

Intervenções para o tratamento de déficits cognitivos e comportamentais em crianças com Transtornos Respiratórios do Sono após adenotonsilectomia

Interventions for treating cognitive and behavioral deficits in children with sleep-disordered breathing after adenotonsillectomy

Mariana Bezerra Rocha Figueiredo¹, Márcio Moysés de Oliveira²,
Cristiane Fiqueni Conti², João Eduardo Coin-Carvalho³, Lucila
Bizari Fernandes do Prado⁴, Gilmar Fernandes do Prado⁴,
Luciane Bizari Coin de Carvalho⁵

1. Psicóloga, Doutora, Neuro-Sono, Departamento de Medicina, Unifesp, São Paulo-SP, Brasil.

2. Médico, Doutor, Universidade Federal do Maranhão - UFMA, São Luis-MA, Brasil.

3. Psicólogo, Doutor, Universidade Paulista - UNIP, São Paulo-SP, Brasil.

4. Médico, Doutor, Neuro-Sono, Departamento de Neurologia e Neurocirurgia, Unifesp, São Paulo-SP, Brasil.

5. Psicóloga, Doutora, Neuro-Sono, Departamento de Neurologia e Neurocirurgia, Unifesp, São Paulo-SP, Brasil.

Resumo

Objetivo. Revisar sistematicamente a literatura sobre intervenções para a reabilitação cognitiva e comportamental de crianças com transtornos respiratórios do sono após adenotonsilectomia. **Método.** Foi realizada a captação das publicações através de bases de dados eletrônicas (Medline, Pubmed, Embase, Lilacs e Scielo), de 1990 a 2017, em Inglês, Português e Espanhol. **Resultados.** A pesquisa encontrou um total de 1.085 artigos. Foram identificados 21 estudos relevantes, mas nenhum desses estudos propõe qualquer intervenção após a cirurgia, para reduzir déficit cognitivo e/ou comportamental. **Conclusões.** Embora estudos tenham demonstrado a relação entre transtornos respiratórios do sono e déficits cognitivos e / ou comportamentais em crianças, não existem estudos que propõem uma intervenção para reduzir esses transtornos após adenotonsilectomia. Sendo assim, intervenções para reabilitação cognitiva-comportamental devem ser uma estratégia complementar para o tratamento dessas crianças.

Unitermos. Transtornos Respiratórios do Sono; Cognitivo; Comportamental; Reabilitação; Intervenções Cognitivo-Comportamentais.

Abstract

Objective. To systematically review the literature on interventions for cognitive and behavioral rehabilitation of children with sleep-disordered breathing after adenotonsillectomy. **Method.** We searched for papers published in English, Portuguese and Spanish between 1990 and 2017, through electronic databases (Medline, PubMed, Embase, Lilacs and SciELO). **Results.** The search revealed a total of 1085 articles. Through reviewing these articles, 21 reports of relevance were identified. However, none of these studies proposed any intervention other than surgery, for reducing this cognitive and/or behavioral impairment. **Conclusions.** Although studies have demonstrated the relationship between sleep-disordered breathing and cognitive and/or behavioral deficits in children, there are no studies that propose any intervention to reduce these disorders after adenotonsillectomy. Interventions for cognitive-behavioral rehabilitation should be a complementary strategy for treating these children.

Keywords. Sleep-disordered Breathing; Cognitive; Behavioral; Rehabilitation; Cognitive-Behavioral Interventions

INTRODUÇÃO

Os transtornos respiratórios do sono (TRS) referem-se a uma ampla gama de transtornos respiratórios noturnos que podem afetar o sono noturno, incluindo ronco primário, aumento da síndrome de resistência das vias aéreas superiores, apneia obstrutiva do sono^{1,2}. O ronco é um dos sintomas dos TRS, e ocorre em até 35% das crianças. Estima-se que 5-10% das crianças em idade escolar roncam em três ou mais noites por semana^{1,3}.

Assim, os TRS na infância são distúrbios relativamente comuns. E frequentemente estão associados à hipertrofia adenotonsilar^{2,4}, sendo a adenotonsilectomia o tratamento de escolha para esta condição. Os TRS também têm sido correlacionados com obesidade, doenças neuromusculares hipotônicas e anomalias craniofaciais como micrognatia e retrognatia e essas situações também são importantes fatores de risco⁴⁻⁶.

Os TRS não tratados em crianças podem resultar em vários problemas relacionados a processos comportamentais e neurocognitivos, tais como déficits cognitivos, déficit de atenção/hiperatividade, diminuição do desempenho acadêmico, instabilidade emocional,

impulsividade, irritabilidade, agressividade, mau humor e timidez^{1,5,7,8}.

Estudos recentes têm avaliado os processos cognitivos das crianças antes e depois da adenotonsilectomia, mas existe controvérsia quanto à melhora da cognição. Alguns pesquisadores argumentaram que a função neurocognitiva melhora após a cirurgia e outros acreditam que, mesmo com intervenção cirúrgica, a criança não pode se recuperar dos danos causados pela TRS, após um período de tempo⁹⁻¹¹.

Alguns estudos usando escalas comportamentais aplicadas com pais e/ou professores relataram diminuição da agressão, hiperatividade e melhora do humor após adenotonsilectomia⁹⁻¹². Pesquisas recentes têm relatado mudanças significativas no comportamento hiperativo e disruptivo, bem como melhora na cognição, após a adenotonsilectomia¹².

Uma vez que os déficits cognitivos e comportamentais em crianças estão relacionados com os TRS, existe a possibilidade de que esses déficits possam continuar durante um ano ou mais após a adenotonsilectomia e, assim, interferir no desempenho escolar e nas relações interpessoais. Uma revisão sistemática com estudos que proponham intervenções para auxiliar na reabilitação cognitiva e comportamental de crianças com TRS, após a adenoamigdalectomia, é necessária.

MÉTODO

Realizou-se uma revisão sistemática de estudos intervencionistas controlados em crianças de 6 a 10 anos que tinham sido diagnosticadas com TRS por polissonografia, causada por hipertrofia *adenotonsilar* e com resultados comportamentais e neurocognitivos relatados.

Os critérios de exclusão foram outras comorbidades neurológicas e anormalidades craniofaciais. Os tipos de intervenções foram quaisquer técnicas concomitantes visando à redução dos déficits cognitivos e mudanças comportamentais a curto ou longo prazo após a adenotonsilectomia. Os grupos de comparação incluídos foram placebo, nenhuma intervenção, lista de espera ou outras intervenções alternativas que visassem à redução dos déficits cognitivos e mudanças comportamentais.

Os resultados foram: melhora da função neurocognitiva (como atenção, memória e melhora dos problemas de escolaridade) e/ou melhora das funções comportamentais (agressividade, impulsividade, hiperatividade e irritabilidade).

Pesquisa eletrônica

As estratégias de busca foram realizadas de 1990 até abril de 2017, sem qualquer limitação de linguagem, utilizando os seguintes termos e seus sinônimos: respiração sonolenta, ronco, síndrome da apneia obstrutiva do sono, déficits cognitivos, transtornos neurocognitivos,

Intervenção comportamental, tonsilectomia, adenotonsilectomia. A pesquisa de estudos foi realizada nas bases de dados Medline, Lilacs e Embase. Além das bases de dados eletrônicas mais tradicionais, também foram consideradas outras fontes, ou seja, teses indexadas na BIREME/OPAS-OMS (Biblioteca Regional Medicina/Organização Pan-Americana da Saúde da Organização Mundial da Saúde). As referências dos artigos selecionados também foram pesquisadas manualmente para quaisquer artigos não capturados pela pesquisa computadorizada.

Seleção dos estudos

A revisão foi realizada por dois revisores autores, independentemente rastreados os estudos e extraídos dos dados. As discordâncias e discrepâncias foram resolvidas em consulta com um terceiro autor de revisão.

A qualidade metodológica dos estudos incluiu: alocação, ocultação (randomização), cegueira (viés de desempenho e detecção) e viés de atrito. Cada item foi julgado como com baixo, alto ou incerto risco de viés.

RESULTADOS

A pesquisa obteve 1085 artigos. Através dos resumos, selecionamos 21 trabalhos para uma leitura completa^{9,12-31}. Todos os estudos relataram avaliação da cognição e/ou comportamento após adenotonsilectomia para crianças

TRS, mas nenhum relatou intervenção para os déficits cognitivos e/ou comportamentais.

Kohler¹⁷ afirmou que não houve melhora cognitiva seis meses após a adenotonsilectomia e acrescentaram que os maiores déficits ocorreram na função executiva, no desempenho verbal e na linguagem e especialmente no processamento fonológico. Este autor chamou a atenção para a interferência que os déficits causaram no aprendizado.

Friedman¹⁶ sugeriu que, de seis a dez meses após a adenotonsilectomia, o comprometimento da função neurocognitiva é reversível, especialmente entre crianças que apresentaram apneia obstrutiva leve ou moderada do sono. No entanto, este autor afirmou que as crianças com apneia obstrutiva do sono podem apresentar menor função de processamento mental composto, levando a um processamento ineficiente da informação e diminuindo a capacidade de aprendizagem e desempenho acadêmico do indivíduo. Portanto, este autor não excluiu a possibilidade de que possa haver interferência com a função acadêmica mesmo após a cirurgia, devido a danos parcialmente irreversíveis. Friedman¹⁶ também acrescentou que a função neurocognitiva prejudicada pode causar um déficit com efeito cumulativo sobre realizações acadêmicas que só podem ser detectadas mais tarde na vida, causando assim uma lacuna acadêmica entre essas crianças e seus pares que exigiria tempo e esforço para reduzir.

Huang¹⁸ e Chervin⁹ avaliaram tanto a cognição como o comportamento, e acreditavam que os déficits seriam reversíveis após seis meses ou um ano, respectivamente. Chervin⁹ descobriram que, após questionários com os pais, seus filhos melhoraram os sintomas de desatenção e hiperatividade. Este autor apontou a necessidade de utilizar melhores medidas de avaliação e a necessidade de estudos de causa e efeito sobre a relação entre a respiração com distúrbios do sono e déficits cognitivos e comportamentais. Huang¹⁸ foram os únicos a reconhecer a possibilidade de prevenção através do uso de metilfenidato a longo prazo, como indicado no resumo deste artigo.

Marcus¹³ também avaliaram tanto a cognição quanto o comportamento. Em comparação com o grupo de lista de espera, o tratamento cirúrgico para SAOS em crianças em idade escolar não melhorou a atenção ou a função executiva, medida através de testes neuropsicológicos. Entretanto, reduziu os sintomas comportamentais e melhorou a qualidade de vida e os achados polissonográficos.

Em relação ao comportamento, além dos estudos de Chervin⁹, Marcus¹³ e Huang¹⁸, outros estudos também concordaram em que há melhora após adenotonsilectomia^{14,15}. Tran¹⁵, que avaliaram hiperatividade, agressividade, desatenção, alterações de humor e outros fatores comportamentais, relataram que houve melhora no comportamento e qualidade de vida entre essas crianças, mas acrescentou que não havia

certeza de que isso tivesse acontecido como resultado da adenotonsilectomia. Este autor também enfatizou que a realização de um estudo controlado seria difícil devido à necessidade de tratamento cirúrgico.

Ali¹⁴ relataram que as melhorias na desatenção, hiperatividade e agressividade foram observadas três a quatro meses após a adenotonsilectomia e afirmou que havia uma relação causal entre distúrbios respiratórios do sono e problemas comportamentais entre essas crianças.

DISCUSSÃO

Muitos estudos têm relatado que os TRS prejudicam a função neurocognitiva e interferem no comportamento das crianças. É importante confirmar a extensão desse dano, se pode ser reversível após a adenotonsilectomia e que intervenção seria necessária para melhorar esses déficits. Entretanto, nenhum dos estudos incluídos propôs qualquer intervenção além da cirúrgica, para reduzir o comprometimento cognitivo e/ou comportamental.

As melhorias no comportamento são claras, mas em relação à neurocognição os resultados são discordantes. No entanto, mesmo que tenham sido observadas melhorias substanciais na memória, atenção, linguagem e raciocínio lógico, não se pode afirmar que os testes utilizados tenham reproduzido o uso dessas habilidades nas rotinas diárias das crianças, ou na escola. Não se pode afirmar qual é o verdadeiro déficit na aprendizagem dessas crianças, pois

isso depende de fatores externos como o estímulo recebido do ambiente e os fatores internos relacionados à maturação e também a motivação para a aprendizagem. Não se pode inferir quais as deficiências na aprendizagem que podem ser revertidas³².

Além disso, existem dificuldades na prática terapêutica na replicação de intervenções psicológicas ou cognitivo-comportamentais, uma vez que cada criança pode apresentar diferentes necessidades em relação à capacidade cognitiva e pode responder de forma diferente ao estímulo. Também é preciso levar em consideração que as comorbidades como obesidade e inflamação sistêmica, bem como o tempo durante o qual estas crianças apresentaram TRS, podem ser fatores que afetam a estrutura cognitiva, contribuindo assim para resultados negativos em testes neurocognitivos.

Outra questão a ser analisada é a possível relação de proporção entre déficits cognitivos/comportamentais e a gravidade dos TRS. Assim, é necessário avaliar separadamente as crianças: não só de acordo com os distúrbios apresentados, mas também de acordo com o tipo de transtorno respiratório de sono (ronco primário, síndrome de resistência das vias aéreas superiores ou apneia obstrutiva do sono), para verificar se tem havido qualquer melhora significativa, e por outro lado, se existem sequelas que merecem intervenção neuropsicológica, psicopedagógica ou cognitivo-comportamental, mesmo após a adenotonsilectomia.

A importância de ter uma equipe multidisciplinar e, particularmente, interdisciplinar para lidar com distúrbios do sono tem sido descrita em alguns estudos^{33,34}. Isso sugere que há necessidade de trabalho combinado entre os profissionais de saúde, incluindo psicólogos, psicopedagogos, terapeutas ocupacionais e fonoaudiólogos, para que seja possível intervir e reduzir os déficits neurocognitivos e comportamentais causados por transtornos respiratórios do sono.

CONCLUSÃO

Estudos anteriores demonstraram a relação entre os TRS e déficits cognitivos e alterações comportamentais em crianças. No entanto, não foram encontrados estudos que propusessem qualquer intervenção para reduzir esses déficits cognitivos ou comportamentais após a adenotonsilectomia.

Os ensaios sobre tratamentos para TRS em crianças necessitam definitivamente de tamanhos de amostra adequados, desenhos randomizados controlados com placebo e medidas de resultado clinicamente relevantes com base numa escala validada internacionalmente para neurocognição e/ou comportamento definida por um consenso.

Espera-se que futuras propostas de pesquisa incluam a reabilitação terapêutica de crianças na esfera

comportamental e cognitiva, em particular através de técnicas aplicadas por um especialista.

REFERÊNCIAS

- 1.Kohler MJ, Lushington K, Kennedy JD. Neurocognitive performance and behavior before and after treatment for sleep-disordered breathing in children. *Nat Sci Sleep* 2010;2:159-85. <https://doi.org/10.2147/NSS.S6934>
- 2.Pirilä-Parkkinen K, Pirttiniemi P, Pääkkö E, Tolonen U, Nieminen P, Löppönen H. Pharyngeal airway in children with sleep-disordered breathing in relation to head posture. *Sleep Breath* 2012;16:737-46. <https://doi.org/10.1007/s11325-011-0569-y>
- 3.Piteo AM, Lushington K, Roberts RM, van den Heuvel CJ, Nettelbeck T, Kohler MJ, *et al.* Prevalence of snoring and associated factors in infancy. *Sleep Med* 2011;12:787-92. <https://doi.org/10.1016/j.sleep.2011.01.019>
- 4.Chang SJ, Chae KY. Obstructive sleep apnea syndrome in children: Epidemiology, pathophysiology, diagnosis and sequelae. *Korean J Pediatr* 2010;53:863-71. <https://doi.org/10.3345/kjp.2010.53.10.863>
- 5.Li HY, Lee LA. Sleep-disordered breathing in children. *Chag Gung Med J* 2009;32:247-57.
- 6.Cohen-Gogo S, Do NT, Levy D, Métreau J, Mornand P, Parisot P, *et al.* Sleep-disordered breathing in children. *Arch Pediatr* 2009;16:123-31. <https://doi.org/10.1016/j.arcped.2008.11.016>
- 7.Carvalho LBC, Prado LF, Silva L, de Almeida MM, Almeida e Silva T, Lora MI, *et al.* Cognitive dysfunction in children with sleep-disordered breathing. *J Child Neurol* 2005;20:400-4. <https://doi.org/10.1177/08830738050200050101>
- 8.Carvalho LB, Prado LB, Ferreira VR, da Rocha Figueiredo MB, Jung A, de Moraes JF, *et al.* Symptoms of sleep disorders and objective academic performance. *Sleep Med* 2013;14:872-6. <https://doi.org/10.1016/j.sleep.2013.05.011>
- 9.Chervin RD, Ruzicka DL, Giordani BJ, Weatherly RA, Dillon JE, Hodges EK, *et al.* Sleep-disordered breathing, behavior and cognition in children before and after adenotonsillectomy. *Pediatrics* 2006;117:e769-78. <https://doi.org/10.1542/peds.2005-1837>
- 10.Garetz SL. Behavior, cognition, and quality of life after adenotonsillectomy for pediatric sleep-disordered breathing: summary of the literature. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2008;138(1 supl):S19-26. <https://doi.org/10.1016/j.otohns.2007.06.738>
- 11.Mitchell RB, Kelly J. Behavior, neurocognition and quality-of-life in children with sleep-disordered breathing. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005;70:395-406. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2005.10.020>
- 12.Giordani B, Hodges EK, Guire KE, Ruzicka DL, Dillon JE, Weatherly RA, *et al.* Changes in neuropsychological and behavioral functioning

- in children with and without obstructive sleep apnea following Tonsillectomy. *J Int Neuropsychol Soc* 2012;18:212-22. <https://doi.org/10.1017/S1355617711001743>
13. Marcus CL, Moore RH, Rosen CL, Giordani B, Garetz SL, Taylor HG, *et al.* A randomized trial of adenotonsillectomy for childhood sleep apnea. *N Engl J Med* 2013;368:2366-76. <https://doi.org/10.1056/NEJMoa1215881>
14. Ali NJ, Pitson D, Stradling JR. Sleep disordered breathing: effects of adenotonsillectomy on behaviour and psychological functioning. *Eur J Pediatr* 1996;155:56-62. <https://doi.org/10.1007/bf02115629>
15. Tran KD, Nguyen CD, Weedon J, Goldstein NA. Child behavior and quality of life in pediatric obstructive sleep apnea. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2005;131:52-7. <https://doi.org/10.1001/archotol.131.1.52>
16. Friedman BC, Hendeles-Amitai A, Kozminsky E, Leiberman A, Friger M, Tarasiuk A, *et al.* Adenotonsillectomy improves neurocognitive function in children with obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep* 2003;26:999-1005. <https://doi.org/10.1093/sleep/26.8.999>
17. Kohler MJ, Lushington K, van den Heuvel CJ, Martin J, Pamula Y, Kennedy D. Adenotonsillectomy and neurocognitive deficits in children with Sleep Disordered Breathing. *PLoS One* 2009;4:e7343. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0007343>
18. Huang YS, Guilleminault C, Yang CM, Wu YY, Chen NH. Attention-deficit/hyperactivity disorder with obstructive sleep apnea. A treatment outcome study. *Sleep Med* 2007;8:18-30. <https://doi.org/10.1016/j.sleep.2006.05.016>
19. Avior G, Fishman G, Leor A, Sivan Y, Kaysar N, Derowe A. The effect of tonsillectomy and adenoidectomy on inattention and impulsivity as measured by the Test of Variables of Attention (TOVA) in children with obstructive sleep apnea syndrome. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004;131:367-71. <https://doi.org/10.1016/j.otohns.2004.04.015>
20. Wei JL, Mayo MS, Smith HJ, Reese M, Weatherly RA. Improved behavior and sleep after adenotonsillectomy in children with sleep-disordered breathing. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2007;133:974-9. <https://doi.org/10.1001/archoto.2009.74>
21. Mitchell RB, Kelly J. Child behavior after adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea syndrome. *Laryngoscope* 2005;115:2051-5. <https://doi.org/10.1097/01.MLG.0000181516.65577.94>
22. Mitchell RB, Kelly J. Long-term changes in behavior after adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea syndrome in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2006;134:374-8. <https://doi.org/10.1016/j.otohns.2005.11.035>
23. Mitchell RB, Kelly J. Behavioral changes in children with mild sleep-disordered breathing or obstructive sleep apnea after adenotonsillectomy. *Laryngoscope* 2007;117:1685-8. <https://doi.org/10.1097/MLG.0b013e318093edd7>

24. Wei JL, Bond J, Mayo MS, Smith HJ, Reese M, Weatherly RA. Improved behavior and sleep after adenotonsillectomy in children with sleep-disordered breathing: long-term follow-up. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2009;135:642-6. <https://doi.org/10.1001/archoto.2009.74>
25. Goldstein NA, Fatima M, Campbell TF, Rosenfeld RM. Child behavior and quality of life before and after tonsillectomy and adenoidectomy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;128:770-5. <https://doi.org/10.1001/archotol.128.7.770>
26. Ezzat WF, Fawaz S, Abdelrazek Y. To what degree does adenotonsillectomy affect neurocognitive performance in children with obstructive sleep apnea hypopnea syndrome due to adenotonsillar enlargement? *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* 2010;72:215-9. <https://doi.org/10.1001/archotol.128.7.770>
27. Li HY, Huang YS, Chen NH, Fang TJ, Lee LA. Impact of adenotonsillectomy on behavior in children with sleep-disordered breathing. *Laryngoscope* 2006;116:1142-7. <https://doi.org/10.1097/01.mlg.0000217542.84013.b5>
28. Uema SF, Vidal MV, Fujita R, Moreira G, Pignatari SS. Behavioral evaluation in children with obstructive sleep disorders. *Braz J Otorhinolaryngol* 2006;72:120-2. [https://doi.org/10.1016/s1808-8694\(15\)30044-6](https://doi.org/10.1016/s1808-8694(15)30044-6)
29. Ikeda FH, Horta PA, Bruscatto WL, Dolci JE. Intellectual and school performance evaluation of children submitted to tonsillectomy and adenotonsillectomy before and after surgery. *Braz J Otorhinolaryngol* 2012;78:17-23. <https://doi.org/10.1590/S1808-86942012000400005>
30. Goldstein NA, Post JC, Rosenfeld RM, Campbell TF. Impact of tonsillectomy and adenoidectomy on child behavior. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2000;126:494-8. <https://doi.org/10.1001/archotol.126.4.494>
31. Esteller E, Barceló M, Segarra F, Estivill E, Girabent-Farrés M. Neurocognitive and behavioral disturbances after adenotonsillectomy in obstructive sleep apnea syndrome. *An Pediatr (Barc)* 2014;80:214-20. <https://doi.org/10.1016/j.anpedi.2013.06.037>
32. Gozal D. Sleep-disordered breathing and school performance in children. *Pediatrics* 1998;102:616-20. <https://doi.org/10.1542/peds.102.3.616>
33. Wiggs LD. Pediatric sleep disorders: the need for multidisciplinary sleep clinics. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67(suppl 1):S115-8. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2003.08.008>
34. Meltzer LJ, Moore M, Mindell JA. The need for interdisciplinary pediatric sleep clinics. *Behav Sleep Med* 2008;6:268-82. <https://doi.org/10.1080/15402000802371395>