AAR (baixas, intermediárias ou altas, segundo a Classificação de Wingspread – 11); extensão da DH (reto, retossigmoide, cólon proximal e cólon distal); enterocolite associada à DH (presença de enterocolite no pré e/ou pós-cirúrgico); síndromes associadas à DH e à AAR; malformações associadas à AAR.

A partir de informações contidas no prontuário, foi feito contato com os responsáveis legais dos pacientes, por meio de telefone ou e-mail, e agendada uma data para aplicação dos questionários em uma clínica infantil. Os questionários, compostos por questões fechadas, foram aplicados na população-alvo pelos autores, com duração aproximada de 30 minutos por paciente.

População

A coleta do presente estudo foi do tipo censitária, pois compreendeu todos os pacientes previamente operados por AAR e DH em dois hospitais de alta complexidade do município de Criciúma/SC, no período de 2008 a 2018. Todos os pacientes foram operados pelo mesmo cirurgião pediátrico.

Os critérios de inclusão foram: indivíduos de ambos os sexos; com 3 anos de idade ou mais, cujos responsáveis assinaram o TCLE (Termo de Consentimento Livre e Esclarecido), e capazes de responder aos questionários por si só ou com auxílio de um responsável.

Instrumentos de coleta

No momento da entrevista, os pesquisadores aplicaram um questionário sociodemográfico desenvolvido pelos mesmos, contendo informações sobre a idade atual (em anos completos) e sexo. Os pacientes foram avaliados através da Classificação Internacional de Krickenbeck para resultados pós-operatórios (11) e do Questionário para Avaliação da Qualidade de Vida Relacionada à Continência Fecal em Crianças e Adolescentes (QQVCFCA) (12), traduzidos livremente pelos autores. O QQVCFCA é composto por 24 questões divididas em 4 domínios (estilo de vida; comportamento; depressão; vergonha). Cada questão recebe uma pontuação de 1 a 4, sendo 1 a pior situação. O escore final é obtido por meio da soma da pontuação média obtida em cada domínio e varia de 4 a 16.

Análise de dados

Os dados coletados foram analisados através do software IBM *Statistical Package for the Social Sciences* (SPSS), versão 21.0. As variáveis pesquisadas foram avaliadas de forma descritiva. As variáveis qualitativas foram expressas por meio de frequência e porcentagem. Já as quantitativas foram apresentadas por meio de média e desvio-padrão ou mediana e amplitude. Os resultados foram expressos por meio de tabelas.

Considerações éticas

As entrevistas só foram iniciadas após a assinatura do TCLE. Este trabalho foi submetido e aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Universidade do Extremo Sul Catarinense (UNESC) e também de um hospital de Criciúma/SC, sob os pareceres números: 3.084.483 e 3.145.508.

RESULTADOS

Entre 2008 e 2018, 31 pacientes foram operados por AAR e DH nos 2 hospitais do estudo. 15 pacientes foram excluídos por serem menores de 3 anos. Destes, 7 tinham DH e 8 AAR. Outros 4 pacientes foram excluídos por motivos de: falecimento por causa não especificada; impossibilidade de contato por telefone ou e-mail; recusa de participar da pesquisa; e uso de bolsa de colostomia, a qual impossibilitaria avaliar sua função intestinal. Restaram 12 pacientes no estudo.

A média de idade dos pacientes deste estudo foi de 7,08 ± 2,28 anos. A mediana da idade no momento da cirurgia foi de 5,50 meses (IQ: 4,00-7,75). Predominaram crianças do sexo masculino. As AAR foram o diagnóstico predominante entre os 12 participantes (Tabela 1).

Os indivíduos com AAR foram classificados de acordo com a Classificação de Wingspread: 50,0% (n = 4) tinham AAR baixa; 25,0% (n = 2), AAR intermediária; e 25,0% (n = 2), AAR alta. Apenas 25,0% (n = 2) apresentaram malformações associadas, sendo duas malformações cardíacas, uma malformação da coluna vertebral e uma malformação gênito-urinária.

Dos pacientes com DH, 25,0% (n = 1) tinham a doença restrita ao reto, 50,0% (n = 2) possuíam doença em retossigmoide, e em 25% (n = 1), a doença se estendia até o cólon distal. Um paciente (25,0%) com DH apresentou enterocolite, pré e pós-cirúrgica. Este indivíduo teve escapes fecais grau 3, além do pior escore de qualidade de vida (escore final: 7,40). Nenhum paciente com DH possuía síndromes associadas à doença.

Quanto aos resultados encontrados a partir da Classificação Internacional de Krickenbeck para resultados pós-operatórios, 8,3% dos pacientes tinham movimentos intestinais voluntários (MIV). 91,7% dos pacientes apresentavam escapes fecais, sendo a maioria classificada em grau 1. A constipação foi encontrada em 33,3% dos 12 pacientes, e todos foram classificados em grau 2 (Tabela 2).

Todos os indivíduos do sexo masculino (n = 8) apresentavam escapes fecais. Já do sexo feminino, 75,0% (n = 3) apresentaram-no. As frequências dos graus de escapes encontradas no sexo masculino foram: 25,0%, grau 1; 37,5%, grau 2; e 37,5%, grau 3. No sexo feminino, 100% dos escapes fecais foram classificados em grau 1. Constipação foi encontrada em 12,5% (n = 1) dos meninos e 75,0% (n = 3) das meninas, todos classificados em grau 2.

A média de idade (em anos completos) dos 11 pacientes com escapes fecais foi de 6,91 ± 2,30. O único paciente

Tabela 1. Perfil clínico e sociodemográfico de pacientes operados por AAR e DH em dois hospitais do município de Criciúma/SC de 2008 a 2018.

	Média ± Desvio-Padrão, n (%)
	n = 12
Idade Atual (anos)	7,08 ± 2,28
Idade no Momento da Cirurgia (meses) *	5,50 (4,00-7,75)
Sexo	
Feminino	4 (33,3)
Masculino	8 (66,7)
Diagnóstico	
AAR	8 (66,7)
DH	4 (33,3)

AAR, Anomalias Anorretais; DH, Doença de Hirschsprung.

* Mediana (Mínimo - Máximo)

Fonte: Dados da pesquisa, 2019.

Tabela 2. Dados referentes à Classificação Internacional de Krickenbeck para resultados pós-operatórios de AAR e DH, obtidos por entrevista em uma clínica privada no município de Criciúma/SC, em 2019.

	n (%), n = 12
Movimentos Intestinais Voluntários	
Sim	2 (16,7%)
Não	10 (83,3%)
Escapes Fecais	
Sim	11 (91,7)
Não	1 (8,3)
Grau de Escapes Fecais	
Grau 1 (ocasionais, de 1 a 2 vezes por semana)	5 (45,4)
Grau 2 (todos os dias, sem problemas sociais)	3 (27,3)
Grau 3 (constante, com problemas sociais)	3 (27,3)
Não se aplica	1
Constipação	
Sim	4 (33,3)
Não	8 (66,7)
Grau de Constipação	
Grau 2 (requer o uso de laxantes)	4 (100,0)
Não se aplica	8

AAR, Anomalias Anorretais; DH, Doença de Hirschsprung.

Fonte: Dados da pesquisa, 2019.

que não possuía escapes fecais tinha 9 anos completos. Em relação aos graus de escapes fecais, a média de idade foi distribuída da seguinte maneira: grau 1: 7,20 ± 2,78; grau 2: 6,67 ± 2,52; e grau 3: 6,67 ± 2,08.

O único paciente sem escapes fecais teve o melhor escore de qualidade de vida (14,83). A média do escore final do QQ-VCFCA dos 12 pacientes foi de 11,92 ± 2,11. As médias de cada domínio foram: 3,64 ± 0,40 para estilo de vida; 3,33 ±

0,49 para comportamento; $2,87 \pm 0,61$ para depressão; $2,08 \pm 0,89$ para vergonha. As frequências das principais questões do QQVCFCA podem ser visualizadas na Tabela 3.

Para facilitar a análise de qualidade de vida em relação à idade atual dos pacientes, o escore do QQVCFCA foi estratificado em 3 grupos, evidenciando as seguintes médias de idade: escore de 4 a 8 ($9,00 \pm 0,00$); escore de 8,1 a 12 ($7,40 \pm 1,85$); escore de 12,1 a 16 ($6,50 \pm 2,36$).

Para cada grau de escapes fecais, as médias do escore final do QQVCFCA foram: grau 1 ($13,13 \pm 1,08$); grau 2 ($11,56 \pm 1,03$); grau 3 ($9,29 \pm 1,63$).

A Tabela 4 mostra os tipos de AAR segundo a Classificação de Wingspread e os relaciona com a presença de escapes fecais, constipação e qualidade de vida. Pode-se observar que quanto mais alta a AAR, maiores as frequências de escapes fecais, assim como menores os escores de qualidade de vida.

DISCUSSÃO

A gravidade das AAR interfere significativamente nas complicações pós-cirúrgicas (13). Neste estudo, a maioria (50%) das crianças tinham AAR baixa. Resultados similares foram encontrados no estudo de Brisighelli *et al.*, realizado com 80 pacientes, dos quais 54% deles tinham AAR baixa (8). De modo semelhante, a extensão da DH é um fator prognóstico para a função intestinal pós-cirúrgica (14). Nesta série, predominou a doença em retossigmoide, com 50% dos casos. Em estudo com 146 pacientes operados por DH, 83% tinham doença em retossigmoide (15). Outra série encontrou uma frequência de aganglionose localizada em retossigmoide de apenas 25%, e 50% eram restritas ao reto (16).

É frequente a associação de AAR com outras malformações (1,17). Nesta pesquisa, apenas 25% dos pacientes

Tabela 4. Análise da função intestinal e qualidade de vida de pacientes operados por AAR entre 2008 e 2018, em dois hospitais de Criciúma/SC, estratificados por subtipo de doença.

	n (%), Média±Desvio-Padrão		
	Baixa n=4	Intermediária n=2	Alta n=2
Escapes			
Sim	3 (75,0)	2 (100,0)	2 (100,0)
Não	1 (25,0)	---	---
Constipação			
Sim	2 (50,0)	2 (100,0)	---
Não	2 (50,0)	---	2 (100,0)
Escore Final	12,55±1,89	13,25±1,76	10,01±3,47

AAR, Anomalias Anorretais
Fonte: Dados da pesquisa, 2019.

tinham malformações associadas, todos com AAR, entre elas: malformações cardíacas, vertebrais e gênito-urinárias. Um estudo com 62 indivíduos encontrou malformações associadas em 65% dos pacientes com AAR, com predomínio de gênito-urinárias, seguidas de vertebrais (18). Em outra série de 53 pacientes com AAR, 43% da amostra possuía alguma anomalia associada, destas: 52% renais; 39% vertebrais; 35% cardíacas, 2% traqueoesofágica e de membros (19).

A enterocolite é conhecida como um significativo fator de risco para complicações pós-cirúrgicas de DH. Enterocolite recorrente também está associada à maior frequência e gravidade de escapes fecais após a cirurgia (15), o que vai de encontro com os achados deste estudo, em que o único paciente que apresentou episódios de enterocolite, tanto pré quanto pós-cirúrgicos, ainda apresentava escapes fecais

Tabela 3. Principais resultados obtidos a partir da aplicação do QQVCFCA em pacientes operados por AAR e DH, em uma clínica privada no município de Criciúma/SC, em 2019.

Principais questões do QQVCFCA	n (%), n = 12			
	Quase sempre (1)	Às vezes (2)	Raramente (3)	Nunca (4)
Evito visitar meus amigos	-	-	2 (16,7)	10 (83,3)
Evito passar a noite longe de casa	2 (16,7)	-	-	10 (83,3)
Tenho medo que as pessoas percebam o cheiro	3 (25,0)	4 (33,3)	3 (25,0)	2 (16,7)
Evito comer fora	-	-	1 (8,3)	11 (91,7)
Não consigo participar de atividades com meus amigos	1 (8,3)	1 (8,3)	1 (8,3)	9 (75,0)
Evito falar sobre isso com outras pessoas	8 (66,7)	1 (8,3)	-	3 (25,0)
Elimino fezes sem perceber	5 (41,6)	3 (25,0)	2 (16,7)	2 (16,7)
Prefiro que as pessoas não saibam sobre meu problema	8 (66,7)	-	-	4 (33,3)
Evito viagens	1 (8,3)	-	-	11 (91,7)
Tenho dificuldade em fazer amigos	-	-	-	12 (100,0)
Sinto que não controlo meu intestino	5 (41,7)	4 (33,3)	2 (16,7)	1 (8,3)

AAR, Anomalias Anorretais; DH, Doença de Hirschsprung.

QQVCFCA, Questionnaire for Assessment of Quality of Life Related to Fecal Continence in Children and Adolescents.

Fonte: Dados da pesquisa, 2019.

constantes e com problemas sociais (grau 3 de Krickenbeck) aos 9 anos de idade.

A continência completa (presença de movimentos intestinais voluntários, sem escapes fecais) é descrita em uma série de 175 pacientes com AAR, apenas na minoria deles (27%) (20). Neste estudo, somente 12,5% da amostra com diagnóstico de AAR possuía continência completa. Além disso, encontrou-se que todas as crianças deste estudo, com exceção de uma, tinham escapes fecais. Resultado semelhante foi encontrado por Demirogullari *et al.* (21), que realizaram estudo com 41 pacientes maiores de 3 anos com AAR, e apenas um destes não apresentava escapes fecais.

Já a constipação esteve presente em 50% dos pacientes com AAR, todos classificados como grau 2. Brisighelli *et al.* (8), em estudo avaliando 80 pacientes operados por AAR, constataram que 59% deles possuíam constipação, e o grau 2 também foi o mais encontrado. Schmiedeke *et al.* (20) encontraram frequência ainda superior de constipação, com 67% dos 175 pacientes diagnosticados com AAR apresentando-a.

Referente ao gênero, escapes fecais foram vistos em 100% dos meninos e em 75% das meninas deste estudo, sendo que 100% das meninas foram classificadas em grau 1. Uma série composta apenas por meninas com AAR reportou escapes fecais em 59% delas, sendo a maioria dos escapes com frequência inferior a uma vez por semana, o que é comparável ao grau 1 da Classificação de Krickenbeck (22). Na pesquisa de Stenstrom *et al.* (7), com 121 pacientes, a frequência de escapes fecais não diferiu de forma estatisticamente significativa entre gêneros. Já a constipação foi significativamente maior nas meninas (62%) do que nos meninos (35%) (7). No presente estudo, a constipação também prevaleceu no sexo feminino, encontrada em 75% delas, enquanto nos meninos, foi observada em somente 12,5% deles.

Na população estudada, os pacientes com mais idade tinham menores graus de escapes fecais, e o único paciente sem escapes tinha 9 anos. Este resultado vai de encontro ao observado por Borg *et al.* (23), onde a continência completa era rara aos 5 anos de idade, mas aumentou significativamente até os 10 anos, em pacientes que fizeram manejo intestinal. No presente estudo, constatou-se que os pacientes com menores escores de qualidade de vida eram os com as maiores médias de idade. Dados na literatura reforçam esse achado, em que todos os pacientes que referiam problemas sociais eram maiores que 12 anos (22). Assim como no estudo de Rintala e Pakarinen (6), em que é descrito que complicações funcionais e qualidade de vida tendem a piorar com idades mais avançadas, tanto em pacientes com AAR quanto com DH. Uma hipótese para esses achados é que os pacientes com mais idade compreendem melhor o impacto do controle intestinal na sua vida pessoal, em aspectos que os mais novos ainda não são capazes distinguir.

É notório o impacto negativo dos escapes fecais e da constipação na qualidade de vida de pacientes operados por AAR e DH (18,24,25). Verificou-se, nesta série, que os

pacientes com escapes fecais tinham pontuações inferiores no escore de qualidade de vida, comparados ao único paciente sem escapes. Avaliando a relação entre os graus dos escapes fecais e o escore de qualidade de vida, os pacientes com grau 3 obtiveram o pior resultado no QQVCFCA.

Estudo com pacientes operados por DH encontrou aspectos que afetavam significativamente a qualidade de vida, entre eles: urgência para defecar, incapacidade de controlar as fezes, frustração com a doença, necessidade de restringir alimentação, capacidade de realizar atividades de lazer (26).

O vigente estudo encontrou, por meio do QQVCFCA, que 83,3% dos pacientes eliminavam fezes sem perceber ao menos uma vez, sendo que 41,6% destes “quase sempre”. A grande maioria dos pacientes sentia que não controlava seu intestino “quase sempre” ou “às vezes”. 66,7% das crianças “quase sempre” evitavam falar sobre o assunto com outras pessoas e preferiam que outros não soubessem do seu problema. Assim como 83,3% tiveram medo que as pessoas sentissem o cheiro dos escapes pelo menos alguma vez.

Ainda sobre o QQVCFCA, 83,3% “nunca” evitavam visitar os amigos, ou dormir fora de casa. 91,7% “nunca” evitavam realizar viagens pelo problema. Nenhuma criança referiu ter dificuldade de fazer amigos. De forma semelhante, em dados da literatura, 70% dos pais afirmaram que “nunca” impediram os filhos de saírem de casa por conta de sua função intestinal. E 77% dos pais informaram que a incontinência fecal não interferia nas habilidades da criança de socializar e fazer amigos (24).

A média do escore final do QQVCFCA dos 12 pacientes foi de 11,9. A média dos escores de cada domínio foi: estilo de vida: 3,6; comportamento: 3,3; depressão: 2,9; e vergonha: 2,1. Tannuri *et al.* (9) avaliaram pacientes operados por DH e aplicaram o QQVCFCA, o qual foi validado por este mesmo grupo de pesquisadores (12). A mediana do escore final foi de 12,2, enquanto que os escores de cada domínio foram: estilo de vida: 3,7; comportamento: 3,6; depressão: 2,7; e vergonha: 2,3. Observa-se que, tanto nesta pesquisa quanto na de Tannuri *et al.* (9), o domínio “vergonha” apresentou os piores resultados.

Goyal *et al.* (27) evidenciaram que quanto mais severa a AAR, piores eram as alterações da função intestinal. A severidade das AAR pode ser correlacionada com a “altura” das mesmas, apesar de que AAR de mesma “altura” podem ter prognósticos diferentes (6). Na população estudada, o único paciente sem escapes possuía AAR baixa. E a gravidade dos escapes era diretamente proporcional à “altura” das AAR, exceto em um paciente com AAR baixa, que apresentava escapes fecais grau 3. Porém, este teve episódios de enterocolite, os quais podem ter sido responsáveis por seus piores desfechos.

Já é bem estabelecida na literatura a necessidade de seguimento em longo prazo e manejo intestinal após as cirurgias corretoras de AAR e DH (5,6). Borg *et al.* (23) encontraram que a continência social pode ser conquistada por volta dos 5 anos de idade, por meio de manejo intestinal. Embora a constipação tenha sido de mais difícil

tratamento, conseguiu-se diminuir seu grau com o manejo (23). Neste estudo, nenhum dos participantes estava em um programa de manejo intestinal, o que pode ser um dos fatores responsáveis para a alta frequência de escapes fecais e ausência de MIV.

Este é um estudo com algumas limitações. Primeiramente, devido ao número diminuto de pacientes, a metodologia do trabalho limitou-se a ser descritiva, impossibilitando afirmar com significância estatística a veracidade dos achados. Também, foram descritas doenças com características diferentes, sendo o ideal avaliá-las separadamente e, se possível, com padronização das técnicas cirúrgicas. Uma vez que são doenças raras, é de interesse a realização de estudos regionais multicêntricos, para aumentar o poder estatístico das análises das complicações pós-operatórias, e determinar o quanto os pacientes se beneficiariam de um manejo intestinal individualizado, o qual é deficiente na região do estudo.

Esta série mostrou que a função intestinal após cirurgias corretoras de AAR e DH estava prejudicada, com a maioria dos pacientes apresentando escapes fecais. E este desfecho parece afetar os escores de qualidade de vida, enfatizando a necessidade de seguimento clínico e manejo intestinal após o tratamento cirúrgico para ambas as doenças.

REFERÊNCIAS

1. Wang C, Li L, Cheng W. Anorectal malformation: the etiological factors. *Pediatr Surg Int.* 2015;31:795-804.
2. Levitt MA, Peña A. Anorectal malformations. *Orphanet J Rare Dis.* 2007;2:33
3. Li J, Gao W, Liu X, Zhu JM, Zuo W, Zhu F. Clinical characteristics, prognosis, and its risk factors of anorectal malformations: a retrospective study of 332 cases in Anhui Province of China. *J Matern Fetal Neonatal Med.* 2018;31:1-6.
4. Parisi MA. Hirschsprung Disease Overview. 2002 Jul 12 [Updated 2015 Oct 1]. In: Adam MP, Ardinger HH, Pagon RA, et al., editors. *GeneReviews®* [Internet]. Seattle (WA): University of Washington, Seattle; 1993-2019.
5. Kyrklund K, Neuvonen MI, Pakarinen MP, Rintala RJ. Social Morbidity in Relation to Bowel Functional Outcomes and Quality of Life in Anorectal Malformations and Hirschsprungs Disease. *Eur J Pediatr Surg.* 2017;28:522-528.
6. Rintala RJ, Pakarinen MP. Outcome of anorectal malformations and Hirschsprungs disease beyond childhood. *Semin Pediatr Surg.* 2010;19:160-167.
7. Stenstrom P, Kockum CC, Emblem R, Arnbjornsson E, Bjornland K. Bowel symptoms in children with anorectal malformation - a follow-up with a gender and age perspective. *J Pediatr Surg.* 2014;49:1122-1130.
8. Brisighelli G, Macchini F, Consonni D, Di Cesare A, Morandi A, Leva E. Continence after posterior sagittal anorectoplasty for anorectal malformations: comparison of different scores. *J Pediatr Surg.* 2018;53:1727-1733.
9. Tannuri ACA, Ferreira MAE, Mathias AL, Tannuri U. Long-term results of the Duhamel technique are superior to those of the transanal pullthrough. *J Pediatr Surg.* 2017;52:449-453.
10. Ieiri S, Nakatsuji T, Akiyoshi J, Higashi M, Hashizume M, Suita S, et al. Long-term outcomes and the quality of life of Hirschsprung disease in adolescents who have reached 18 years or older-a 47-year single-institute experience. *J Pediatr Surg.* 2010;45:2398-2402.
11. Holschneider A, Hutson J, Pena A, Beket E, Chatterjee S, Coran A, et al. Preliminary report on the international conference for the development of standards for the treatment of anorectal malformations. *J Pediatr Surg.* 2005;40:1521-1526.
12. Mathias AL, Tannuri AC, Ferreira MA, Santos MM, Tannuri U. Validation of questionnaires to assess quality of life related to fecal incontinence in children with anorectal malformations and Hirschsprung's disease. *Rev Paul Pediatr.* 2016;34:99-105.
13. Kyrklund K, Pakarinen MP, Rintala RJ. Long-term bowel function, quality of life and sexual function in patients with anorectal malformations treated during the PSARP era. *Semin Pediatr Surg.* 2017; 26: 336-342.
14. Cheng S, Wang J, Pan W, Yan W, Shi J, Guan W, et al. Pathologically assessed grade of Hirschsprung-associated enterocolitis in resected colon in children with Hirschsprungs disease predicts postoperative bowel function. *J Pediatr Surg.* 2017; 52: 1776-1781.
15. Neuvonen MI, Kyrklund K, Lindahl HG, Koivusalo AI, Rintala RJ, Pakarinen MP. A population-based, complete follow-up of 146 consecutive patients after transanal mucosectomy for Hirschsprung disease. *J Pediatr Surg.* 2015; 50: 1653-1658.
16. Onishi S, Nakame K, Kaji T, Kawano M, Moriguchi T, Sugita K, et al. The bowel function and quality of life of Hirschsprung disease patients who have reached 18 years of age or older - the long-term outcomes after undergoing the transabdominal soave procedure. *J Pediatr Surg.* 2017; 52: 2001-2005.
17. Bischoff A, Levitt MA, Peña A. Update on the management of anorectal malformations. *Pediatr Surg Int.* 2013; 29: 899-904.
18. Nah SA, Ong CCP, Saffari SE, Ong LY, Yap TL, Low Y, et al. Anorectal malformation & Hirschsprung's disease: A cross-sectional comparison of quality of life and bowel function to healthy controls. *J Pediatr Surg.* 2018; 53: 1550-1554.
19. Hasset S, Snell S, Hughes-Thomas A, Holmes K. 10-year outcome of children born with anorectal malformation, treated by posterior sagittal anorectoplasty, assessed according to the Krickbeck classification. *J Pediatr Surg.* 2009; 44: 399-403.
20. Schmiedeke E, Zwink N, Schwarzer N, Bartels E, Schmidt D, Grashoff-Derr S, et al. Unexpected results of a nationwide, treatment-independent assessment of fecal incontinence in patients with anorectal anomalies. *Pediatr Surg Int.* 2012; 28: 825-830.
21. Demirogullari B, Ozen IO, Karabulut R, Turkyilmaz Z, Sonmez K, Kale N, et al. Colonic motility and functional assessment of the patients with anorectal malformations according to Krickbeck consensus. *J Pediatr Surg.* 2008; 43: 1839-1843.
22. Kyrklund K, Pakarinen MP, Koivusalo A, Rintala RJ. Bowel functional outcomes in females with perineal or vestibular fistula treated with anterior sagittal anorectoplasty: controlled results into adulthood. *Dis Colon Rectum.* 2015; 58: 97-103.
23. Borg HC, Holmdahl G, Gustavsson K, Doroszkiewicz M, Sillén U. Longitudinal study of bowel function in children with anorectal malformations. *J Pediatr Surg.* 2013; 48: 597-606.
24. Collins L, Collis B, Trajanovska M, Khanal R, Hutson JM, Teague WJ, et al. Quality of life outcomes in children with Hirschsprung disease. *J Pediatr Surg.* 2017; 52: 2006-2010.
25. Grano C, Aminoff D, Lucidi F, Violani C. Long-term disease-specific quality of life in adult anorectal malformation patients. *J Pediatr Surg.* 2011; 46: 691-698.
26. Jarvi K, Laitakari EM, Koivusalo A, Rintala RJ, Pakarinen MP. Bowel function and gastrointestinal quality of life among adults operated for Hirschsprung disease during childhood: a population-based study. *Ann Surg.* 2010; 252: 977-981.
27. Goyal A, Williams JM, Kenny SE, Lwin R, Baillie CT, Lamont GL, et al. Functional outcome and quality of life in anorectal malformations. *J Pediatr Surg.* 2006; 41: 318-322.

Endereço para correspondência

Arthur Giordani Elias de Almeida

Rua Antônio Batista de Luca, 91

88.801-470 – Criciúma/SC – Brasil

(48) 9667-5066

arthur-ea@hotmail.com

Recebido: 28/7/2020 – Aprovado: 20/12/2020