



REVISTA PAULISTA DE PEDIATRIA

www.rpped.com.br



RELATO DE CASO

Aerofagia patológica: uma causa rara de distensão abdominal crônica



Lisieux Eyer de Jesus*, Ana Beatriz C.S.S. Cestari, Orli Carvalho da Silva Filho, Marcia Antunes Fernandes e Livia Honorato Firme

Universidade Federal Fluminense (UFF), Niterói, RJ, Brasil

Recebido em 11 de novembro de 2014; aceito em 18 de janeiro de 2015
Disponível na Internet em 19 de junho de 2015

PALAVRAS-CHAVE

Aerofagia;
Distensão patológica;
Esvaziamento
gástrico

Resumo

Objetivo: Descrever o caso de uma adolescente com aerofagia patológica, uma doença rara causada pela deglutição excessiva e inapropriada de ar, e revisar o tratamento e os diagnósticos diferenciais.

Descrição do caso: Menina de 11 anos portadora de retardo mental e cegueira, apresentava problemas comportamentais associados a retardo do desenvolvimento, foi consultada por distensão abdominal persistente por oito meses. Sua história pregressa incluía uma fundoplicatura à Nissen. Tomografia e radiografias abdominais mostravam distensão difusa do trato digestivo por ar, incluindo cólon e delgado. Doença de Hirschsprung foi excluída. A distensão persistiu mesmo após o controle da constipação e era mínima de manhã e máxima à noite. Ruídos audíveis e repetitivos de deglutição de ar foram observados e auscultados. A criança foi tratada farmacologicamente com o diagnóstico de aerofagia patológica associado a distúrbio obsessivo compulsivo, sem sucesso. A paciente foi submetida a gastrostomia descompressiva endoscopia e manteve nutrição oral.

Comentários: A aerofagia patológica é uma doença rara e autolimitada em crianças, mas pode ser um problema grave e persistente naquelas com problemas neuropsiquiátricos, nas quais pode causar complicações sérias. Os tratamentos comportamentais e farmacológicos têm pouco sucesso nesse grupo. Casos graves podem precisar de tratamento cirúrgico, principalmente gastrostomia descompressiva

© 2015 Sociedade de Pediatria de São Paulo. Publicado por Elsevier Editora Ltda. Todos os direitos reservados.

* Autor para correspondência.

E-mail: lisieux@uol.com.br (L.E. Jesus).

KEYWORDS

Aerophagy;
Pathologic dilatation;
Gastric emptying

Pathologic aerophagia: a rare cause of chronic abdominal distension**Abstract**

Objective: To describe an adolescent with pathologic aerophagia, a rare condition caused by excessive and inappropriate swallowing of air and to review its treatment and differential diagnoses.

Case description: An 11 year-old mentally impaired blind girl presenting serious behavior problems and severe developmental delay with abdominal distension from the last 8 months. Her past history included a Nissen fundoplication. Abdominal CT and abdominal radiographs showed diffuse gas distension of the small bowel and colon. Hirschsprung's disease was excluded. The distention was minimal at the moment the child awoke and maximal at evening, and persisted after control of constipation. Audible repetitive and frequent movements of air swallowing were observed. The diagnosis of pathologic aerophagia associated to obsessive compulsive disorder and developmental delay was made, but pharmacological treatment was unsuccessful. The patient was submitted to an endoscopic gastrostomy, permanently opened and elevated relative to the stomach. The distention was resolved, while maintaining oral nutrition

Comments: Pathologic aerophagia is a rare self-limiting condition in normal children exposed to high levels of stress and may be a persisting problem in children with psychiatric or neurologic disease. In this last group, the disease may cause serious complications. Pharmacological and behavioral treatments are ill-defined. Severe cases may demand surgical strategies, mainly decompressive gastrostomy.

© 2015 Sociedade de Pediatria de São Paulo. Published by Elsevier Editora Ltda. All rights reserved.

Introdução

A aerofagia patológica, causada por excessiva e inadequada deglutição de ar, é uma condição rara em pediatria clínica. A doença afeta principalmente crianças normais que lidam com situações de estresse, mas aproximadamente 25% dos pacientes apresentam problemas psiquiátricos e/ou neurológicos graves. O diagnóstico diferencial envolve principalmente outras síndromes disfuncionais gastrointestinais.

Descrevemos aqui um caso de aerofagia patológica grave em uma criança em idade escolar com retardo mental, bem como uma revisão da literatura sobre o tema.

Descrição do caso

Criança de 11 anos com retardo mental, do sexo feminino, foi transferida de outro hospital para a Enfermaria de Pediatria do Hospital Universitário Antonio Pedro, Rio de Janeiro, Brasil, para investigação de possível megacólon agangliônico. A menina era cega, apresentava graves problemas de comportamento e atraso grave de desenvolvimento e não era capaz de cooperar com anamnese e exame físico. A mãe relatou um histórico de distensão abdominal apenas nos últimos oito meses que não respondia a enemas repetidos e associados a crises de dor que exigiam visitas repetitivas aos serviços de emergência pediátrica. Constipação moderada era observada desde a infância e era tratada pelo uso ocasional de laxantes orais. O apetite era preservado durante as crises e não havia sinais de disfunção gástrica, náusea ou vômito.

O exame físico mostrou uma criança pré-púbere seriamente desnutrida, -14,5kg (< percentil 5 da curva de



Figura 1 Distensão abdominal grave, que causava limitação da expansão torácica. Cicatriz abdominal corresponde ao local da gastrostomia anterior. Observe as cicatrizes na mão, devido à mordedura de repetição.

crescimento da Organização Mundial da Saúde),¹ 102cm (< percentil 5 da curva de crescimento da Organização Mundial da Saúde),¹ com distensão abdominal grave e difusa (76cm de circunferência abdominal no nível da cicatriz umbilical) (fig. 1). Peristalse era normal. Não havia massas palpáveis ou dor abdominal. Exame anal e retal mostrou um ânus tópico normotônico. O reto estava cheio de fezes sólidas.

A avaliação neuropsiquiátrica confirmou atraso grave de desenvolvimento e agressividade desproporcional em relação à equipe médica. Vários movimentos repetitivos

estereotipados (morder das mãos, mover o tórax para frente e para trás e agitar um chocalho). A paciente fazia uso crônico de periciazina (8mg de manhã e 10mg à noite), que foi gradualmente retirado durante a internação.

A criança era o resultado de uma gestação gemelar, nascida prematuramente. Ela apresentou catarata congênita e havia sido submetida a uma gastrostomia e fundoplicatura aos três meses para tratar problemas de deglutição, aspiração repetitiva e refluxo gastroesofágico sintomático. Depois de um período perinatal difícil, a paciente foi abandonada pela mãe e institucionalizada. A gastrostomia foi removida e ela foi então alimentada por via oral. A menina foi adotada aos dois anos, com outras duas crianças com deficiência neurológica. A família já tinha outros filhos naturais e o pai está em cadeira de rodas.

Tomografia computadorizada do abdômen e várias radiografias abdominais mostraram distensão difusa por presença de gás no intestino delgado e cólon (fig. 2).

A constipação foi controlada com enemas diários por 15 dias, após os quais a criança evacuou espontaneamente diariamente. Uma biópsia retal excluiu a doença de Hirschsprung. A observação clínica demonstrou que a distensão era mínima quando a criança acordava de manhã (média de circunferência abdominal de 68cm) e máxima à noite (média de circunferência abdominal de 74cm). Foram observados movimentos sonoros, repetitivos e frequentes de deglutição de ar. Para testar a hipótese de aerofagia patológica em uma paciente incapaz de arrotar, seu perímetro abdominal foi medido (76cm) e uma sonda nasogástrica foi colocada e



Figura 2 Distensão abdominal causada por gases difusa e grave que atinge o intestino delgado e o cólon.

mantida aberta por 24 horas. No fim do período, o perímetro abdominal era de 61cm. Algumas horas após a remoção do cateter, seu perímetro abdominal alcançou 78cm.

Partindo do diagnóstico de aerofagia patológica associada a transtorno obsessivo-compulsivo e atraso no desenvolvimento, o tratamento com risperidona 1,5mg/dia (0,5mg de manhã e 1mg à noite) por três semanas não teve sucesso. O uso de carbono oral foi considerado impraticável.

A criança foi submetida a uma gastrostomia endoscópica, sem complicações. A família foi ensinada a manter a gastrostomia aberta e elevada >30cm em relação ao estômago, tão frequentemente quanto possível, para permitir a eliminação do ar engolido, evitar a perda de secreções gástricas e, ao mesmo tempo, permitir a nutrição oral normal. Isso foi possível com um dispositivo de alongamento ligado ao tubo da gastrostomia e fixado à parede torácica anterior em direção superior quando a criança estava sentada ou de pé, durante o dia, o que resolveu a distensão abdominal crônica. A criança, no entanto, manteve os movimentos repetitivos de deglutição.

No momento do presente relato, a família relata drenagem constante de ar da gastrostomia e recorrência da distensão abdominal sempre que a gastrostomia permanece fechada por um longo período. A constipação crônica não se repetiu. A menina permanece sob tratamento psicoterápico e supervisão dos serviços sociais.

Discussão

Em crianças, 70% do gás intestinal é resultado da deglutição de ar.² A expressão radiológica da aerofagia é a presença de gás em todo o intestino delgado, que é fisiológico em recém-nascidos e lactentes, mas limitado a situações específicas em crianças mais velhas.

Os critérios de Roma definiram a aerofagia patológica como deglutição de ar que causa distensão abdominal e/ou flatulência/eructação repetitivas, presentes por mais de 12 semanas em um ano. Esse padrão pode ser problemático em crianças com retardo mental que apresentam constipação e foram previamente submetidas à fundoplicatura e ambos são comuns nessa população. Esses pacientes são frequentemente incapazes de arrotar e massas fecais retais limitam a eliminação de flatos. Somente a nossa paciente e outros dois casos relatados^{3,4} foram previamente submetidos a fundoplicaturas, o que pode ter aumentado a aerofagia patológica, devido à impossibilidade de arrotar. A maioria dos pacientes com aerofagia patológica é de crianças e adolescentes em idade escolar. A doença é rara e crônica; quase metade dos pacientes apresenta sintomas por ≥ 1 ano no momento do diagnóstico.

Doenças psiquiátricas atingem 1/4 dos casos de aerofagia patológica, principalmente retardo mental, autismo e síndrome de Rett.⁵ Embora a aerofagia patológica seja rara, 8,8% de crianças institucionalizadas com retardo mental apresentam aerofagia.² A aerofagia patológica pode representar o espectro mais grave de aerofagia nessa população específica e é possível que haja subnotificação. Não existem dados sobre a incidência de aerofagia patológica na população pediátrica normal. A maioria das crianças sem diagnósticos psiquiátricos anteriores que apresentam aerofagia patológica está lidando com situações agudas de

estresse (por exemplo, início do período escolar, nascimento de irmãos, divórcio dos pais, internação). Nesses casos, a aerofagia patológica tende a desaparecer à medida que a situação estressante é resolvida, mas problemas de linguagem e/ou comportamento são comuns, juntamente com sinais evidentes de ansiedade. Em alguns pacientes, aerofagia patológica é simplesmente substituída por outra expressão de ansiedade.⁶

Alguns especialistas até mesmo associam a aerofagia patológica ao comportamento autodestrutivo. Crianças com retardo mental também sofrem de ansiedade, mas suas manifestações podem ser atípicas e mais difíceis de detectar e tratar nessa população.

A aerofagia patológica pode apresentar complicações tais como vôlvulo, necrose/perfuração intestinal e até morte.^{3,7,8} Todas as complicações cirúrgicas relatadas foram relacionadas à pacientes com retardo mental. Van der Kolk et al. descreveram nove adultos com retardo mental grave, institucionalizados com graves complicações cirúrgicas (perfuração gástrica, necrose gástrica e vôlvulo, com uma morte), que apresentavam aerofagia patológica desde a infância. Esses autores sugerem que a aerofagia patológica não tratada em crianças com deficiência neurológica pode persistir após a maturidade e levar a sérias complicações em longo prazo, que podem ser evitadas por meio da inserção de uma gastrostomia.⁹

Acredita-se que a doença seja causada por movimentos psicogênicos de deglutição de ar semelhante à mioclono (como observamos em nosso paciente índice) ou por movimentos repetitivos de deglutição de ar reflexo devido à abertura paroxística do esfíncter superior do esôfago em pacientes com retardo mental.

Pacientes com aerofagia patológica normalmente buscam ajuda médica devido à grave distensão abdominal, persistente, geralmente mínima quando o paciente acorda de manhã (devido à menor ingestão de ar durante o sono e eliminação de flatos durante o período noturno) e máxima no fim da noite. Dor abdominal associada é frequente. Eructações também são comuns. Sons audíveis de deglutição de ar são patognomônicos da doença. Distúrbios intestinais funcionais associados têm sido relatados, principalmente constipação.⁶ Ocasionalmente, há algum grau de restrição respiratória devido à extrema distensão abdominal. A radiografia abdominal mostra distensão intestinal gástrica difusa, incluindo intestino delgado, sem sinais de obstrução intestinal. A fluoroscopia pode demonstrar os típicos movimentos de deglutição e coordenação faringoesofágica anormal.¹⁰

O diagnóstico diferencial é feito com distúrbios funcionais gastrointestinais (pseudo-obstrução intestinal crônica, constipação grave, doença de Hirschsprung), síndromes de má absorção, obstrução intestinal anatômica e fístulas traqueoesofágicas. Síndrome da dilatação abdominal pode ser considerada em pacientes que foram submetidos à fundoplicatura anterior. O diagnóstico de aerofagia patológica é raro e depende da percepção clínica. A exclusão de outras condições pode exigir exames complementares complexos e atraso no tratamento. Em nosso caso, o diagnóstico foi baseado na exclusão de anormalidades musculares ou neuronais intestinais por meio de biópsia, a persistência dos sintomas após o controle da constipação e a presença de grandes quantidades de ar no intestino delgado, sem sinais

radiológicos de obstrução intestinal (que excluem a pseudo-obstrução intestinal).

Há pouca informação disponível sobre o tratamento de aerofagia patológica, com um nível muito baixo de evidência. Vários tratamentos farmacológicos têm sido sugeridos. Simeticona e antiespasmódicos podem ser tentados, com baixa efetividade. Comprimidos de carbono oral como absorventes de ar têm sido usados, mas sua dosagem e eficácia são nucleares.^{6,11} Observando os bons resultados das benzodiazepinas para tratar síndromes similares a mioclono e a observação de que uma dose intravenosa baixa de clonazepam pode abolir os movimentos patológicos de deglutição em pacientes com aerofagia patológica, Hwang et al. prospectivamente trataram 15 crianças com retardo mental e aerofagia patológica com uma dose oral baixa de clonazepam (0,025mg/kg/dia em duas doses, lentamente aumentada para 0,1mg/kg/dia, conforme necessário) por quatro meses (ou por um mês após o paciente estar assintomático). O medicamento foi lentamente descontinuado. Não foram observados efeitos colaterais graves. Quando comparado com um grupo controle tratado apenas com reconfirmação (n=7), 67% do grupo clonazepam e 14% do grupo de reconfirmação tiveram os sintomas resolvidos ($p=0,032$), ambos sem recorrência.¹⁰ O efeito do clonazepam pode ser mediado centralmente, devido ao controle da ansiedade, ou afetar diretamente o mecanismo patológico que desencadeia os movimentos repetitivos de deglutição.

Terapia comportamental/psicológica pode ser tentada, mas sua eficácia é questionável em pacientes com retardo mental. Reconfirmação/psicoterapia foi eficiente em metade dos casos tratados por Delapetriere et al.⁶ No caso de nosso paciente, tentamos tratamento farmacológico específico para o transtorno obsessivo/compulsivo, sem sucesso.

Tratamento fonoaudiológico foi experimentado com sucesso em 3/13 pacientes,⁶ mas não é uma opção em casos de doença psiquiátrica grave e/ou déficit cognitivo. Em nosso paciente, fonoaudiólogos decidiram que o condicionamento não era possível.

A descompressão com uma sonda nasogástrica pode ser usada em casos de distensão aguda. Os tratamentos cirúrgicos raramente são necessários e são usados quase que exclusivamente em pacientes com retardo mental. Gastrostomia é a proposta mais frequente, mas pode não ser sempre eficaz, como nos casos de Fukukawa e Gauderer.^{3,12} Recentemente Fukugawa et al.³ propuseram uma separação gastroesofágica e o uso de estoma descompressivo esofágico-abdominal para tratar dois pacientes graves que não responderam à gastrostomia (ambos previamente apresentavam complicação com vôlvulo e necrose).

Em conclusão, aerofagia patológica é uma condição rara que ocorre em crianças normais expostas a altos níveis de estresse, para as quais a doença é normalmente autolimitada, ou em crianças com doenças psiquiátricas ou neurológicas. Nesse último grupo, a doença pode persistir e causar sérias complicações. Os tratamentos farmacológicos e comportamentais ainda são mal definidos e seu sucesso é duvidoso. Os casos graves podem exigir estratégias cirúrgicas, principalmente gastrostomia descompressiva.

Financiamento

O estudo não recebeu financiamento.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. De Onis M, Onyango AW, Borghi E, Siyam A, Nishida C, Siekmann J. Development of a WHO growth reference for school-aged children and adolescents. *Bull World Health Organ.* 2007;85:660–7.
2. Loening-Baucke V. Aerophagia as cause of gaseous abdominal distension in a toddler. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2000;31:204–7.
3. Fukuzawa H, Urushihara N, Fukumoto K, Sugiyama A, Mitsunaga M, Watanabe K, et al. Esophagogastric separation and abdominal esophagostomy via jejunal interposition: a new operation for extreme forms of pathologic aerophagia. *J Pediatr Surg.* 2011;46:2035–7.
4. Lecine T, Michaud L, Gottrand F, Launay V, Faure C, Bonnevalle M, et al. Children who swallow air. *Arch Pediatr.* 1998;5:1224–8.
5. Hwang JB, Choi WJ, Kim JS, Lee SY, Jung CH, Lee YH, et al. Clinical features of pathologic childhood aerophagia: early recognition and essential diagnostic criteria. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2005;41:612–6.
6. Delaperrière N, Orega M, Maurage C, Faure N, Labarthe F, Rouillet-Renoleau N, et al. Pathologic childhood aerophagia. *Arch Pediatr.* 2007;14:10–4.
7. Trillis F Jr, Gauderer MW, Ponsky JL, Morrison SC. Transverse colon volvulus in a child with pathologic aerophagia. *J Pediatr Surg.* 1986;21:966–8.
8. Basaran UN, Inan M, Aksu B, Ceylan T. Colon perforation due to pathologic aerophagia in an intellectually disabled child. *J Pediatr Child Health.* 2007;43:710–2.
9. Van der Kolk MB, Bender MH, Goris RJ. Acute abdomen in mentally retarded patients: role of aerophagia. Report of nine cases. *Eur J Surg.* 1999;165:507–11.
10. Hwang JB, Kim JS, Ahn BH, Jung CH, Lee YH, Kam S. Clonazepam treatment of pathologic childhood aerophagia with psychological stresses. *J Korean Med Sci.* 2007;22:205–8.
11. Rosenbach Y, Zahavi I, Nitzan M, Dinari G. Pathologic childhood aerophagy: an under-diagnosed entity. *Eur J Pediatr.* 1988;147:422–3.
12. Gauderer MW, Halpin TC Jr, Izant RJ Jr. Pathologic childhood aerophagia: a recognizable clinical entity. *J Pediatr Surg.* 1981;16:301–5.