

Distrator osteogênico mandibular

Nº430

Fevereiro/2019



produto/procedimento

RELATÓRIO DE RECOMENDAÇÃO





2019 Ministério da Saúde.

É permitida a reprodução parcial ou total desta obra, desde que citada a fonte e que não seja para venda ou qualquer fim comercial.

A responsabilidade pelos direitos autorais de textos e imagens desta obra é da CONITEC.

Informações:

MINISTÉRIO DA SAÚDE

Secretaria de Ciência, Tecnologia e Insumos Estratégicos

Esplanada dos Ministérios, Bloco G, Edifício Sede, 8º andar

CEP: 70058-900, Brasília – DF

E-mail: conitec@saude.gov.br

<http://conitec.gov.br>



CONTEXTO

Em 28 de abril de 2011, foi publicada a Lei nº 12.401 que dispõe sobre a assistência terapêutica e a incorporação de tecnologias em saúde no âmbito do SUS. Esta lei é um marco para o SUS, pois define os critérios e prazos para a incorporação de tecnologias no sistema público de saúde. Define, ainda, que o Ministério da Saúde, assessorado pela Comissão Nacional de Incorporação de Tecnologias – CONITEC, tem como atribuições a incorporação, exclusão ou alteração de novos medicamentos, produtos e procedimentos, bem como a constituição ou alteração de protocolo clínico ou de diretriz terapêutica.

Tendo em vista maior agilidade, transparência e eficiência na análise dos processos de incorporação de tecnologias, a nova legislação fixa o prazo de 180 dias (prorrogáveis por mais 90 dias) para a tomada de decisão, bem como inclui a análise baseada em evidências, levando em consideração aspectos como eficácia, acurácia, efetividade e segurança da tecnologia, além da avaliação econômica comparativa dos benefícios e dos custos em relação às tecnologias já existentes.

A nova lei estabelece a exigência do registro prévio do produto na Agência Nacional de Vigilância Sanitária (ANVISA) para que este possa ser avaliado para a incorporação no SUS.

Para regulamentar a composição, as competências e o funcionamento da CONITEC foi publicado o Decreto nº 7.646 de 21 de dezembro de 2011. A estrutura de funcionamento da CONITEC é composta por dois fóruns: Plenário e Secretaria-Executiva.

O Plenário é o fórum responsável pela emissão de recomendações para assessorar o Ministério da Saúde na incorporação, exclusão ou alteração das tecnologias, no âmbito do SUS, na constituição ou alteração de protocolos clínicos e diretrizes terapêuticas e na atualização da Relação Nacional de Medicamentos Essenciais (RENAME), instituída pelo Decreto nº 7.508, de 28 de junho de 2011. É composto por treze membros, um representante de cada Secretaria do Ministério da Saúde – sendo o indicado pela Secretaria de Ciência, Tecnologia e Insumos Estratégicos (SCTIE) o presidente do Plenário – e um representante de cada uma das seguintes instituições: ANVISA, Agência Nacional de Saúde Suplementar- ANS, Conselho Nacional de Saúde - CNS, Conselho Nacional de Secretários de Saúde - CONASS, Conselho Nacional de Secretarias Municipais de Saúde - CONASEMS e Conselho Federal de Medicina - CFM.



Cabe à Secretaria-Executiva –exercida pelo Departamento de Gestão e Incorporação de Tecnologias em Saúde (DGITS/SCTIE) – a gestão e a coordenação das atividades da CONITEC, bem como a emissão deste relatório final sobre a tecnologia, que leva em consideração as evidências científicas, a avaliação econômica e o impacto da incorporação da tecnologia no SUS.

Todas as recomendações emitidas pelo Plenário são submetidas à consulta pública (CP) pelo prazo de 20 dias, exceto em casos de urgência da matéria, quando a CP terá prazo de 10 dias. As contribuições e sugestões da consulta pública são organizadas e inseridas ao relatório final da CONITEC, que, posteriormente, é encaminhado para o Secretário de Ciência, Tecnologia e Insumos Estratégicos para a tomada de decisão. O Secretário da SCTIE pode, ainda, solicitar a realização de audiência pública antes da sua decisão.

Para a garantia da disponibilização das tecnologias incorporadas no SUS, o decreto estipula um prazo de 180 dias para a efetivação de sua oferta à população brasileira.



SUMÁRIO

1.	RESUMO EXECUTIVO	2
2.	A DOENÇA	5
2.1.	TRATAMENTO RECOMENDADO	6
3.	A TECNOLOGIA	9
4.	BUSCA E ANÁLISE DA EVIDÊNCIA.....	9
A.	OBSTRUÇÃO DAS VIAS AEREAS SUPERIORES EM RECÉM-NASCIDOS E CRIANÇAS COM SEQUENCIA DE PIERRE ROBIN OU SÍNDROMES QUE AFETAM O TAMANHO DA MANDÍBULA	22
B.	MICROGNATIA/RETROGNATIA COM MALOCCLUSÃO DE CLASSE II EM ADULTOS E ADOLESCENTES NÃO-SINDRÔMICOS	26
C.	MICROSSOMIA CRANIOFACIAL UNILATERAL	30
D.	SÍNDROME DA APNEIA OBSTRUTIVA DO SONO	31
E.	COMPLICAÇÕES/SEGURANÇA.....	32
5.	ASPECTOS ECONÔMICOS	34
5.1	CUSTO-EFETIVIDADE DA DISTRAÇÃO OSTEOGÊNICA EM RELAÇÃO À OSTEOTOMIA SAGITAL BILATERAL PARA AUMENTOS MANDIBULARES MAIORES QUE 10 MM EM INDIVÍDUOS COM MICROGNATIA E MALOCCLUSÃO TIPO II.....	34
5.2	CUSTOS ASSOCIADOS À DISTRAÇÃO OSTEOGÊNICA MANDIBULAR EM RECÉM-NASCIDOS E CRIANÇAS COM SEQUÊNCIA DE PIERRE ROBIN ISOLADA OU SINDRÔMICA	37
6.	ASPECTOS ECONÔMICOS – IMPACTO ORÇAMENTÁRIO.....	42
7.	CONSIDERAÇÕES FINAIS	43
8.	RECOMENDAÇÃO INICIAL DA CONITEC.....	43
9.	CONSULTA PÚBLICA.....	43
	CONTRIBUIÇÕES TÉCNICO-CIENTÍFICAS	44
	CONTRIBUIÇÕES SOBRE EXPERIÊNCIA OU OPINIÃO	52
	AVALIAÇÃO GLOBAL DAS CONTRIBUIÇÕES	59
10.	RECOMENDAÇÃO FINAL DA CONITEC	59
11.	DECISÃO.....	60
12.	REFERÊNCIAS.....	61



1. RESUMO EXECUTIVO

Tecnologia: Distrator osteogênico mandibular

Indicações: Anomalias importantes (major) do tamanho da mandíbula (CID-10 K07.0); anomalias da relação entre a mandíbula com a base do crânio (CID-10 K07.1), anomalias congênitas da mandíbula, com obstrução das vias aéreas superiores (sequência de Pierre Robin isolada ou sindrômica ou síndromes que afetam o tamanho da mandíbula - CID-10 Q87.0; Q75.4; Q67.4).

Demandante: Departamento de Atenção Temática e Especializada (DAET), Secretaria de Atenção à Saúde (SAS)

Contexto: As anomalias congênitas ou de desenvolvimento dos ossos do crânio e da face são comuns em todas as populações e podem aparecer de forma esporádica ou como parte de uma síndrome. Entre essas anomalias, as maloclusões esqueléticas são relativamente frequentes e ocorrem devido a problemas relacionados ao desenvolvimento da mandíbula, da maxila ou de ambos, tem impacto importante no posicionamento, alinhamento e funcionamento dos componentes do sistema estomatognático e podem interferir no desempenho de outros sistemas como o digestivo, respiratório e metabólico. A micrognatia ou micrognatismo são termos que se referem a anomalias importantes do tamanho da mandíbula ou maxila para caracterizar situações clínicas nas quais esses ossos são pouco desenvolvidos (hipoplásicos) ou menores do que o padrão de normalidade. Constituem as causas mais comuns de maloclusão esquelética com uma prevalência de 1 para cada 1.500 nascidos vivos e podem ocorrer de forma esporádica ou como parte de até 469 síndromes, dentre as quais as apresentações mais comuns envolvem também a presença de fenda de palato e deformidades da língua (glossoptose). Todos os indivíduos com micrognatia também são afetados com retrognatia, que se refere ao posicionamento posterior anormal da mandíbula ou maxila em relação a outras estruturas da face.

Pergunta: *“A distração osteogênica mandibular é eficaz e segura para aumento mandibular nas anomalias do tamanho da mandíbula em recém-nascidos, crianças, adolescentes e adultos?”*

Evidências científicas: As anomalias mandibulares podem ocorrer de forma esporádica ou como parte de várias síndromes e causam um espectro de complicações estéticas e funcionais. Nesse estudo avaliaram-se duas indicações bem abrangentes da cirurgia de distração osteogênica mandibular. A evidência sobre o aumento mandibular por distração osteogênica como recurso para desobstruir as vias aéreas em recém-nascidos com sequência de Pierre Robin ou síndromes que afetam o tamanho mandibular é composta principalmente por revisões sistemáticas de séries de casos e estudos observacionais retrospectivos. Apesar da heterogeneidade dos estudos com relação aos critérios de indicação para cirurgia, adotando-se na maioria deles o critério de falha a condutas conservadoras e a indicação para traqueostomia, e em relação aos parâmetros quantitativos e métodos utilizados para mensurar os efeitos da intervenção, a casuística é grande e há bastante consistência nos resultados em relação à resolutividade da obstrução, geralmente mensurada por decanulação ou prevenção de traqueostomia, e boa evolução em relação à nutrição e capacidade de alimentação. Não há estudos em que se comparam outras intervenções cirúrgicas com a distração osteogênica mandibular para desobstrução das vias aéreas superiores. Esses resultados são acompanhados por baixas taxas de complicações. A evidência que subsidia o uso da distração osteogênica para o aumento mandibular em casos selecionados de micrognatia com maloclusão de classe II em indivíduos não-sindrômicos em comparação à cirurgia de osteotomia sagital bilateral é composta por revisões sistemáticas de estudos controlados randomizados com baixo risco de viés, sendo, portanto, considerada de alto nível. A distração osteogênica mandibular possibilitou aumentos



mandibulares em média maiores que a osteotomia sagital com a mesma estabilidade esquelética e taxas de recidivas semelhantes em períodos de até 36 meses. As complicações decorrentes dos dois procedimentos não são em sua maioria graves e ocorrem em baixa frequência. A evidência que subsidia a utilização da distração osteogênica para a correção da mandíbula em indivíduos com microsomia craniofacial unilateral é composta por revisão sistemática de séries de casos prospectivas e retrospectivas. Apesar de se apresentarem bons resultados em curto prazo nos casos menos severos, com maloclusão de classes I e IIa, os resultados em longo prazo, até 20 anos, demonstram altas taxas de assimetria, recidivas e necessidade de reintervenções. Em casos mais severos (classes IIb e III) o uso é controverso e associado a resultados insatisfatórios. A evidência que subsidia a utilização da distração osteogênica como recurso para tratar a apneia do sono é composta por revisões sistemáticas de séries de casos retrospectivas e prospectivas. Os estudos são bastante heterogêneos, principalmente no que diz respeito aos parâmetros e metodologia utilizados para mensurar os efeitos das intervenções na evolução da doença, com marcada falta de padronização para avaliação quantitativa. Apesar disso, os resultados são consistentes quando apontam para uma melhora do quadro de apneia noturna após a intervenção cirúrgica, geralmente expressos pela diminuição do índice de apneia hipopneia e aumento da saturação de oxigênio sanguíneo.

Estudo econômico: Quando comparadas entre si a distração osteogênica mandibular e a osteotomia sagital bilateral, considerando os custos e as efetividades em pacientes com aumento mandibular de mais de 10 mm, atingiu-se uma razão de custo efetividade (RCEI) de R\$ 162.376,30 por sucesso cirúrgico. Os resultados refletem que em pacientes com aumento maior que 10 mm, a DOM é mais efetiva, porém os custos da cirurgia são bastante elevados. O maior custo imputado na distração osteogênica mandibular é o do distrator (alongador) mandibular atingindo 28 mil reais para dois distratores. Em outra análise de custos de um ano, os custos da distração osteogênica mandibular superam os da traqueostomia, considerada como intervenção necessária em recém-nascidos com micrognatia congênita e obstrução severa das vias aéreas superiores. Essa diferença é de R\$ 13 mil por recém-nascido no primeiro ano, com projeção de aumento da diferença nos anos subsequentes à cirurgia de distração em função da manutenção dos gastos em pacientes traqueostomizados e diminuição nos que realizam a cirurgia de aumento mandibular.

Avaliação de Impacto Orçamentário: No Brasil atualmente há 29 hospitais habilitados em cirurgia crânio e bucomaxilofacial e considerando a capacidade instalada de cada um como a realização de 17 cirurgias de aumento mandibular por distração/ano, a produção nacional projetada para um ano seria de 493 cirurgias. Pressupondo a proporção maior de cirurgias em recém-nascidos e crianças em relação aos adultos (adotou-se a proporção de 70:30 – pediátrica: adulto) obtém-se 148 cirurgias em adultos por ano e 345 em recém-nascidos e crianças. Considerou-se que essa produção seria mantida em todos os cinco anos da projeção de impacto orçamentário. Considerando o custo da cirurgia pediátrica como o custo incremental ou a diferença entre o custo do procedimento cirúrgico de distração osteogênica mandibular e o custo da traqueostomia evitada, obtém-se um valor de R\$ 12.132,00 por paciente pediátrico/ano. O custo da cirurgia em adultos segue o que se determinou no estudo econômico, ou seja, R\$ 29.318,00. Assim fazendo-se obtém-se uma projeção de gastos pela incorporação do distrator osteogênico mandibular de R\$ 8,4 milhões por ano e de 42 milhões em cinco anos.

Recomendação inicial da CONITEC: Os membros da CONITEC presentes no plenário no dia 03/10/2018 durante a 71ª reunião ordinária da Comissão decidiram por unanimidade e de forma preliminar recomendar a não incorporação do distrator osteogênico ao SUS, entendendo ser o valor desse equipamento médico de uso único bastante elevado, gerando razão de custo-efetividade incremental desfavorável.



Consulta pública: A Consulta Pública nº 62 foi realizada entre os dias 16/10/2018 a 05/11/2018. Foram recebidas 298 contribuições, sendo 31 pelo formulário para contribuições técnico-científicas e 267 pelo formulário para contribuições sobre experiência ou opinião. Das 22 contribuições avaliadas de cunho técnico-científico, 18 (82%) discordaram totalmente e 4 (18%) discordaram parcialmente da recomendação preliminar da CONITEC. Os argumentos apresentados para justificar a discordância total ou parcial podem ser categorizados nos que se referem ao reconhecimento da eficácia/efetividade da tecnologia em avaliação, à existência de consensos de prática clínica em que se preconiza a utilização da tecnologia para as indicações avaliadas, à difusão da tecnologia em hospitais e centros de pesquisa brasileiros; à falta de tecnologias substitutivas nos casos indicados de Sequência de Pierre Robin e outras doenças congênitas com comprometimento das vias aéreas e aos piores prognóstico, desenvolvimento global, qualidade de vida e maiores custos associados aos recém-nascidos e crianças que são submetidas à traqueostomia. Novas evidências submetidas constituem-se de relatos de séries de casos, estudos observacionais retrospectivos, opiniões de especialistas e revisão opinativa. Assim foram submetidos 9 estudos publicados principalmente por cirurgiões brasileiros, em que se relatam a utilização da distração mandibular osteogênica bilateral em recém-nascidos, crianças ou adolescentes diagnosticados com Sequência de Pierre Robin isolada ou associada a síndromes e com dificuldades respiratória e alimentar severas, com resultados favoráveis. O procedimento possibilitou a reabilitação global dos indivíduos tanto do ponto de vista funcional, incluindo respiração (decanulação), deglutição, alimentação, ganho ponderal, desenvolvimento da fala, quanto da deformidade mandibular. As contribuições de experiência e opinião reforçam esses aspectos satisfatórios da utilização da tecnologia. Sendo assim, o plenário da CONITEC entendeu que houve argumentação suficiente para alterar a recomendação preliminar.

Recomendação final da CONITEC: Aos 07 (sete) dias do mês de fevereiro de 2019, reuniu-se a Comissão Nacional de Incorporação de Tecnologias no SUS – CONITEC, regulamentada pelo Decreto nº 7.646, de 21 de dezembro de 2011, e os membros presentes deliberaram por unanimidade recomendar a incorporação do distrator osteogênico para tratamento de deformidades crânio e buco-maxilo-faciais congênitas ou adquiridas, mediante negociação de preço e conforme Protocolo do Ministério da Saúde. Assinou-se o registro de deliberação nº 419/2019, pela incorporação da tecnologia.

Decisão: Publica-se a portaria nº 6, de 18 de fevereiro de 2019 por meio da qual se torna pública a decisão de incorporar o distrator osteogênico para tratamento de deformidades crânio e buco-maxilo-faciais congênitas ou adquiridas, mediante negociação de preço e conforme Protocolo do Ministério da Saúde, no âmbito do Sistema Único de Saúde - SUS. Publicada no Diário Oficial da União (DOU) nº 35, no dia 19/02/2019, seção 1, página 51.



2. A DOENÇA

As anomalias congênitas ou de desenvolvimento dos ossos do crânio e da face são comuns em todas as populações e podem aparecer de forma esporádica ou como parte de uma síndrome. Entre essas anomalias, as maloclusões esqueléticas são relativamente frequentes e ocorrem devido a problemas relacionados ao desenvolvimento da mandíbula, da maxila ou de ambos, tem impacto importante no posicionamento, alinhamento e funcionamento dos componentes do sistema estomatognático e podem interferir no desempenho de outros sistemas como o digestivo, respiratório e metabólico. A micrognatia ou micrognatismo são termos que se referem a anomalias importantes do tamanho da mandíbula ou maxila para caracterizar situações clínicas nas quais esses ossos são pouco desenvolvidos (hipoplásicos) ou menores do que o padrão de normalidade. Constituem as causas mais comuns de maloclusão esquelética com uma prevalência de 1 para cada 1.500 nascidos vivos e podem ocorrer de forma esporádica ou como parte de até 469 síndromes, dentre as quais as apresentações mais comuns envolvem também a presença de fenda de palato e deformidades da língua (glossoptose). Todos os indivíduos com micrognatia também são afetados com retrognatia, que se refere ao posicionamento posterior anormal da mandíbula ou maxila em relação a outras estruturas da face.

As maloclusões esqueléticas podem ser agrupadas segundo Angle em três classes de acordo com o posicionamento relativo entre a maxila e a mandíbula, que é avaliado por cefalometria. De forma bastante simplificada, na maloclusão de classe I há alterações que se restringem aos dentes, não afetando os ossos, com posicionamento normal dos primeiros molares inferiores em relação aos superiores, na maloclusão de classe II o primeiro molar superior está localizado mais anteriormente do que o primeiro molar inferior e na classe III o primeiro molar superior está mais posteriormente localizado do que o primeiro inferior (**Figura 1**).

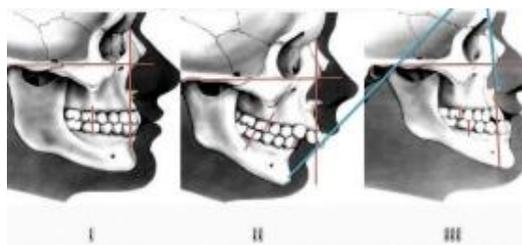


Figura 1 – Representação gráfica das classes de maloclusões esqueléticas segundo Angle.



As maloclusões esqueléticas afetam os dentes, a mastigação, a fala, os tecidos e as estruturas anatômicas adjacentes e estão associadas a comorbidades como obstrução das vias aéreas superiores, apneia do sono, problemas gástricos, deficiências do sistema imune e do crescimento. Essas condições afetam também aspectos relacionados ao bem-estar psicológico, ao desenvolvimento intelectual e socioeconômico e, portanto, tem importante impacto na qualidade de vida. No Brasil, segundo inquérito populacional conduzido em 2010, a prevalência de maloclusões severas e muito severas (incapacitantes) em crianças e adolescentes com idades entre 5 e 19 anos (n≈12.000) varia entre 6,5% a 9,1% (PEREZ; FRAZÃO; RONCALLI, 2013). No Brasil, esses indivíduos sofrem importante impacto negativo na qualidade de vida, muito maior que os indivíduos com oclusão menos severa ou normal, da ordem de 24 a 28% maiores (DEMARCO *et al.*, 2017).

A doença é de origem multifatorial em que há o envolvimento de componentes genético e ambiental não se identificando até o presente momento fatores de risco bem estabelecidos e determinantes para a sua ocorrência. Várias doenças congênitas e síndromes se caracterizam pela presença de mandíbula ou maxila micrognáticas, sendo as mais comuns a microssomia hemifacial, a sequência de Pierre Robin (caracterizada geralmente pela tríade de mandíbula micrognática, glossoptose e fenda de palato), síndromes de Treacher Collins, de Goldenhar, Nager e Stickler.

Quanto mais severa é a deformação desses ossos, mais graves são as comorbidades associadas. Em relação aos dentes e articulação temporomandibular, destacam-se as altas incidências de bruxismo e apinhamento dos dentes, além de comprometimento funcional dessa articulação, principalmente em indivíduos com maloclusão de classe II.

Apneia do sono e hipóxia crônica são comorbidades frequentes em recém-nascidos com maloclusão de classe II e, sem tratamento, podem causar complicações cardiopulmonares e neurológicas. Em recém-nascidos a deformidade do sistema estomatognático também causa problemas alimentares, nutricionais e de funcionamento do sistema digestivo com alta incidência de refluxo gastroesofágico.

2.1. Tratamento recomendado

As opções de tratamento nos casos de deficiência de crescimento da mandíbula envolvem pelo menos intervenções ortodônticas e cirúrgicas ortognáticas e de outras estruturas adjacentes que possam estar também afetadas, como o palato e a articulação temporomandibular. O tratamento é complexo e multiprofissional dada a abrangência do comprometimento estético e funcional causado pela deformidade de estruturas ósseas craniofaciais.

De maneira geral, as indicações para cirurgia ortognática para correção de deformidades craniofaciais surgem da necessidade de reparação de deformidade musculoesqueléticas, ósseas e de tecidos moles quando há evidência física ou proveniente de algum exame de imagem de



desvio dos parâmetros de normalidade cefalométricos; da correção de maloclusões que não podem ser normalizadas por meios não cirúrgicos; de problemas da fala; de anormalidades na mastigação e deglutição; de doença dental ou periodontal; de problemas sociais ou psicológicos associados; da necessidade de correção de problemas da articulação temporomandibular ou musculares e da correção de apneia do sono.

Nos casos específicos de cirurgia de aumento mandibular a presença de deformidades do côndilo da articulação temporomandibular, como na anquilose ou devido à reabsorção condilar, e de obstrução das vias aéreas são indicações absolutas para a cirurgia. Os principais objetivos dessa cirurgia são o reestabelecimento e harmonização da forma e funções da mandíbula com estabilidade em longo prazo, como, por exemplo, a correção definitiva da obstrução das vias aéreas superiores e do relacionamento oclusal.

De forma mais abrangente, os principais fatores de risco cirúrgico associados aos procedimentos ortognáticos passam pela coexistência de doenças sistêmicas graves; idade do paciente; crescimento ativo ou desproporcional dos ossos afetados; severidade da deformidade óssea como nas maloclusões maiores que 10 mm; presença de condições que afetem a cicatrização ou a homeostase dos tecidos e estruturas no local da intervenção, como irradiação prévia e diabetes; presença de apneia do sono; a realização de procedimentos cirúrgicos subsequentes devido à não resolutividade de procedimento prévio e a coexistência de comprometimento da articulação temporomandibular.

Tanto o diagnóstico quanto o planejamento cirúrgico e de outras intervenções se apoiam em técnicas de imagem, principalmente na radiografia panorâmica associada à cefalometria, e mais recentemente na tomografia computadorizada, documentação fotográfica ou técnicas de aquisição e manipulação de imagens por computador.

Os três principais procedimentos cirúrgicos utilizados para aumento/alongamento e correção mandibulares são as cirurgias de osteotomia sagital com fixação rígida, a osteotomia em L invertido com enxertia óssea e fixação rígida e a distração osteogênica mandibular tanto para o aumento quanto para o alongamento desse osso. Esses procedimentos cirúrgicos podem ser acompanhados de outras intervenções a depender do caso clínico em tratamento, tais como osteotomia maxilar (Le Fort I), osteotomia alveolar, enxertias, genioplastia, reconstrução do côndilo mandibular, entre outros. Todos esses procedimentos requerem anestesia geral e internação pós-cirúrgica.

As osteotomias mandibulares são atualmente o padrão ouro para o aumento mandibular e já vem sendo realizadas há mais de 60 anos após a introdução originalmente por Trauner e Obwegeser. Nessas cirurgias o ramo mandibular é seccionado em duas regiões com broca ou serra para separar a mandíbula em dois segmentos que são depois separados na direção sagital para conseguir o aumento. As osteotomias são através da cortical lateral do ramo da mandíbula e, na horizontal, por meio da face medial do ramo acima da língua. Uma terceira osteotomia sagital une esses dois cortes, separando a mandíbula em dois segmentos. Após a separação as extremidades são fixadas, no procedimento de fixação rígida, com parafusos bicorticais ou



miniplacas de aço inoxidável ou titânio e vários tipos de parafusos. As principais complicações relacionadas às osteotomias são as hemorragias, fraturas inadequadas, posicionamento incorreto da cabeça da mandíbula, infecção e alteração neurosensorial. Nesse tipo de cirurgia as recidivas pós-cirúrgicas têm sido associadas a uma série de fatores relacionados aos pacientes e às modalidades cirúrgicas dentre os quais se destacam a quantidade de aumento sagital, com corte para estabilidade de até 10 mm de aumento e a reabsorção condilar, que causa instabilidade na articulação temporomandibular. Esses procedimentos são atualmente ofertados pelo Sistema Único de Saúde.

A distração osteogênica mandibular é uma técnica cirúrgica mais recente, introduzida por McCarthy na década de noventa. Para conseguir o aumento mandibular são feitos em ambos os lados da mandíbula cortes ósseos verticais com broca ou serra na altura do segundo molar. Fixa-se com parafusos, em ambas as extremidades do corte, as partes móveis de um distrator osteogênico, colocado na posição sagital (**Figura 2**). Essas partes móveis são separadas de forma controlada a taxas que variam de 0,5 a 1 mm por dia para induzir sob tensão a formação de tecido ósseo novo entre as extremidades do corte. Depois de um período o distrator é retirado por meio de uma nova cirurgia.

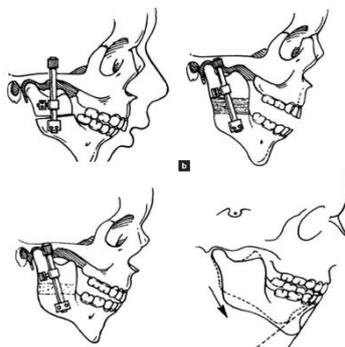


Figura 2 – Distrator osteogênico mandibular interno fixado em ambas as extremidades do corte ósseo em um lado da mandíbula. Processo de distração e formação de tecido ósseo novo.

A distração osteogênica deve seguir cinco etapas, a saber, corticotomia ou osteotomia; instalação do distrator; período de latência; período de ativação (aplicação das forças de distração) e período de consolidação.

A distração osteogênica mandibular tem sido utilizada em casos nos quais há necessidade de aumentos mandibulares maiores que 10 mm e está associada a uma menor taxa de lesão ao nervo alveolar inferior e a problemas neurosensoriais e de parestesia do queixo e dos lábios. Os aumentos mandibulares maiores que 10 mm estão associados a uma taxa de recidiva significativa quando realizados por osteotomia sagital.



3. A TECNOLOGIA

O distrator osteogênico é um equipamento médico utilizado para fixar e estabilizar cotos ósseos separados por osteotomia enquanto são submetidos a força de distração para estimular a osteogênese. Esses equipamentos podem ser internos, justapostos aos ossos, ou externos, quando parte do equipamento fica aparente, junto à pele (**Figura 3**). São compostos por placas para ancoragem aos ossos acopladas a hastes em forma de trilho ou rosca que permitem, por meio de parafusos ou outros dispositivos, o afastamento das placas de forma controlada e a taxas pré-determinadas. Esses materiais são feitos de titânio ou aço inoxidável e estão disponíveis em diversos tamanhos, para uso adulto e infantil, e com diferentes capacidades de extensão. Esses equipamentos podem ser unidirecionais ou multidirecionais.



Figura 3 – Exemplos de distratores mandibulares interno (esquerda) e externo (direita).

No Brasil esses equipamentos médicos para distração mandibular (internos e externos, unidirecionais e multidirecionais) são registrados na ANVISA e atualmente há pelo menos seis produtores com registros ativos.

4. BUSCA E ANÁLISE DA EVIDÊNCIA

Conduziu-se busca estruturada a partir da elaboração de pergunta de pesquisa de acordo com a estratégia PICO (**Tabela 1**). O Departamento de Atenção Especializada e Temática da Secretaria de Atenção à Saúde desse Ministério protocolou o pedido de avaliação do distrator osteogênico para tratamento de deformidades crânio e bucomaxilofaciais com vistas a uma possível incorporação desse equipamento médico à Tabela de Procedimentos, Medicamentos e OPM do SUS.

Uma vez que as deformidades de crânio e bucomaxilofaciais são características comuns a um grupo bastante amplo e heterogêneo de doenças e condições clínicas foi inicialmente conduzida



uma busca por revisões sistemáticas publicadas nos últimos cinco anos e nas quais se abordasse a utilização de distração osteogênica na correção de deformidades craniofaciais ou no tratamento de problemas funcionais decorrentes dessas deformações. A busca foi conduzida na base Pubmed utilizando o termo "*distraction osteogenesis*"[All Fields] e os filtros para revisão sistemática e humanos. A expectativa foi que se traçasse um panorama do conhecimento existente sobre a utilização dos distratores nesse contexto clínico.

Entre as 57 revisões sistemáticas recuperadas foram selecionadas 17 nas quais se abordava a utilização de distração osteogênica na correção de deformidades craniofaciais ou no tratamento de problemas funcionais decorrentes dessas deformações. Entre as selecionadas, em 10 se tratava da utilização da distração osteogênica para a aumento mandibular para se atingir a normalidade do complexo craniofacial e permitir a regularização de funções como a mastigação, deglutição, respiração e sono, inclusive em crianças com sequência de Pierre Robin indicadas para traqueostomia. Em três se tratava da correção do terço médio da face (maxila), outras três traziam a síntese de estudos sobre aumento da crista alveolar em mandíbulas atróficas visando à adaptação de implantes dentários e em uma tratava-se da distração dos ossos do crânio em craniossinostoses esporádicas ou sindrômicas, excluindo-se os estudos em que deformidades concomitantes das maxilas e mandíbula eram simultaneamente corrigidas por distração osteogênica.

Além do aspecto quantitativo avaliou-se também o nível de evidência disponível sobre o assunto, a partir da análise das revisões sistemáticas pertinentes a cada um dos quatro grandes tópicos descritos acima. Os resultados são apresentados na **Tabela 1**.

Tabela 1 – Características das revisões sistemáticas selecionadas entre as publicadas na base *Pubmed* sobre distração osteogênica craniofacial no período de 2013 a 2018.

Objetivo da distração osteogênica / população incluída nos estudos	Número de revisões sistemáticas sobre o tema	Nível da evidência incluída nas revisões sistemáticas
Aumento mandibular / hipoplasia ou micrognatismo mandibular (CID-10 K07.0 anomalias importantes (major) do tamanho da mandíbula); assimetria da mandíbula; retrognatismo mandibular (CID-10 K07.1 anomalias da relação entre a mandíbula com a base do crânio). Assimetria facial (Q67 deformidades osteomusculares congênitas da cabeça, da face, da coluna e do tórax). Sequência de Pierre Robin. (Q87.0 Síndromes com malformações congênitas afetando predominantemente o aspecto da face).	10	Estudos controlados randomizados; estudos observacionais e séries de casos



Correção do terço médio da face (maxilas) / hipoplasia ou micrognatismo maxilar (CID-10 K07.0); assimetria da maxila; retrognatismo maxilar (CID-10 K07.1).	3	Estudos controlados randomizados, estudos observacionais e séries de casos
Aumento da crista alveolar em mandíbulas atróficas visando à adaptação de implantes dentários (CID-10 K08.2 Atrofia do rebordo alveolar sem dentes).	3	Estudos controlados randomizados, estudos observacionais e séries de casos
Correção dos ossos do crânio / craniossinostoses	1	Estudos observacionais e séries de casos

A partir dessa análise inicial, considerando o maior número de doenças e condições clínicas abrangidas, o maior nível de evidência disponível e o maior volume de publicações, selecionou-se a distração osteogênica mandibular para investigação mais aprofundada quanto à eficácia e segurança em relação à cirurgia ortognática convencional ou outras medidas de suporte. Elaborou-se então pergunta de pesquisa relacionada ao tema por meio da metodologia PICO, cujos elementos estão descritos na **Tabela 2**.

Tabela 2 – Componentes da pergunta utilizada para estruturar a busca em bases de dados

Componente da pergunta de pesquisa	Descrição
População	Recém-nascidos, crianças, adolescentes ou adultos com hipoplasia ou micrognatismo mandibular; assimetria da mandíbula ou retrognatismo mandibular
Intervenção	Distração osteogênica mandibular
Comparador	Sem restrição
Desfechos	Desfechos relevantes de eficácia e segurança, sem restrições.

A partir desses elementos se elaborou a seguinte pergunta de pesquisa: “*A distração osteogênica mandibular é eficaz e segura para aumento mandibular nas anomalias do tamanho da mandíbula em recém-nascidos, crianças, adolescentes e adultos?*”

Uma vez estruturada a pergunta de pesquisa foram desenvolvidas estratégias de busca específicas para cada base de dados consultada, utilizando-se, para tanto, termos específicos



extraídos dos tesouros Mesh e Emtree, palavras-chave de artigos de revisão sobre o tema e também estratégias de busca disponibilizadas em revisões sistemáticas publicadas sobre o assunto.

A busca foi conduzida nas bases MEDLINE via Pubmed e EMBASE entre abril e julho de 2018, sem limite inferior de período. Foram selecionados somente artigos nas línguas inglesa, espanhola e portuguesa. Os filtros utilizados em cada base estão descritos na **Tabela 3**. Priorizou-se a busca por revisões sistemáticas e estudos controlados e randomizados. Foram conduzidas buscas manuais adicionais por outros artigos não recuperados nas buscas.



Tabela 3 – Bases de dados consultadas, estratégias de busca, estudos recuperados.

BASES DE DADOS	ESTRATÉGIAS	FILTROS	DATA BUSCA	DOCUMENTOS RECUPERADOS
PubMed	(Mandib* or “lower jaw” or “small jaw” or ((mandib* or “lower jaw”) and abnorm*) or ((mandib* or “lower jaw”) and hypoplas*) or ((mandib* or “lower jaw”) and dysostosis*) or ((mandib* or “lower jaw”) and microsomi*) or microgn* or retrogn* or “angle* class II” or (“class II” and (malocclusion or bite)) or "Bone Diseases, Developmental"[Mesh] or "Jaw Abnormalities"[Mesh] or "Jaw Diseases"[Mesh] or "Malocclusion, Angle Class II"[Mesh] or "Craniofacial Abnormalities"[Mesh] or "Mandibulofacial Dysostosis"[Mesh] or "Mandible"[Mesh] or "Mandibular Injuries"[Mesh] or "Mandibular Diseases"[Mesh] or "Retrognathia"[Mesh] or "Micrognathism"[Mesh] or "Dentofacial Deformities"[Mesh] or "Stomatognathic System Abnormalities"[Mesh] or "Fetal Growth Retardation"[Mesh]) AND ("Osteogenesis, Distraction"[Mesh] or "Ilizarov Technique"[Mesh] or "Bone Lengthening"[Mesh] or callotas* or (distract* and osteogen*) or (mandib* and distract*) or (distract* and osteogen* and mandib*) or (bone and lengthe*) or (mandib* and lengthe*) or (callus* and distract*) or osteodistract*) AND (randomized controlled trial[pt] OR randomized controlled trials as topic[mh] OR random allocation [mh] OR double-blind method[mh] OR single-blind method[mh] OR random*[tw] OR "Placebos"[Mesh] OR placebo[tiab] OR ((sing*[tw] OR doubl*[tw] OR trebl*[tw] OR tripl*[tw]) AND (mask*[tw] OR blind*[tw] OR dumm*[tw])))	Filtro para estudos controlados randomizados	Junho de 2018	235
	(Mandib* or “lower jaw” or “small jaw” or ((mandib* or “lower jaw”) and abnorm*) or ((mandib* or “lower jaw”) and hypoplas*) or ((mandib* or “lower jaw”) and dysostosis*) or ((mandib* or “lower jaw”) and microsomi*) or microgn* or retrogn* or “angle* class II” or (“class II” and (malocclusion or bite)) or "Bone Diseases, Developmental"[Mesh] or "Jaw Abnormalities"[Mesh] or "Jaw Diseases"[Mesh] or "Malocclusion, Angle Class II"[Mesh] or "Craniofacial Abnormalities"[Mesh] or "Mandibulofacial Dysostosis"[Mesh] or "Mandible"[Mesh] or "Mandibular Injuries"[Mesh] or "Mandibular Diseases"[Mesh] or "Retrognathia"[Mesh] or "Micrognathism"[Mesh] or "Dentofacial Deformities"[Mesh] or "Stomatognathic System Abnormalities"[Mesh] or "Fetal Growth Retardation"[Mesh]) AND ("Osteogenesis, Distraction"[Mesh] or "Ilizarov Technique"[Mesh] or "Bone Lengthening"[Mesh] or callotas* or (distract* and osteogen*) or (mandib* and distract*) or (distract* and osteogen* and mandib*) or (bone and lengthe*) or (mandib* and lengthe*) or (callus* and distract*) or osteodistract*) AND (systematic[sb] OR meta-analysis[pt] OR meta-analysis as topic[mh] OR meta-analysis[mh] OR meta analy*[tw] OR metanaly*[tw] OR metaanaly*[tw] OR met analy*[tw] OR integrative research[tiab] OR integrative review*[tiab] OR integrative overview*[tiab] OR research integration*[tiab] OR research overview*[tiab] OR collaborative review*[tiab] OR collaborative overview*[tiab] OR systematic review*[tiab] OR technology assessment*[tiab] OR technology overview*[tiab] OR "Technology Assessment, Biomedical"[mh] OR HTA[tiab] OR HTAs[tiab] OR comparative efficacy[tiab] OR comparative effectiveness[tiab] OR outcomes research[tiab] OR indirect comparison*[tiab] OR ((indirect treatment[tiab] OR mixed-treatment[tiab]) AND comparison*[tiab]) OR Embase*[tiab] OR Cinahl*[tiab] OR systematic overview*[tiab] OR methodological overview*[tiab] OR methodologic overview*[tiab] OR methodological review*[tiab] OR methodologic review*[tiab] OR quantitative review*[tiab] OR quantitative overview*[tiab] OR quantitative syntheses*[tiab] OR pooled analy*[tiab] OR Cochrane[tiab] OR Medline[tiab] OR Pubmed[tiab] OR	Filtro CADTH para revisões sistemáticas, metanálises e avaliações de tecnologias em saúde		103



	<p>Medlars[tiab] OR handsearch*[tiab] OR hand search*[tiab] OR meta-regression*[tiab] OR metaregression*[tiab] OR data synthes*[tiab] OR data extraction[tiab] OR data abstraction*[tiab] OR mantel haenszel[tiab] OR peto[tiab] OR der-simonian[tiab] OR dersimonian[tiab] OR fixed effect*[tiab] OR "Cochrane Database Syst Rev"[Journal: __jrid21711] OR "health technology assessment winchester, england"[Journal] OR "Evid Rep Technol Assess (Full Rep)"[Journal] OR "Evid Rep Technol Assess (Summ)"[Journal] OR "Int J Technol Assess Health Care"[Journal] OR "GMS Health Technol Assess"[Journal] OR "Health Technol Assess (Rockv)"[Journal] OR "Health Technol Assess Rep"[Journal])</p>			
Embase	<p>('micrognathia'/exp OR 'retrognathia'/exp OR 'mandible'/exp OR 'mandible abnormalities'/exp OR 'mandibulofacial dysostosis'/exp OR 'jaw malformation'/exp OR 'jaw disease'/exp OR 'malocclusion'/exp OR 'mandible hypoplasia'/exp OR 'bone malformation'/exp OR 'bone defect'/exp OR 'bone deformation'/exp OR 'bone malformation'/exp OR 'bone disease'/exp OR 'microsomia'/exp OR 'craniofacial malformation'/exp OR 'dentofacial deformity'/exp OR 'mouth malformation'/exp OR 'bone dysplasia'/exp) AND ('distraction osteogenesis'/exp OR 'Ilizarov technique'/exp OR "callotas*" OR "osteodistract*" OR "callus distraction" OR "bone lengthe*" OR (distract* adj5 osteogene*) OR (mandible adj5 distract*) OR (distract* and (jaw* or mandib*))) AND ("Randomized Controlled Trial" OR "Pragmatic Clinical Trial" OR "Randomization" OR "Random Allocation" OR "Double-Blind Method" OR "Double Blind Procedure" OR "Double-Blind Studies" OR "Single-Blind Method" OR "Single Blind Procedure" OR "Single-Blind Studies" OR Placebos OR Placebo OR random* OR sham OR placebo* OR ((singl* or doubl*) adj (blind* or dumm* or mask*)) OR ((tripl* or trebl*) adj (blind* or dumm* or mask*)))</p>	Filtro para estudos controlados randomizados		334
	<p>('micrognathia'/exp OR 'retrognathia'/exp OR 'mandible'/exp OR 'mandible abnormalities'/exp OR 'mandibulofacial dysostosis'/exp OR 'jaw malformation'/exp OR 'jaw disease'/exp OR 'malocclusion'/exp OR 'mandible hypoplasia'/exp OR 'bone malformation'/exp OR 'bone defect'/exp OR 'bone deformation'/exp OR 'bone malformation'/exp OR 'bone disease'/exp OR 'microsomia'/exp OR 'craniofacial malformation'/exp OR 'dentofacial deformity'/exp OR 'mouth malformation'/exp OR 'bone dysplasia'/exp) AND ('distraction osteogenesis'/exp OR 'Ilizarov technique'/exp OR "callotas*" OR "osteodistract*" OR "callus distraction" OR "bone lengthe*" OR (distract* adj5 osteogene*) OR (mandible adj5 distract*) OR (distract* and (jaw* or mandib*))) AND (meta-analysis OR systematic review OR "technology assessment, biomedical" OR ((systematic* AND (review* or overview*))) OR (methodologic* AND (review* or overview*)) OR ((quantitative AND (review* or overview* or synthes*))) OR (research AND (integrati* or overview*)) OR ((integrative AND (review* or overview*))) OR (collaborative AND (review* or overview*)) OR (pool* AND analy*) OR "data synthes*" OR "data extraction*" OR "data abstraction*" OR handsearch* OR "hand search*" OR "mantel haenszel" OR peto OR "der simonian" OR dersimonian OR "fixed effect*" OR "latin square*" OR "met analy*" OR metanaly* OR "meta regression*" OR metaregression* OR meta-analy*)</p>	Filtro para revisões sistemáticas, metanálises e avaliações de tecnologias em saúde.		116



Os estudos foram selecionados inicialmente pela análise de título e resumo para eliminar duplicatas e os que não apresentassem relevância no contexto da questão de pesquisa definida. Os estudos selecionados nessa primeira etapa foram avaliados depois na íntegra para então determinar se seriam incluídos nesse parecer. O número de documentos selecionados em cada etapa de acordo com o fluxo descrito foi documentado e está representado na **Figura 4**.

Os critérios de inclusão utilizados na seleção dos documentos foram os seguintes: revisões sistemáticas (de estudos controlados randomizados, estudos observacionais e séries de casos), estudos clínicos controlados randomizados nos quais se utilizasse a distração osteogênica para o aumento ou correção mandibular em adultos ou crianças visando à normalização do aspecto craniofacial ou regularização das funções respiratória e alimentar. Procurou-se também e de forma complementar por estudos observacionais nos quais se reportassem desfechos relacionados à distração mandibular em longo prazo.

Após a leitura do texto completo foram selecionados 19 estudos para serem incluídos no parecer. Foram selecionadas 15 revisões sistemáticas, 3 estudos clínicos controlados randomizados e 1 estudo observacional com desfechos de longo prazo. Esses estudos serão descritos a seguir.

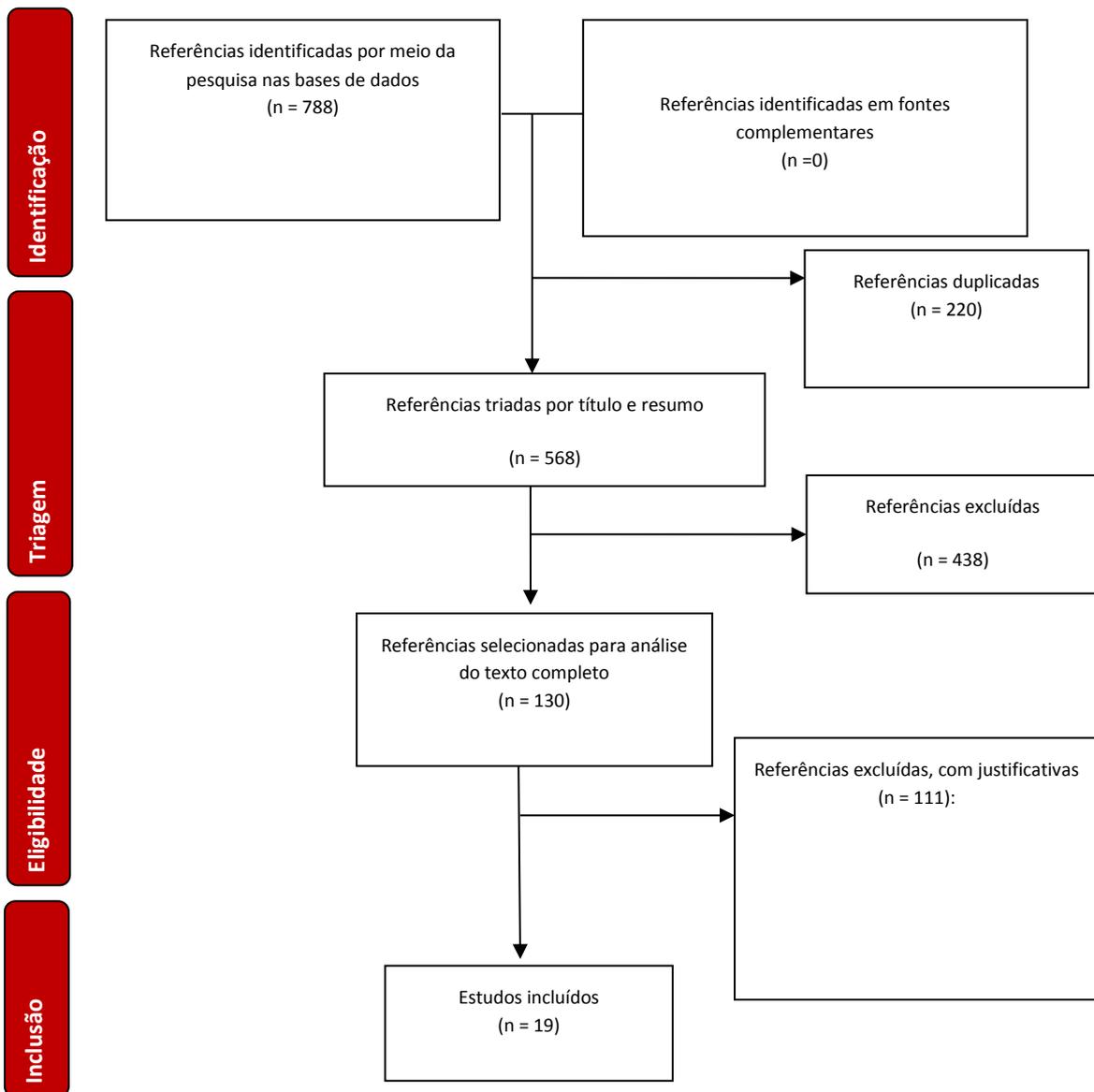


Figura 4 – Fluxograma de seleção das evidências



Estudos selecionados

Nos estudos incluídos tratam-se de duas situações clínicas nas quais a distração osteogênica mandibular foi utilizada para normalização das características anatômicas da mandíbula visando à regularização de funções como a respiração, alimentação e sono. As indicações são as seguintes: **1.** Obstrução das vias aéreas superiores em recém-nascidos e crianças com Sequência de Pierre Robin isolada ou sindrômica ou ainda com síndromes que afetam o tamanho mandibular, inclusive a microssomia craniofacial, em destaque; **2.** Micrognatia/retrognatia com maloclusão de classe II em adultos e adolescentes. Destaca-se também a síndrome da apneia obstrutiva do sono em indivíduos com micrognatia classificados nas duas situações clínicas anteriores. As características de alguns dos estudos selecionados são apresentadas a seguir nas Tabelas 4 e 5.

Tabela 4 - Características das revisões sistemáticas selecionadas

REVISÃO SISTEMÁTICA	ESTUDOS INCLUÍDOS NA REVISÃO	GRUPOS COMPARADOS	DESFECHOS E EFEITO SUMÁRIO	HETEROGENEIDADE	QUALIDADE DOS ESTUDOS INCLUÍDOS
OBSTRUÇÃO DAS VIAS AERIAS SUPERIORES EM RECÉM-NASCIDOS E CRIANÇAS COM SEQUENCIA DE PIERRE ROBIN OU SÍNDROMES CONGÊNITAS					
Bookman <i>et al.</i> , 2012. Estados Unidos	Várias intervenções conservadoras e cirúrgicas. 126 estudos incluindo 1 estudo controlado randomizado (ECR) que não envolve a distração osteogênica mandibular, séries de casos e estudos observacionais. Crianças com menos de 1 ano diagnosticadas com obstrução das vias aéreas por glossoptose. Sequência de Pierre Robin sindrômica e não-sindrômica.	Não há comparação entre as diferentes intervenções para desobstrução das vias aéreas superiores. No ECR incluído comparam-se diferentes tipos de obstrutor palatino. Nas séries de casos comparam-se pré e pós cirúrgico.	Decanulação e traqueostomia – medidas conservadoras são utilizadas como primeira linha de tratamento com alta taxa de sucesso. Nos falhos, a taxa de sucesso para a glossoptose e distração osteogênica varia entre 70 e 100%. Apneia noturna - Intervenções cirúrgicas reduzem o número de episódios de apneia-hipopneia no sono (índice de distúrbio respiratório). A saturação mínima de oxigênio (LSAT) aumentou de 61% para 92%. Alimentação – Posição prona e distração osteogênica estão relacionados a uma maior propensão a se alimentar totalmente por via oral.	-	Baixa a moderada (níveis 4 e 5 na classificação Oxford)
Paes <i>et al.</i> , 2013. Holanda	Somente séries de casos sobre distração osteogênica mandibular em crianças menores que 18 meses de idade e diagnosticadas com Sequência de Pierre Robin (SPR). 12 estudos incluídos (n=212). 82% SPR; 8% Síndrome de Stickler; 2% Treacher Collins; 1% Síndrome de Opitz.	Avalia série de casos e estudos observacionais sobre distração osteogênica somente. Não há estudos clínicos com comparador. Nas séries de casos comparam-se pré e pós cirúrgico.	Aumento mandibular – 11,6 a 18,3 mm. Decanulação e traqueostomia – taxa de decanulação ou de traqueostomias evitadas variou entre 82% a 100%. Tempo até a decanulação – 3 a 7,5 dias. Alimentação após a cirurgia – taxa dos que passaram a se alimentar exclusivamente por via oral variou entre 86% a 100%.	-	Baixa a moderada (níveis 4 e 5 na classificação Oxford)
Almajed <i>et al.</i> , 2016. Canada	70 séries de casos ou estudos observacionais sobre intervenções cirúrgicas, incluindo distração osteogênica, para tratamento de obstrução das vias aéreas	Distração osteogênica mandibular (49 estudos, n=612); glossoptose (21 estudos, n=368) e	Mortalidade relacionada ao procedimento cirúrgico – Zero para distração osteogênica; 2 para glossoptose e 1 para palatoplastia. Falha do tratamento (necessidade de traqueostomia) – 4% para distração;	-	Baixa a moderada (níveis 4 e 5 na classificação Oxford)



	em crianças com SPR e menos de 1 ano de idade (n=1.027).	palatoplastia (2 estudos, n=43).	9,4% glossopexia e zero para palatoplastia (maior para glossopexia; p=0,03). Taxa de sucesso varia entre 83 a 94%. Persistência de obstrução das vias aéreas no pós-cirúrgico – 3,6% para distração e 50% para glossopexia (p<0.01). AIH ≥10 no pós-cirúrgico – 8,2% para distração e 47,6% para glossopexia.		
Breik <i>et al.</i> , 2016 (Breik e Breik-A e B). Austrália	Crianças com SPR síndrômica e não-síndrômica e obstrução das vias aéreas superiores falhas de tratamentos conservadores e submetidas a distração osteogênica mandibular bilateral.	Avalia série de casos e estudos observacionais sobre distração osteogênica somente. Não há estudos clínicos com comparador. Nas séries de casos compare-se pré e pós cirúrgico.	Sucesso do tratamento até 1 ano (evitou traqueostomia) - a taxa de sucesso foi de 95,5% (44 estudos; n=490). Mudança na média do AIH após a cirurgia – de 31,2 para 4,34. Decanulação em até um ano após a cirurgia – a taxa foi de 80,3% (31 estudos, n=152). Recorrências em longo prazo – 3 anos – 1/7 (1 estudo); 4 anos – 1/5 (1 estudo); 7,6 anos – 5/32 (1 estudo).		Baixa a moderada (níveis 4 e 5 na classificação Oxford)
		Em análise de subgrupos compara taxa de falha por tipo de distrator (interno ou externo) e taxa de distração (1 mm/dia; 1,1 a 1,9 mm/dia e >2 mm/dia).	Taxa de falha por taxa de distração – não há diferenças na frequência de falhas por taxa de distração (35 estudos, n=455). Taxa de falha por tipo de distrator – significativamente maior para distrator externo (6,3% para externo vs. 0,96% para interno; p=0,012) (38 estudos, n=413).		
		Avalia série de casos e estudos observacionais sobre distração osteogênica somente. Não há estudos clínicos com comparador. Nas séries de casos compare-se pré e pós cirúrgico.	Alimentação após a cirurgia – 82% passaram a se alimentar exclusivamente por via oral (tempo médio de seguimento de 3 anos) (21 estudos, n=300). Refluxo esofágico pós-cirúrgico – 4/70 pacientes permaneceram com refluxo (4 estudos, n=70).		
Tahiri <i>et al.</i> , 2014. Canada	Crianças menores de 18 meses com SPR síndrômica e não-síndrômica e obstrução das vias aéreas superiores submetidas a distração osteogênica mandibular. 60% SPR; 6,8% Treacher Collins; 3,5% Síndrome de Stickler.	Avalia série de casos e estudos observacionais sobre distração osteogênica somente. Não há estudos clínicos com comparador. Nas séries de casos compare-se pré e pós cirúrgico.	Taxa de sucesso da cirurgia (várias metodologias) – 89,3% (n=711). Taxa de sucesso em traqueostomizados – 84,2%. Taxa de melhora na apneia do sono (resolução completa ou melhora significativa) – 95,6%.		Baixa a moderada (níveis 4 e 5 na classificação Oxford)

MICROGNATIA/RETROGNATIA COM MALOCCLUSÃO DE CLASSE II EM ADULTOS E ADOLESCENTES NÃO-SINDRÔMICOS

Al-Moraissi e Ellis, 2015. Egito, Estados Unidos	Pacientes com mandíbula hipoplásica (retrognática) com maloclusão de classe II em indivíduos com idade entre 13 e 50 anos. Todos submetidos à distração osteogênica mandibular unidirecional ou osteotomia mandibular bilateral para aumento mandibular. Incluídos nove estudos (n=357) clínicos controlados	Osteotomia mandibular sagital bilateral (OMSB) (n=148) e distração osteogênica mandibular unidirecional (DOM) (n=209).	Avanço mandibular – maior para DOM, com significância estatística. 7,2 mm (7,06 a 7,71 mm) para a OMSB e 8,41 mm (7,26 a 12,43 mm) para DOM.		Três estudos (estudos clínicos controlados randomizados) apresentaram baixo risco de viés e os outros seis estudos apresentaram moderado risco de viés.
			Estabilidade esquelética (relapso vertical) – Sem diferença estatística. Diferenças de médias de deslocamento vertical (WMD) = -0,27 mm IC 95% -0,81 a 0,28 mm; p=0,34)	I ² =78%. Efeitos variáveis.	



	<p>randomizados (3) ou não (1) e estudos observacionais retrospectivos com comparador (5).</p>		<p>Estabilidade esquelética (relapso horizontal) – Favorece DOM. Diferenças de médias de deslocamento horizontal (WMD) = -0,02 mm IC 95% -0,25 a -0,21 mm; p=0,88).</p>	<p>X²= 2,08, df=3, p=0,55</p>	
			<p>Estabilidade esquelética (ângulo SNB em graus) – Sem diferença estatística. Diferenças de médias de deslocamento (WMD) = -0,71 graus IC 95% -2,06 a 0,63 graus; p=0,30).</p>	<p>X²= 2,11, df=1, p=0,74. I²=0%</p>	
			<p>Distúrbio neurosensorial do nervo alveolar inferior (teste de monofilamento de Simmes-Weinstein; filamento com algodão ou teste da picada) = Risco maior para a OMSB, RR = 1,40 (IC 95% 1,03 a 1,89, p=0,03). NNT =7</p>	<p>I²= 0%</p>	
			<p>Distúrbio neurosensorial do nervo alveolar inferior (percepção dos pacientes) = Risco maior para a OMSB, RR = 1,45 (IC 95% 1,15 a 2,06, p=0,004).</p>	<p>I²= 60%</p>	
<p>Rossini <i>et al.</i>, 2016. Portugal</p>	<p>Pacientes com mandíbula hipoplásica (retrognática) não-sindrômicos com maloclusão de classe II. Indivíduos com idade entre 7,7 a 29,8 anos. Todos submetidos à distração osteogênica mandibular com distratores internos (n=181). Incluídos oito estudos clínicos sendo (1) prospectivo e (7) observacionais retrospectivos.</p>	<p>Comparação antes e após a cirurgia. Descrição dos estudos em separado.</p>	<p>Estabilidade esquelética (dimensão vertical) – 1. Por radiografia panorâmica - Aumentos de 12,03 mm para o lado direito da mandíbula e 10,87 mm para esquerdo com relapso de 2,04 mm do lado direito (p=0,018). Por cefalometria lateral- Aumento verticais de 10,43 mm e 10,45 mm para os lados direito e esquerdo com relapso de 1,22 para o lado esquerdo (p=0,039).</p> <p>2. Mudança significativa no ângulo entre o plano palatal e plano mandibular (SpP/MP) após a cirurgia de 3,9°, p<0,001.</p> <p>3. Inclinação no plano oclusal de 1,9° com uma perda óssea de 2,5 mm após a cirurgia</p> <p>4. Aumento no ângulo do plano mandibular após a cirurgia e em seguimento de 8 anos (5,3° e 4,3°, respectivamente), com um relapso de 1,0° após 8 anos. Aumento do tamanho anterior total da face.</p>	<p>-</p>	<p>Avaliação pela ferramenta <i>Swedish Council on Technology Assessment in Health Care (SBU)</i> – A qualidade da evidência foi moderada (B) em quatro estudos e baixa (C) nos outros quatro.</p>
			<p>Estabilidade esquelética (dimensão sagital) - 1. Por radiografia panorâmica - Aumentos de 8,51 mm para o lado direito da mandíbula e 8,13 mm para esquerdo. Por cefalometria lateral- Aumento verticais de 6,80 mm e 7,61 mm para os lados direito e esquerdo, respectivamente. Relapsos</p>		



			<p>significativos em longo prazo de 0,5 a 2,5 mm em ambos os lados.</p> <p>2. Aumento de 5,9° no ângulo SNB, com diminuição de 5,8 no índice de Wits e de 3,7° no ângulo ANB.</p> <p>3. Aumento de 1,9° no ângulo SNB, na distância gônio-gnátio de 4,6 mm, no côndilo-gnátio de 5 mm e diminuição do ângulo ANB de 1,9°.</p>		
			<p>Estabilidade dos tecidos moles (dimensão vertical) - boa correlação entre os avanços verticais dos pontos B (no tecido ósseo na dobra mentolabial, sublabial) e lábio inferior (no tecido mole) e pontos B (tecido ósseo) e estômio inferior (tecido mole).</p>		
			<p>Estabilidade dos tecidos moles (dimensão horizontal) - uma correspondência de 90% entre os pontos cefalométricos dos tecidos mole e ósseo.</p>		

MICROSSOMIA CRANIOFACIAL UNILATERAL

<p>Pluijmers <i>et al.</i>, 2014. Holanda e Reino Unido</p>	<p>Pacientes até 16 anos de idade e diagnosticados com microssomia cranial unilateral e que foram submetidos a cirurgias para colocação de enxertos, osteotomia e distração osteogênica mandibular para correção de defeitos ósseos. Incluídos 19 estudos entre estudos de caso controle prospectivos e séries de casos retrospectivas e prospectivas (n=285).</p>	<p>Comparação antes e após a cirurgia. Descrição dos estudos e diferentes modalidades cirúrgicas em separado.</p>	<p>A distração osteogênica foi utilizada com maior frequência nas maloclusões de classes I e IIa, para as quais os resultados foram considerados satisfatórios em curto e longo prazos. Para as maloclusões mais graves de classe IIb e III os resultados em curto prazo foram considerados satisfatórios, mas com altas taxas de recidiva e assimetria facial em longo prazo. Aqui os melhores resultados estão associados à cirurgia de distração osteogênica em associação à utilização de enxertos.</p>	-	<p>Baixa a moderada (nível 4 na classificação Oxford)</p>
---	--	---	---	---	---

SÍNDROME DA APNEIA OBSTRUTIVA DO SONO

<p>Tsui <i>et al.</i>, 2016</p>	<p>Foram incluídos 12 estudos em um total de 256 pacientes entre 7 dias e 60 anos de idade. Todos diagnosticados com síndrome de apneia obstrutiva do sono devido à mandíbula retrognática. Todos os estudos eram casos séries de casos retrospectivas. Os avanços na mandíbula foram entre 12 e 29 mm.</p>	<p>Comparação antes e após a cirurgia. Critérios de sucesso para adultos foram IAH < 20/h e uma diminuição maior ou igual a 50% no IAH após a cirurgia. Critério de cura para adultos foi um IAH < 5/h após a cirurgia. Em crianças o sucesso pós-cirúrgico foi avaliado clinicamente.</p>	<p>No grupo de adultos as taxas de cura variaram entre 82 e 100%. As taxas de sucesso foram de 100% para os adultos e entre 90 e 100% para as crianças. Em adultos a variação no IAH foi de uma média de 51,7/h para 2,9/h e em crianças foi de 10 a 50/h para 1,1 a 5/h. Houve melhora na saturação mínima de oxigênio em ambos os grupos etários.</p>	-	<p>Baixa a moderada.</p>
---------------------------------	---	--	---	---	--------------------------



Tabela 5 – Características dos estudos controlados randomizados selecionados. Todos os estudos são sobre aumento mandibular em micrognatia/retrognatia com maloclusão de classe II não-sindrômica.

ESTUDO	PACIENTES	DESFECHOS AVALIADOS	TRATAMENTO CONTROLE	TRATAMENTO INTERVENÇÃO	MEDIDAS DE EFEITO	TEMPO DE SEGUIMENTO
Baas <i>et al.</i> , 2015-A. Holanda.	Hipoplasia mandibular, maloclusão de classe II, não-sindrômicos, com idade média de 20 anos (n=66). Não houve diferença na extensão de aumento mandibular (p=0,506)	Estabilidade esquelética por cefalometria.	Osteotomia mandibular sagital bilateral	Distração osteogênica mandibular	Relapso vertical não foi estatisticamente diferente (-0,074 para DO e -0,034 para OMSB, p=0,802). Relapso horizontal não foi estatisticamente diferente (-0,324 para DO e -0,448 para OMSB, p=0,609). Ângulo SNB pós-cirúrgico não foi estatisticamente diferente entre os grupos (-0,250° para DO e -0,259° para OMSB).	23,8 meses
Baas <i>et al.</i> , 2015-B. Holanda.	Hipoplasia mandibular, maloclusão de classe II, não-sindrômicos, com idade média de 20 anos (n=66). Não houve diferença na extensão de aumento mandibular (p=0,506)	Tempo de operação, perda de sangue, infecção pós-cirúrgica, dor pós-cirúrgica e uso de analgésicos.	Osteotomia mandibular sagital bilateral	Distração osteogênica mandibular	Tempo de operação – foi estatisticamente menor no grupo submetido à OMSB (78 min vs. 100 min; p= 0,024). Perda de sangue – não foi estatisticamente diferente (194 mL para DO e 153 mL para OMSB). Infecção pós-cirúrgica – todas no grupo DO (12 indivíduos, p=0,005). Dor – não diferente até o sexto dia, com diminuição significativa no grupo OMSB a partir do sétimo dia. Uso de analgésicos – não diferente até o quinto dia, com diminuição significativa no grupo OMSB a partir do sexto dia.	23,8 meses
Hassani <i>et al.</i> , 2014. Estados Unidos e Iran.	Hipoplasia mandibular, maloclusão de classe II, não-sindrômicos, com idade média de 18,2 anos (n=67). Não houve diferença na extensão de aumento mandibular.	Estabilidade esquelética por cefalometria.	Osteotomia mandibular sagital bilateral	Distração osteogênica mandibular	Ângulos SNB e SNA após a cirurgia em ambos os grupos não foram estatisticamente diferentes (SNA 80,8 OMSB vs. 80,9 DO e SNB 79,1 OMSB vs. 79,2 DO). Relapso não foi estatisticamente diferente 2,5 mm OMSB e 2,1 mm em DO.	36 meses



DESCRIÇÃO DOS RESULTADOS POR ESTUDO

A. OBSTRUÇÃO DAS VIAS AEREAS SUPERIORES EM RECÉM-NASCIDOS E CRIANÇAS COM SEQUENCIA DE PIERRE ROBIN OU SÍNDROMES QUE AFETAM O TAMANHO DA MANDÍBULA

A evidência sobre o aumento mandibular por distração osteogênica como recurso para desobstruir as vias aéreas em recém-nascidos com seqüência de Pierre Robin ou síndromes que afetam o tamanho da mandíbula é composta principalmente por revisões sistemáticas de séries de casos e estudos observacionais retrospectivos. Apesar da heterogeneidade dos estudos com relação aos critérios de indicação para cirurgia, adotando-se na maioria deles o critério de falha a condutas conservadoras e a indicação para traqueostomia, e em relação aos parâmetros quantitativos e métodos utilizados para mensurar os efeitos da intervenção, a casuística é grande e há bastante consistência nos resultados em relação à resolutividade da obstrução, geralmente mensurada por decanulação ou prevenção de traqueostomia, e boa evolução em relação à nutrição e capacidade de alimentação. Não há estudos em que se comparam outras intervenções cirúrgicas com a distração osteogênica mandibular para desobstrução das vias aéreas superiores. Esses resultados são acompanhados por baixas taxas de complicações.

Bookman *et al.*, 2012

Em revisão sistemática da literatura no período de 1980 a 2010, avaliam-se séries de casos prospectivas e retrospectivas sobre os efeitos de várias intervenções em crianças menores que um ano de idade diagnosticadas com obstrução das vias aéreas superiores por glossoptose. Todas foram diagnosticadas com seqüência de Pierre Robin isolada ou sindrômica e foram submetidas a tratamentos conservadores ou cirúrgicos, incluindo a distração mandibular osteogênica. Os critérios para diagnóstico da obstrução das vias aéreas foram sempre clínicos e variáveis entre os estudos incluídos, com escassez de utilização de parâmetros ou critérios diagnósticos objetivos pré-definidos. Nos estudos analisados, a obstrução das vias aéreas em recém-nascidos foi relacionada a taxas significantes de morbidade e mortalidade, estando frequentemente associada nas formas severas a *cor pulmonale* e insuficiência cardíaca congestiva (10 a 30% dos pacientes). Os autores afirmam que a taxa de mortalidade relacionada à obstrução das vias aéreas em recém-nascidos não sofreu grandes alterações nos últimos 30 anos, apesar do advento de novos tratamentos. Em 24 dos estudos incluídos na revisão relatou-se taxa de mortalidade, que em média foi de 4,5%, variando amplamente entre 0 e 21%. Essa taxa foi maior em crianças sindrômicas em relação às não-sindrômicas (22,8% vs. 5,9%) e em prematuros quando comparados aos nascidos a termo (60% vs. 9,5%). Não há, entretanto, comparações entre as taxas de mortalidade relacionadas a cada intervenção para controle e tratamento da obstrução das vias aéreas. Da mesma forma, não há dados comparativos entre os efeitos dessas intervenções na apneia do sono e, nessa revisão, os autores descrevem de forma isolada os resultados das intervenções em estudos de polissonografia. De maneira geral, os autores relatam uma melhora na apneia noturna após as intervenções, tanto as conservadoras quanto as cirúrgicas, mas poucos utilizam dados quantitativos para expressar essa evolução clínica e quando o



fazem, esses dados não são comparáveis. Em crianças com seqüência de Pierre Robin, principalmente as sindrômicas, relatam-se deficiências de crescimento, de audição e fala e de neurodesenvolvimento. Em 48 estudos incluídos na revisão avaliou-se a capacidade de se alimentar por via oral e, de maneira geral, não foram relatadas melhorias após a intervenção com o obstrutor palatino, relatando-se, entretanto, maior propensão de recém-nascidos tratados com modificação postural (posição prona) ou distração mandibular de passarem a se alimentar exclusivamente por via oral após as intervenções. Não foram comparados os efeitos dessas intervenções em desfechos como o crescimento, audição e fala e neurodesenvolvimento.

Paes et al., 2013

Revisão sistemática de séries de casos prospectivas e retrospectivas referentes à utilização, no período de 2004 a 2012, da distração osteogênica para aumento mandibular em 212 recém-nascidos (2,5 a 3 meses de idade) diagnosticados com Sequência de Pierre Robin e para as quais outras medidas mais conservadoras para a desobstrução das vias aéreas superiores falharam. As mandíbulas foram aumentadas em 11,6 a 18,3 mm a uma taxa de 1 a 2 mm/dia, possibilitando decanulação ou evitando traqueostomia em 82 a 94% dos casos. Entre os diferentes distratores utilizados, externo, interno e interno reabsorvível, não se identificaram diferenças nos tempos até a decanulação ou entre as taxas de traqueostomias evitadas. Entretanto, os processos de distração e de dispensa hospitalar foram mais rápidos para as crianças nas quais se utilizou o distrator interno reabsorvível. A maioria das crianças voltou a se alimentar normalmente e, entre as que foram acompanhadas, todas apresentaram crescimento normal após a cirurgia.

Almajed et al., 2016

Revisão sistemática de 70 estudos observacionais e séries de casos de 19 países, publicados até 2015 abrangendo 1.027 crianças com menos de 1 ano de idade diagnosticadas com seqüência de Pierre Robin e micrognatismo e submetidas a procedimento cirúrgico para desobstrução das vias aéreas superiores. Dentre os estudos, em 46 relatavam-se procedimentos cirúrgicos com distração osteogênica mandibular, em 18 a glossopexia (sutura da língua ao sulco gengivo-labial) e outros poucos envolvendo a palatoplastia ou combinações das modalidades apresentadas. Relata-se que, para todas as modalidades cirúrgicas, a mortalidade devido à persistência da obstrução das vias aéreas foi baixa e a falha no tratamento, definida como a necessidade de intervenção com traqueostomia pós-cirúrgica, foi de 4% para o procedimento de distração osteogênica mandibular (22/545); 9,4% para a glossopexia (30/320) e nenhuma falha para a palatoplastia. A taxa de conversão para traqueostomia foi significativamente maior para a glossopexia quando comparada à distração osteogênica mandibular ($p=0,03$). Entretanto, o relato de parâmetros



objetivos de avaliação clínica, como os derivados da polissonografia e gasometriaⁱ, é bastante variável entre os estudos e geralmente não existente, principalmente entre os estudos publicados antes de 2010. Em um pequeno grupo de 9 estudos (2 sobre glossopexia e 7 sobre distração osteogênica mandibular) foi possível identificar relatos de informações detalhadas (IAH-índice de apneias e hipopneiasⁱⁱ) sobre os resultados pré e pós-cirúrgicos de exames de polissonografia. Para esse grupo de pacientes, todos não síndromicos, apresentaram-se taxas de persistência de obstrução pós-cirúrgicas (IAH>15) de 50% entre os que foram submetidos à glossopexia e de 3,6% nos que se submeteram à distração osteogênica mandibular, com diferença estatística entre os grupos (teste de X², p<0,01). Essa diferença permanece significativa quando se varia o limiar para obstrução aérea significativa de 15 eventos por hora para 10 ou 20 por hora.

Demais estudos

Em revisão sistemática da literatura até 2013 Breik e colaboradores (2016) descrevem os efeitos da utilização da distração osteogênica exclusivamente bilateral em crianças nascidas com micrognatia (como parte ou não de uma síndrome) e obstrução das vias aéreas superiores para as quais tratamento com medidas conservadoras de cuidado falharam. Foram incluídos 55 estudos entre observacionais retrospectivos e prospectivos e séries de casos. Não foram incluídos estudos clínicos controlados randomizados. Uma vez que os pacientes avaliados nesses estudos eram considerados para traqueostomia já que falhos de medidas mais conservadoras, utilizam-se o sucesso em evitar uma traqueostomia e em minimizar a obstrução das vias aéreas como desfechos para avaliar o benefício da intervenção cirúrgica. A análise quantitativa envolveu 44 estudos e 490 pacientes com idade média de 10,4 anos, dos quais 468 foram poupados de uma traqueostomia. Entre os indivíduos que foram traqueostomizados, a principal causa de falha do procedimento foi a existência de anomalias não diagnosticadas das vias aéreas inferiores.

Outro desfecho avaliado foi o sucesso da decanulação em crianças já traqueostomizadas após a cirurgia de aumento mandibular. Entre os 152 casos avaliados com idade média de 30,4 meses, 122 foram decanulados e puderam respirar normalmente após a cirurgia (taxa de decanulação de 80,3%).

Em outras duas revisões sistemáticas o grupo de Breik descreve a influência das taxas diárias de distração utilizadas nas intervenções e do tipo de distrator interno ou externo nas taxas de sucesso e complicações das cirurgias de aumento mandibular em crianças com micrognatia e obstrução das vias aéreas superiores para as quais outras intervenções mais conservadoras falharam (BREIK *et al.*, 2016-A). Além disso, avaliam aspectos alimentares e a taxa de refluxo pós-cirúrgicos em crianças nas mesmas condições submetidas a esses procedimentos (BREIK *et al.*, 2016-B).

Em relação à primeira revisão foram analisados 40 estudos, todos séries de casos ou relatos de casos abrangendo 417 participantes. Foram registradas 19 falhas cirúrgicas, definidas como necessidade de reoperação ou falha em se atingir o aumento mandibular pretendido. Com uma taxa de sucesso de 95,4%,

ⁱ A **polissonografia** pode ser usada para documentar a extensão da obstrução das vias aéreas (OVA) e excluir alguma potencial apneia central, que contribua para as dificuldades respiratórias da criança. **Os estudos laboratoriais (gasometria)** podem ser usados para confirmar o diagnóstico de OVA crônica em crianças sem falhas respiratórias espontâneas. Os gases dos capilares podem ser analisados para verificar uma tendência para a elevação dos níveis de dióxido de carbono, o que sugeriria uma hipoventilação crônica ou uma piora da retenção de dióxido de carbono.

ⁱⁱ **IAH** – número de hipopneias e apneias por hora: de 5-15: leve; de 15-30: moderado; mais que 30: grave.



as falhas se relacionaram em sua maioria a deslocamentos nos pinos e outros aspectos inerentes aos equipamentos. As chances de falhas não foram diferentes entre grupos submetidos a diferentes taxas diárias de distração (entre 1mm e 4 mm/dia), mas as chances de complicações pós-cirúrgicas foram maiores nos grupos submetidos a taxas de distração mais altas (> 1 mm/dia). As taxas de complicações variaram entre 26 e 36%.

Observou-se também que há maiores chances de falhas e complicações (23 a 33%) com o uso de equipamentos externos quando comparados com os internos (n=413; 207 em uso de interno e 206 em uso de externo).

De 300 crianças avaliadas em 21 relatos ou séries de casos, 246 (82%) passaram a se alimentar totalmente por via oral 12 meses após a cirurgia de aumento mandibular em substituição, para a maioria, à alimentação por sonda nasogástricas ou gastrostomia. Em posterior análise de subgrupos identificou-se que os indivíduos nos quais a micrognatia é parte de uma síndrome têm cinco vezes mais chances de não evoluir para alimentação totalmente oral mesmo após a desobstrução das vias aéreas superiores.

Pela avaliação de quatro estudos abrangendo 70 participantes com refluxo gastroesofágico pré-operatório, pôde-se identificar a persistência de refluxo gastroesofágico em quatro deles após a intervenção cirúrgica.

Em outra revisão sistemática da literatura até 2013 Tahiri e colaboradores (2014) utilizando critérios de inclusão mais amplos selecionaram estudos em que se utilizou qualquer técnica de distração osteogênica mandibular para tratar crianças e adolescentes até 18 anos com obstrução das vias aéreas superiores em função da presença de defeitos craniofaciais envolvendo hipoplasia mandibular. Foram incluídos 74 estudos abrangendo 711 participantes com média de idade de 18,1 meses e em sua maioria (53%) diagnosticados com seqüência de Pierre Robin. Na maioria dos casos a técnica utilizada foi a de distração mandibular bilateral (95% dos casos) e o tempo de seguimento médio foi de 2,4 anos. Os autores reportam uma taxa de sucesso de 89,3% (n=711) da intervenção cirúrgica no tratamento da obstrução das vias aéreas superiores e uma taxa de decanulação daqueles previamente traqueostomizados (n=203) de 84,2%. O sucesso das intervenções foi definido de forma a abranger os casos com completa resolução ou com melhora clínica significativa, mas sem atestar critérios objetivos. A taxa de complicações registradas foi de 23,8%, sendo as principais relacionadas à infecção com ou sem formação de abscesso, apertognatia ou mordida aberta, injúria a nervos e formação de cicatrizes hipertróficas.

Em revisão sistemática, Ren e colaboradores (2017) procuraram identificar e discutir os aspectos clínicos capazes de interferir nos desfechos da cirurgia de distração mandibular bilateral em crianças e adolescentes com idade inferior a 18 anos com seqüência de Pierre Robin para desobstrução das vias aéreas superiores. Em todos os estudos incluídos, publicados até março de 2016, as crianças haviam sido submetidas sem sucesso a outras técnicas mais conservadoras para desobstrução das vias aéreas superiores. Há um indicativo de que nenhum dos fatores investigados em cinco estudos abrangendo 71 pacientes interferiram no desfecho avaliado, menor valor de saturação de oxigênio sanguíneo. Os aspectos investigados foram sexo e idade dos pacientes, tipo de doença (isolada ou sindrômica), experiência prévia com algum tipo de cirurgia para desobstrução das vias aéreas superiores, tipo de osteotomia realizada no procedimento e extensão do aumento mandibular, além da saturação de oxigênio antes da cirurgia. Entretanto, esses resultados devem ser interpretados com cautela em função da pequena amostra analisada e da natureza e qualidade dos estudos incluídos, os quais não são estudos clínicos controlados.



B. MICROGNATIA/RETROGNATIA COM MALOCCLUSÃO DE CLASSE II EM ADULTOS E ADOLESCENTES NÃO-SINDRÔMICOS

A evidência que subsidia o uso da distração osteogênica para o aumento mandibular em casos selecionados de micrognatia com maloclusão de classe II em indivíduos não-sindrômicos em comparação à cirurgia de osteotomia sagital bilateral é composta por revisões sistemáticas de estudos controlados randomizados com baixo risco de viés, sendo, portanto, considerada de alto nível. A distração osteogênica mandibular possibilitou aumentos mandibulares em média maiores que a osteotomia sagital com a mesma estabilidade esquelética e taxas de recidivas semelhantes em períodos de até 36 meses. As complicações decorrentes dos dois procedimentos não são em sua maioria graves e ocorrem em baixa frequência.

Essam Ahmed Al-moraissi; Edward Ellis

Revisão sistemática com metanálise de estudos nos quais se compararam os efeitos de duas modalidades cirúrgicas de aumento mandibular em indivíduos com hipoplasia mandibular com maloclusão de classe II. Foram incluídos na revisão três estudos clínicos controlados randomizados com baixo risco de viés, um estudo clínico controlado não randomizado e cinco estudos retrospectivos nos quais se comparavam a osteotomia mandibular sagital bilateral com a distração osteogênica bilateral para aumento mandibular em um total, para todos os estudos, de 357 participantes entre 13 e 50 anos de idade. A quantidade de avanço mandibular foi significativamente menor nos participantes submetidos à osteotomia sagital bilateral (média de 7,2 mm com uma amplitude de 7,06 a 7,71 mm), em relação aos submetidos à distração osteogênica (média de 8,41 mm com uma amplitude de 7,26 a 12,43 mm). O tempo de seguimento dos participantes nos estudos variou entre 6 meses e 7,9 anos. A estabilidade pós-cirúrgica mensurada por análise cefalométrica (de possíveis recidivasⁱⁱⁱ vertical e horizontal em tempos de seguimento de 6 meses a 3 anos) após o aumento mandibular não foi estatisticamente diferente entre os grupos submetidos aos diferentes procedimentos (4 estudos, n=122, diferença de médias de deslocamento vertical WMD = -0,27 mm; IC 95% -0,81 a 0,28 mm, p=0,34 e diferença de médias de deslocamento horizontal WMD = -0,02 mm, IC 95% -0,25 a 0,21 mm, P = 0,88). Também não foi estatisticamente diferente entre os grupos a taxa de recidiva pós-cirúrgica estimada pela medida do ângulo SNB após o aumento mandibular com tempos de seguimento entre 3 meses e 7,9 anos (2 estudos, n=122, diferença de médias -0,71 graus, IC 95% -2,06 a 0,63, P = 0,30). Dessa forma, conseguem-se avanços mandibulares maiores com a distração osteogênica (> 7 mm) em associação à mesma estabilidade esquelética pós-cirúrgica observada para a cirurgia de osteotomia mandibular sagital bilateral. Em relação à frequência de distúrbio neurosensorial do nervo alveolar inferior, identificou-se uma diminuição de risco estatisticamente significativa em indivíduos submetidos à distração osteogênica bilateral em relação à osteotomia mandibular sagital (565 nervos avaliados em quatro estudos; RR 1,40, IC 95% 1,03 a 1,89, P = 0,03). Essa vantagem se mantém para a distração osteogênica quando esse parâmetro é avaliado também de forma subjetiva, pela perspectiva do paciente (RR 1,45, IC 95% 1,15 a 2,06, P=0,004). O NNT calculado foi de 7, significando que para cada 7 indivíduos submetidos a avanço

ⁱⁱⁱ A recidiva se caracteriza por um retorno parcial ou total ao posicionamento mandibular pré-cirúrgico.



mandibular por distração osteogênica 1 se beneficiaria, com metade do risco de desenvolver distúrbios neurosensoriais no lábio e no queixo por injúria do nervo alveolar inferior.

Baas *et al.*, 2015 (2 estudos)

O grupo de Baas e colaboradores publicaram uma série de três artigos científicos a partir de um estudo clínico controlado randomizado^{iv} envolvendo 66 participantes com idade média de 20 anos (14,3 a 34,8), não sindrômicos, com hipoplasia mandibular e maloclusão de classe II. Um dos artigos já foi abordado na revisão sistemática e metanálise de Al-moraissi e Ellis apresentada anteriormente. Em outros dois artigos os autores relatam desfechos relacionados à estabilidade esquelética pós-cirúrgica (recidivas), aos efeitos adversos e qualidade de vida dos pacientes após os procedimentos cirúrgicos, os quais não foram incluídos na metanálise de Al-moraissi e Ellis. No estudo os autores compararam a osteotomia mandibular sagital bilateral e a distração osteogênica bilateral para aumento mandibular. Em um dos estudos o desfecho primário foi a estabilidade esquelética em tempo médio de seguimento de 23,8 meses avaliada por cefalometria lateral a partir de radiografias sucessivas pré e pós cirúrgicas, ou, no caso de indivíduos submetidos à distração osteogênica, após o período de distração. A estabilidade esquelética foi avaliada por meio de comparação pré e pós-cirúrgica das linhas e planos cefalométricos SNB (sela-násio-ponto B mandibular); SN-PM (sela-násio-plano mandibular); X-B e X-Y (**Figura 5**).

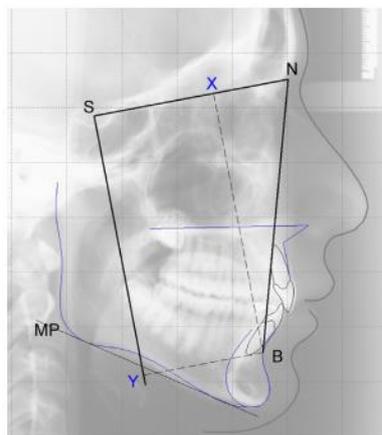


Figura 5 – Pontos, linhas e planos cefalométricos utilizados na análise de estabilidade esquelética. **Fonte:** Baas *et al.*, 2014.

Em relação ao aumento mandibular, não se identificou diferença estatisticamente significativa ($p=0,506$) entre os grupos submetidos às diferentes modalidades cirúrgicas, com média de 7,0 mm de avanço (4 a

^{iv} Para esse estudo a alocação dos pacientes foi feita de forma aleatória e cega. Envelopes com os nomes dos pacientes e as modalidades cirúrgicas para as quais foram alocados foram abertos na presença dos cirurgiões antes da realização dos procedimentos. Os envelopes foram abertos consecutivamente pela ordem numérica.



12 mm) para o grupo submetido à osteotomia mandibular sagital bilateral e de 7,3 mm (5 a 12 mm) para o grupo que recebeu a distração osteogênica.

O relapso vertical (**linha X-B – Figura 5**) não foi estatisticamente diferente entre os grupos ($p=0,802$), com registro de $-0,074$ mm no grupo que recebeu a distração osteogênica e de $-0,034$ mm no grupo submetido à osteotomia mandibular sagital bilateral. Entre os indivíduos com maior crescimento vertical da mandíbula, medido por deslocamento do ângulo do plano mandibular maior que 38° , houve 10/34 no grupo submetido à distração osteogênica e 8/29 submetidos à osteotomia, sem diferença estatística ($p=0,873$). Quando se comparam os relapsos verticais entre os indivíduos com maior crescimento vertical e aqueles com menor crescimento vertical, não se identifica diferença estatisticamente significativa, independentemente da modalidade cirúrgica ($p=0,497$).

O relapso horizontal (**linha Y-B e ângulo SNB – Figura 5**) também não foi estatisticamente diferente ($p=0,609$) entre os grupos, com relapsos avaliados pela linha Y-B de $-0,324$ mm para o grupo que recebeu a distração osteogênica e de $-0,448$ mm para o grupo submetido à osteotomia. O relapso avaliado pelo ângulo SNB foi de $-0,250^\circ$ para o grupo distração osteogênica e de $-0,259^\circ$ para o grupo osteotomizado. Essa diferença se mantém não significativa quando se compararam os relapsos horizontais de indivíduos com maior crescimento mandibular vertical ($> 38^\circ$) e menor crescimento vertical (para Y-B $p=0,176$ e para SNB $p=0,130$).

Em indivíduos submetidos paralelamente à cirurgia das maxilas (osteotomia Le Fort I – 8 em distração e 3 em osteotomia) não se identificaram diferenças estatisticamente significativas em relação àqueles submetidos somente ao aumento mandibular quando se avaliaram os relapsos horizontal e vertical, independentemente da modalidade cirúrgica.

Esses resultados acompanham os descritos na metanálise de Al-moraissi e Ellis, na qual também não se identificaram diferenças estatisticamente significativas entre os relapsos vertical e horizontal registrados para as duas modalidades cirúrgicas (4 estudos, $n=122$, diferença de médias de deslocamento vertical WMD = $-0,27$ mm; IC 95% $-0,81$ a $0,28$ mm, $p=0,34$ e diferença de médias de deslocamento horizontal WMD = $-0,02$ mm, IC 95% $-0,25$ a $-0,21$ mm, $P = 0,88$).

No segundo estudo publicado avaliam-se os seguintes desfechos secundários: tempo de operação, perda de sangue, infecção pós-cirúrgica, dor pós-cirúrgica, uso de analgésicos e custos. A dor no pós-cirúrgico foi avaliada pelos pacientes por meio de escala visual analógica (VAS - 0 a 100) e os resultados expressos como a média de três avaliações, duas registrando a menor e a maior sensação de dor no dia e uma terceira para registro da sensação de dor no momento do preenchimento do instrumento de avaliação. O uso de analgésicos no pós-operatório foi expresso pelos pacientes numericamente em escala variando de 0 a 3, sendo zero equivalente a nenhuma utilização e 3 referente à utilização dos analgésicos ibuprofeno 600 mg; paracetamol 500 mg e tramadol 50 mg nas doses máximas diárias permitidas (1 ponto para cada analgésico utilizado em dose máxima). Os outros parâmetros foram registrados pela equipe hospitalar.

A percepção de dor não foi estatisticamente diferente entre os grupos até o sexto dia pós cirurgia, quando diminuiu significativamente nos dias 7 e 8 no grupo submetido à osteotomia em relação ao grupo submetido à distração osteogênica ($p=0,03$ e $p=0,01$, para os dias 7 e 8). No grupo submetido à osteotomia as médias das avaliações de dor decresceram diariamente, enquanto no grupo submetido à distração essas permaneceram semelhantes no período de 8 dias.



Da mesma forma, o quantitativo de analgésicos utilizados foi menor para o grupo submetido à osteotomia somente a partir do quinto dia após a cirurgia, permanecendo constante no grupo submetido à distração osteogênica.

O tempo para a realização do procedimento cirúrgico foi significativamente menor no grupo submetido à osteotomia (78 min vs. 100 min.; $p=0,024$). A perda de sangue não foi diferente entre os grupos (distração osteogênica 194 mL e osteotomia 153 mL; $p=0,199$). Todas as infecções pós-cirúrgicas foram registradas no grupo submetido à distração osteogênica (12 indivíduos, $p=0,005$). Três desses foram internados por um dia para drenagem de abscessos. Os procedimentos de distração osteogênica foram em média 62,6% mais caros que os de osteotomia.

Mohammad-Esmail Hassani *et al.* 2014

Estudo clínico controlado randomizado e aberto em que foram comparadas duas modalidades cirúrgicas para aumento mandibular em 67 indivíduos com micrognatia ou hipoplasia mandibular com maloclusão de classe II e idade média de 18,2 anos. Durante seis anos participantes foram randomizados para se submeterem à osteotomia mandibular sagital bilateral ou à distração osteogênica bilateral mandibular. Antes e após a realização dos procedimentos os padrões de normalidade do complexo craniofacial foram aferidos por meio de análise cefalométrica (ângulos SNA^v e SNB^{vi}) em ambos os grupos, que foram acompanhados pelo tempo médio de 36 meses. Houve modificação estatisticamente significativa no ângulo SNB com alteração da mandíbula após os procedimentos em ambos os grupos, não se registrando diferença de significância estatística entre os grupos. Os avanços registrados para a mandíbula não foram estatisticamente diferentes entre os grupos (11,9 mm para osteotomia e 12,1 mm para a distração osteogênica). As taxas de recidiva pós-cirúrgica e reabsorção óssea não foram diferentes entre os grupos.

Rossini *et al.*, 2016

Revisão sistemática da literatura disponível até 2015 na qual se avaliam as modificações causadas pelo procedimento de distração osteogênica mandibular nos ossos e tecidos moles em curto e longo prazos, além das taxas de recidiva pós-cirúrgicas relacionadas ao procedimento em indivíduos não sindrômicos com hipoplasia mandibular com maloclusão de classe II. Entre os oito estudos incluídos na análise um era prospectivo não randomizado e sete retrospectivos não randomizados, abrangendo 181 participantes com idades entre 7 e 29,8 anos. A qualidade de quatro estudos foi considerada moderada e a de outros quatro baixa. Em quatro dos estudos avaliados relataram-se alterações na dimensão vertical da mandíbula após a distração por meio da quantificação de aumentos ósseos verticais por técnicas radiográficas observando a modificação de parâmetros cefalométricos, como os aumentos no ângulo do plano mandibular (crescimento vertical) em curto e longo prazos. Da mesma forma se relataram aumentos estatisticamente significativos do comprimento do corpo mandibular (distância entre gônion e mento) da magnitude de 8,51 mm para o lado direito e 8,13 mm para o lado esquerdo em avaliação por radiografias panorâmicas (aumentos de 9,3 a 9,8%), com relapsos consideráveis em longo prazo de 0,5 a 2,5 mm.

^v Esse ângulo representa a posição anteroposterior da maxila em relação à base do crânio.

^{vi} Esse ângulo representa a posição anteroposterior da mandíbula em relação à base do crânio.



Outros autores registraram avanços da magnitude 8,2 mm e aumentos no ângulo SNB. Geralmente, durante o procedimento de distração osteogênica, os tecidos moles da mandíbula seguem as alterações dos ossos (histogênese de distração), sendo uma exceção o lábio inferior, cujo movimento é mais imprevisível. Em relação aos pontos do tecido mole na cefalometria lateral, registraram-se, em um estudo, boa correlação entre os avanços verticais dos pontos B (no tecido ósseo na dobra mentolabial, sublabial) e lábio inferior (no tecido mole) e pontos B (tecido ósseo) e estômio inferior (tecido mole). Entretanto, não se menciona o tempo de seguimento pós-cirúrgico até a mensuração desses parâmetros e esses tecidos geralmente não se estabilizam até pelo menos 12 meses após as modificações ósseas. Já para o posicionamento sagital dos lábios e estruturas de tecido mole adjacentes observou-se, por vários autores, uma correspondência de 90% entre os pontos cefalométricos dos tecidos mole e ósseo. Já a correspondência entre o posicionamento dos dentes e de estruturas do tecido mole adjacentes fica em torno de 20%.

C. MICROSSOMIA CRANIOFACIAL UNILATERAL

A evidência que subsidia a utilização da distração osteogênica para a correção da mandíbula em indivíduos com microssomia craniofacial unilateral é composta por revisão sistemática de séries de casos prospectivas e retrospectivas. Apesar de se apresentarem bons resultados em curto prazo nos casos menos severos, com maloclusão de classes I e IIa, os resultados em longo prazo, até 20 anos, demonstram altas taxas de assimetria, recidivas e necessidade de reintervenções. Em casos mais severos (classes IIb e III) o uso é controverso e associado a resultados insatisfatórios.

Pluijmers et al 2014

Já a revisão do grupo de Pluijmers e colaboradores (2014) teve o principal foco em indivíduos em crescimento (até 16 anos de idade) e diagnosticados com **microssomia craniofacial unilateral**, síndrome que também afeta a mandíbula, mas difere da micrognatia por ser nessa última o subdesenvolvimento restrito à mandíbula. Na microssomia craniofacial o ramo ascendente da mandíbula é geralmente reduzido na dimensão vertical e há presença de problemas na articulação temporomandibular, órbitas e orelhas. Todos os estudos incluídos foram séries de casos prospectivas ou retrospectivas abrangendo 247 participantes com idade média de 8,9 anos (2 a 15,3 anos). Na maioria dos relatos a técnica cirúrgica de correção mandibular utilizada foi de enxertia óssea (43,9%), seguida pela distração osteogênica (40,3%) e por combinações das duas modalidades. Entretanto a distração osteogênica foi mais utilizada em indivíduos com deformidade leve a moderada, de grau IIa (segundo classificação de Pruzansky), em que há um ramo mandibular pequeno e uma articulação temporomandibular com funcionalidade quase normal. Para a maioria dos estudos os resultados foram favoráveis em curto prazo, no período pós-cirúrgico, independentemente da modalidade cirúrgica empregada. Em longo prazo, entretanto, relataram-se altas de taxas de retorno da assimetria facial em função de recidivas, reabsorção óssea ou crescimento diferencial dos dois lados da mandíbula. Essas taxas mais altas de insucesso em longo prazo foram mais frequentes entre indivíduos com deformidades mais severas (classe II e III), sendo menos expressivas em indivíduos com deformidades mais leves (classes I e IIa).



McCarthy *et al.*, 2017

O grupo de McCarthy que foi pioneiro na utilização da distração osteogênica nos ossos da face na década de noventa reportou o resultado de estudo retrospectivo em que relatam desfechos de longo prazo de pacientes diagnosticados com microssomia craniofacial e submetidos ao procedimento de distração osteogênica para aumento mandibular entre 1990 e 2011. Os indivíduos foram diagnosticados com **microssomia craniofacial unilateral** leve a moderada (classes I e IIa), sem problemas relatados de apneia ou dificuldade respiratória. Todos eram menores que 10 anos de idade no momento da cirurgia. Em todos os casos o procedimento cirúrgico foi conduzido por um único cirurgião utilizando o mesmo protocolo nos Estados Unidos e os desfechos de longo prazo foram avaliados em tempo posterior à maturidade esquelética dos pacientes. O grupo de indivíduos incluídos no estudo foi dividido em dois subgrupos, um para o qual se atribuíram resultados favoráveis e outro para o qual se atribuíram resultados desfavoráveis. A avaliação dos resultados da cirurgia de distração mandibular que subsidiou a separação dos indivíduos nos subgrupos foi conduzida por meio da visualização de fotos dos pacientes e, nesse processo, da identificação de pontos cefalométricos pré-estabelecidos. Aspectos como o tamanho, a localização e a simetria dos ossos da face e da mandíbula, além de aspectos relacionados aos tecidos moles também foram avaliados e uma pontuação foi atribuída para cada caso. De acordo com esses critérios, dos 19 pacientes avaliados, 12 (63,2%) foram considerados satisfatórios e 7 (36,8%) não satisfatórios. Em relação às complicações pós-cirúrgicas não houve diferença entre os grupos, com três indivíduos apresentando lesão de ramo do nervo facial, dois apresentando infecção e um cicatriz hipertrófica. A necessidade de realização de um novo procedimento cirúrgico foi expressiva e 10 dos 19 indivíduos foram submetidos a uma nova cirurgia para correção mandibular no período posterior à distração osteogênica (41% no grupo satisfatório e 71% no outro grupo). Indivíduos no grupo com resultados satisfatórios eram mais novos no momento da cirurgia e foram mais frequentemente submetidos a correções iniciais maiores (supercorreções) que as esperadas para normalizar o plano de oclusão da mandíbula.

D. SÍNDROME DA APNEIA OBSTRUTIVA DO SONO

A evidência que subsidia a utilização da distração osteogênica como recurso para tratar a apneia do sono é composta por revisões sistemáticas de séries de casos retrospectivas e prospectivas. Os estudos são bastante heterogêneos, principalmente no que diz respeito aos parâmetros e metodologia utilizados para mensurar os efeitos das intervenções na evolução da doença, com marcada falta de padronização para avaliação quantitativa. Apesar disso, os resultados são consistentes quando apontam para uma melhora do quadro de apneia noturna após a intervenção cirúrgica, geralmente expressos pela diminuição do índice de apneia hipopneia e aumento da saturação de oxigênio sanguíneo.

Tsui *et al.*, 2016

Em revisão sistemática da literatura até 2014 (TSUI *et al.*, 2016) foram incluídas 12 séries de casos retrospectivas com mais de 10 pacientes, que se configuravam como o maior nível de evidência disponível, uma vez que não foram encontrados estudos com outros delineamentos. Em todas as séries de casos relatavam-se desfechos relacionados ao tratamento de apneia obstrutiva do sono com distração



osteogênica mandibular em adultos diagnosticados com mandíbula retrognática, anquilose da articulação temporomandibular e apneia obstrutiva do sono e crianças, em sua maioria sindrômicas. A idade dos 256 indivíduos submetidos à distração osteogênica mandibular variou entre 7 dias até 60 anos. Os avanços mandibulares variaram entre 12 e 29 mm e o tempo médio de seguimento variou entre 6 e 37 meses. Em todos os estudos a avaliação do efeito da cirurgia na apneia foi conduzida por meio de polissonografia. As dimensões das vias aéreas foram avaliadas pré e pós cirurgicamente por cefalometria (radiografia) ou tomografia computadorizada. Considerando como sucesso cirúrgico em adultos um índice de apneia e hipopneia menor do que 20/h e uma diminuição maior ou igual que 50% nesse parâmetro após a cirurgia, registrou-se taxa sumária de sucesso pós-cirúrgico de 100%. Considerando como cura em adultos um índice de apneia e hipopneia menor que 5/h, registraram-se taxas entre 82 a 100% de cura pós-cirúrgica. Em crianças os critérios de sucesso e cura não estão bem definidos por parâmetros numéricos e foram consideradas nesses casos as avaliações clínicas dos pacientes após a cirurgia. Em adultos a medida sumária do índice de apneia e hipopneia diminuiu de 51,7/h (43 a 58/h) para 2,9/h (2,1 a 3,4/h) e em crianças da faixa de 10 a 50/h para 1,1 a 5/h. A saturação mínima de oxigênio (LSAT) aumentou de uma faixa de 67 a 77% para 90,3 a 98,2% em adultos e de 73,5 a 93,4% para 88,9 a 99,2% em crianças. Em revisão sistemática mais recente descrevem-se os efeitos da utilização da distração osteogênica mandibular no tratamento da apneia obstrutiva do sono em adultos. Em busca finalizada no ano de 2017 foram recuperados 11 estudos que se tratavam de séries de casos prospectivas e retrospectivas provenientes da China, Índia, Japão, Estados Unidos e França. Nesse período entre 2014 e 2017 não foram publicados estudos controlados randomizados. Metanálise dos estudos revelou um efeito sumário do aumento mandibular por distração osteogênica no índice de apneia e hipopneia (IAH - número de hipopneias e apneias por hora) de diminuição de uma média de $45,89 \pm 23,73$ para $6,15 \pm 10,44$ eventos por hora (50 pacientes - 86,60% de decréscimo). A saturação mínima de oxigênio (LSAT) aumentou de uma média de $71,93 \pm 14,63$ para $88,95 \pm 10,95$ (55 pacientes). A taxa de sucesso dos procedimentos cirúrgicos foi superior a 80% (NOLLER *et al.*, 2017).

E. COMPLICAÇÕES/SEGURANÇA

Verlinden *et al.*, 2015

O grupo de Verlinden publicou uma série de três revisões sistemáticas sobre as complicações relacionadas ao procedimento de distração osteogênica mandibular. Em duas das revisões tratam-se de forma separada das complicações resultantes de procedimentos cirúrgicos para correção de deformidades mandibulares congênitas e de desenvolvimento. Essas duas revisões serão descritas a seguir.

Em relação às deformidades congênitas foram incluídos para avaliação qualitativa 81 estudos abrangendo 1.258 participantes, dos quais a maioria (n=717, 57%) fora diagnosticada com microsomia hemifacial/craniofacial e sequência de Pierre Robin (27,1%). Em 99,8% dos casos, o objetivo da cirurgia era o aumento mandibular bilateral (52,9%) ou unilateral (46,9%). Identificaram-se 433 complicações cirúrgicas registradas em 54 estudos, para uma taxa de complicações de 34,4%, considerando os 1.258 participantes. A maioria das complicações foram classificadas entre aquelas que se resolveram sem hospitalização tais como infecção no local de fixação do equipamento, aplicação do vetor de força incorreto e problemas relacionados ao equipamento de distração (afrouxamento de parafusos ou extrusão). Depois, as complicações mais frequentes foram as classificadas como permanentes ou que causam problemas funcionais ou psicológicos, tais como mordida aberta esquelética, formação de



cicatrizes hipertróficas e dano permanente aos dentes e folículos. Em terceiro lugar aparecem as complicações que se resolveram espontaneamente no período de até seis meses, tais como os problemas neurosensoriais do nervo alveolar inferior e dor.

Em relação às deformidades devidas a problemas de desenvolvimento foram incluídos 32 estudos abrangendo 565 indivíduos diagnosticados com hipoplasia mandibular classe II e hipoplasia mandibular transversal. Ao total foram relatadas 211 complicações para uma taxa de 37,4%. As complicações mais frequentes foram as infecções no local de fixação do distrator, problemas neurosensoriais do nervo alveolar inferior tanto temporários quanto permanentes e falhas no distrator com necessidade de troca.



5. ASPECTOS ECONÔMICOS

5.1 CUSTO-EFETIVIDADE DA DISTRAÇÃO OSTEOGÊNICA EM RELAÇÃO À OSTEOTOMIA SAGITAL BILATERAL PARA AUMENTOS MANDIBULARES MAIORES QUE 10 MM EM INDIVÍDUOS COM MICROGNATIA E MALOCCLUSÃO TIPO II

A severidade da deformidade óssea mandibular assim como nas maloclusões maiores que 10 mm é um fator de risco bem estabelecido para as cirurgias ortognáticas e está relacionado a maiores taxas de recidivas cirúrgicas, complicações e necessidade de reintervenções. O procedimento de distração osteogênica para aumentos mandibulares maiores que 10 mm está associado a baixas taxas de recidiva e necessidade de reintervenção, mas com um maior custo.

Foi realizada análise de custo-efetividade comparando a cirurgia disponível pelo SUS, osteotomia sagital bilateral mandibular (OSBM) à distração osteogênica mandibular (DOM), em indivíduos com micrognatia/hipoplasia mandibular e maloclusão de classe II, que necessitem de aumento mandibular superiores a 10 mm. A perspectiva foi do Sistema Único de Saúde, com horizonte temporal de um ano, tempo gasto para a observação dos resultados cirúrgicos (desfechos de curto prazo).

Foi desenvolvido um modelo do tipo árvore de decisão (**Figura 6**) no software TreeAge Pro 2018™. Este modelo representou a realidade de forma simplificada. A DOM ou OSBM apresentam indicações funcionais e estéticas, criando um impacto positivo na qualidade de vida dos pacientes, neste sentido, o desfecho mais adequado para a análise seria a melhoria na qualidade de vida, anos de vida ajustados por qualidade (*quality-adjusted life years* – QALY) ou anos de vida ajustados por incapacidade (*disability-adjusted life years* – DALY), no entanto, não foram encontrados dados na literatura científica que pudessem expressar estes desfechos, sendo adotado o sucesso ou fracasso cirúrgico com desfecho de interesse. Esse desfecho escolhido para composição do modelo foi avaliado nos estudos selecionados para compor esse parecer.

Os custos computados na análise foram obtidos pela consulta a especialistas e da Tabela de Procedimentos do SUS. A **Tabela 6** apresenta as estratégias de tratamento, bem como os custos envolvidos em cada tratamento.



Tabela 6 – Estratégias e custos dos tratamentos

Material e/ou procedimento	Custo unitário	Custo Total	Fonte
Distração osteogênica mandibular			
Distrator (alongador) mandibular	R\$ 14.000,00	R\$ 28.000,00	Painel de especialistas
04.04.02.046-1 - osteotomia da mandíbula (colocação e retirada do distrator)	R\$ 659,03	R\$ 1.318,06	Tabela de procedimentos do SUS (SIH).
Total		R\$ 29.318,06	
Osteotomia sagital bilateral mandibular			
0702050474 - placa de reconstrução em titânio p/ fratura de mandíbula (com parafusos)	R\$ 1.150,16	R\$ 2.300,32	Tabela de procedimentos do SUS (SIH)
04.04.02.046-1 - osteotomia da mandíbula (compatibilidade com os procedimentos acima para materiais)	R\$ 659,03	R\$ 659,03	Tabela de procedimentos do SUS (SIH)
08.02.01.019-9 - diária de permanência a maior	R\$ 20,06	R\$ 20,06	Tabela de procedimentos do SUS (SIH)
Total		R\$ 2.979,41	

A primeira estratégia, distração osteogênica mandibular, apresentou um custo total de R\$ 29.318,06, enquanto a segunda estratégia, osteotomia sagital bilateral mandibular, apresentou um custo total de R\$ 2.979,41. Para o insucesso cirúrgico, ambas intervenções terão um custo adicional para realização de uma nova intervenção de R\$ 659,03.

Para a construção do modelo foram consideradas as probabilidades de ocorrência dos eventos descritos na árvore de decisão (sucesso cirúrgico/insucesso cirúrgico) (**Figura 6**), disponíveis na literatura. Para a realização de um aumento superior a 10 mm, a efetividade da DOM foi de 96,8% e para OSMB foi de apenas 60%, sendo 40% dos indivíduos necessitando de uma nova intervenção por insucesso cirúrgico.

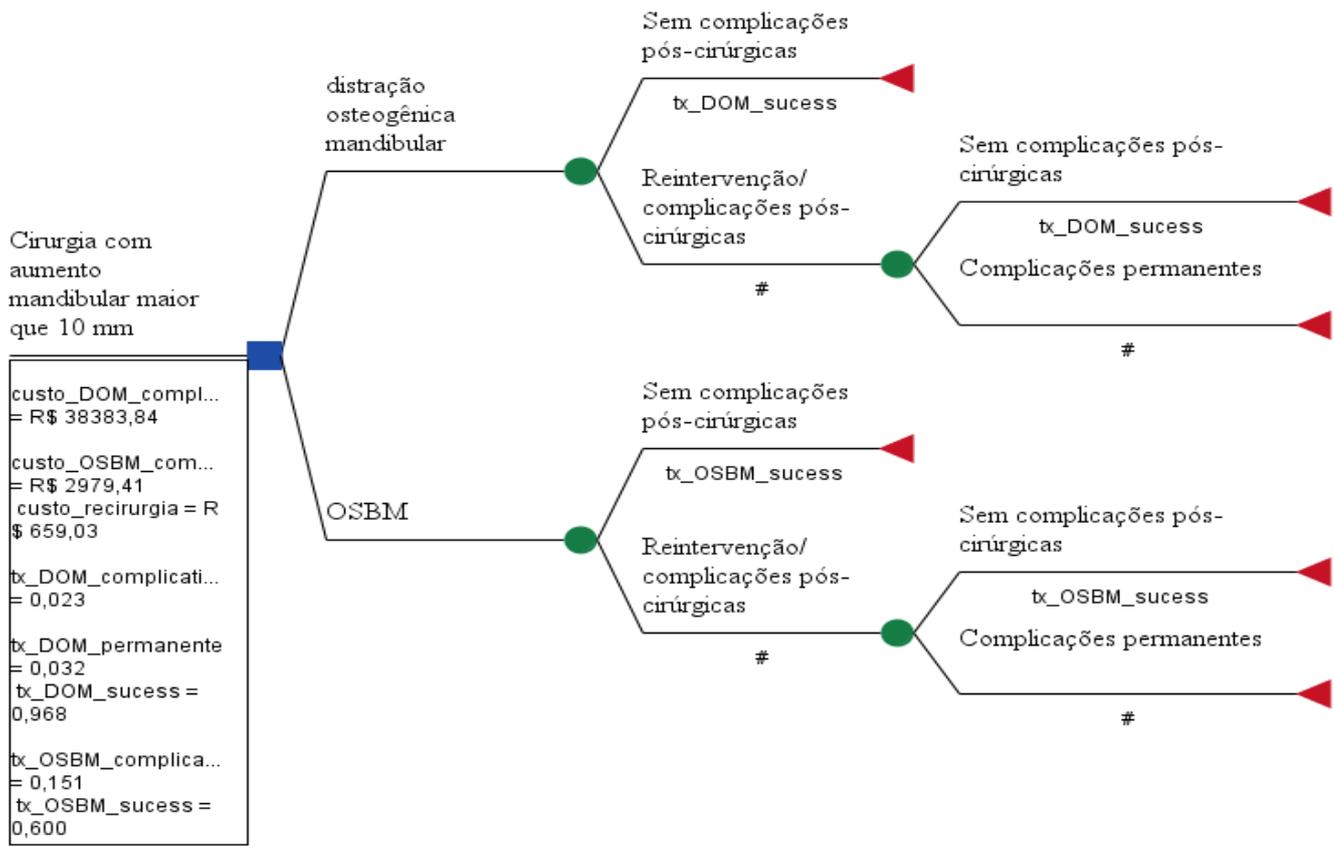


Figura 6. Árvore de decisão simples para cirurgia com aumento mandibular maior que 10 mm.

As intervenções quando comparadas entre si, considerando os custos e as efetividades, em pacientes com aumento mandibular de mais de 10 mm, apresentou uma razão de custo efetividade (RCEI) de R\$ 162.376,00. Em pacientes que necessitam de aumentos mandibulares maiores que 10 mm, a DOM é bem mais efetiva, porém os custos da cirurgia são elevados. Os resultados da análise estão apresentados na Tabela 7.



Tabela 7 – Resultados da análise de custo-efetividade

Estratégia	Custo (R\$)	Custo Incr.	Efetividade	Efetividade Incr.	C/E Incr. (R\$ por sucesso cirúrgico)	C/E
OSBM	3.243,02		0,84			3.860,74
DOM	29.056,96	25.813,94	0,99	0,15	162.376,30	29.086,74

Legenda: OSBM – Osteotomia sagital bilateral mandibular. DOM – Distração osteogênica mandibular. C/E – Custo-Efetividade.

O maior custo imputado à distração osteogênica mandibular refere-se ao custo do distrator (alongador) mandibular atingindo a 28 mil reais para dois distratores. Caso esse valor fosse reduzido pela metade (análise de sensibilidade), o RCEI seria de R\$ 75.501,74; reduzindo em 75% o RCEI seria de R\$ 28.469,94. Para nenhuma dessas reduções a DOM uma tecnologia seria dominante.

5.2 CUSTOS ASSOCIADOS À DISTRAÇÃO OSTEOGÊNICA MANDIBULAR EM RECÉM-NASCIDOS E CRIANÇAS COM SEQUÊNCIA DE PIERRE ROBIN ISOLADA OU SINDRÔMICA

Recém-nascidos e crianças com anomalias craniofaciais associadas a micrognatia frequentemente apresentam comprometimento do fluxo das vias aéreas superiores. Essa situação tem alto potencial de morbidade e mortalidade.

Os sinais e sintomas clínicos de obstrução são múltiplos, como diminuição da saturação de oxigênio, retenção de dióxido de carbono, obstrução posicional inspiratória, apneias ou bradicardias, ou obstrução completa das vias aéreas levando à parada respiratória e morte. Há também outro grupo de sinais que contribuem para a morbidade, como má alimentação, déficit de crescimento, ganho de peso insuficiente devido à desnutrição e morbidade pulmonar frequente com efeitos em longo prazo. A maioria das crianças que nascem com obstrução das vias aéreas superiores associada à micrognatia é diagnosticada com a sequência de Pierre Robin. Outras doenças que afetam os ossos craniofaciais e podem produzir um cenário clínico semelhante são a síndrome de Treacher Collins, a síndrome de Crouzon, a síndrome de Nager, a síndrome de deleção do 22q e a microssomia hemifacial bilateral. Em casos graves, a intubação de emergência é necessária imediatamente após o nascimento, e a traqueostomia é recomendada para manter as vias aéreas no período neonatal e permitir a alimentação. A intervenção precoce com osteogênese mandibular bilateral pode evitar a necessidade de



traqueostomia, juntamente com suas complicações, e tem como alvo o principal fator etiológico do problema - a anatomia anômala da mandíbula. Os procedimentos cirúrgicos nestes pacientes são geralmente reservados para aqueles que continuam a ter obstrução grave das vias aéreas com hipoxemia e hipercapnia apesar das medidas conservadoras e em um esforço para evitar a traqueostomia.

Atualmente, existem três opções cirúrgicas para o recém-nascido micrognático: adesão língua-lábio (TLA), traqueostomia e distração osteogênica mandibular (DOM).

A traqueostomia alivia imediatamente a obstrução das vias aéreas superiores e ainda é considerada padrão-ouro por muitos médicos. No entanto, a mortalidade associada de 1 a 4% e a morbidade significativa, incluindo decanulação acidental, obstrução da cânula traqueostomizada, sangramento, pneumonia, formação de tecido de granulação, lesão da cartilagem cricóide, disfunção da deglutição, problemas de desenvolvimento de fala e linguagem e decanulações tardias, tornam a traqueostomia uma opção com sérias limitações. Além disso, crianças com traqueostomia de longo prazo necessitam de cuidados em casa, além de equipamentos de monitoramento e sucção.

Distração osteogênica é um método de produção de novo osso com um procedimento cirúrgico que envolve uma osteotomia (corte ósseo) e alongamento gradual dos segmentos ósseos divididos. O procedimento cirúrgico é composto por três fases: (1) osteotomia e latência, (2) distração e (3) consolidação. A primeira fase envolve procedimento cirúrgico no qual as osteotomias são feitas na mandíbula e os distratores são colocados. A fase de distração logo se segue, onde o dispositivo é ativado para alongar gradualmente o osso da mandíbula. A taxa de distração é geralmente de 1 a 2 mm/dia e é realizada com um dispositivo de rotação que se conecta a parte externa do distrator. Como o processo de alongamento é constante e gradual, os tecidos moles subjacentes se esticam para acomodar a estrutura óssea recém-expandida. Esse processo geralmente é bem tolerado (não requer analgesia), e o paciente é capaz de retomar a dieta normalmente durante o período pós-operatório. A fase final é a fase de consolidação, que envolve a cicatrização e solidificação do osso recém-gerado. Durante esta fase, que normalmente leva cerca de 1 a 2 meses, o distrator é deixado no lugar para agir como um dispositivo de fixação (4).

Sua eficácia no tratamento de obstrução das vias aéreas em pacientes pediátricos com hipoplasia mandibular foi verificada em revisão sistemática da literatura. O período médio de latência (período entre inserção do distrator e início da distração) relatado (n = 456) foi de 2,1 dias (variação de 0 a 9 dias). A distância total média distraída (n = 495) foi 19,8 mm (intervalo de 6,5 a 49 mm). O período de consolidação variou de 14 a 120 dias, com um tempo médio de 52,5 dias (n = 406). Quando o tipo de distrator era especificado, os distratores internos eram ligeiramente favorecidos sobre distratores externos pela maioria dos cirurgiões, com distratores internos sendo usados em 53,4 por cento (n = 254) e distratores externos em 46,6 por cento dos casos (n = 222). Distratores bilaterais foram usados pela grande maioria dos autores, com 445 (95,5 por cento) casos relatados de distração mandibular bilateral, em comparação com apenas 21 casos (4,5 por cento) de distração unilateral. O procedimento de distração osteogênica



mandibular foi associado ao sucesso no tratamento de obstrução das vias aéreas causada por hipoplasia mandibular em 635 pacientes (89,3 por cento). Dos 203 pacientes que eram dependentes de traqueostomia antes da intervenção, 84,2 por cento (n = 171) foram decanulados. Nos demais pacientes (n = 32), a decanulação falhou e os pacientes permaneceram dependente de traqueostomia.

Em outra revisão sistemática a adoção de DOM como medida primária para o alívio da obstrução das vias aéreas superiores obteve sucesso na prevenção de traqueostomia em 95% dos casos. A maioria das crianças com obstrução das vias aéreas tem demonstrado melhora em seu estado respiratório dentro de alguns dias de distração. A mortalidade por obstrução persistente das vias aéreas após o procedimento cirúrgico foi baixa, com a maioria dos óbitos ocorrendo em lactentes com doença ou malformações associadas e não relacionada à presença de obstrução das vias aéreas. A complicação mais comum da cirurgia é a infecção do sítio cirúrgico e a maioria dos casos são tratados com sucesso com antibióticos.

A traqueostomia está associada a complicações em curto e longo prazos. Após a traqueostomia, o tempo prolongado de internação é comum, pois o tubo de traqueostomia deve ser trocado em múltiplas ocasiões e os cuidadores necessitam de tempo adequado para serem instruídos sobre os cuidados necessários. Além disso, há custos em longo prazo relacionados aos cuidados com traqueostomia. A distração osteogênica também está associada a custos elevados devido ao equipamento cirúrgico (distrator), mas a permanência no hospital tende a ser menor quando comparada à traqueostomia e normalmente não há custos em longo prazo. Em três estudos de análise de custos nos quais se comparam traqueostomia e DOM demonstrou-se que a DOM é menos onerosa (KOHAN *et al.*, 2010; RUNYAN *et al.*, 2014; PAES *et al.*, 2014). Isso está de acordo com o fato de que os pacientes submetidos à DOM geralmente recebem alta hospitalar mais cedo e necessitam de menos suporte profissional em casa.

Considerando o desfecho principal da DOM a traqueostomia evitada, não foi possível realizar uma análise econômica completa pela inexistência de tecnologia que possa substituir esse procedimento, estando, nessa faixa etária, a osteotomia sagital bilateral contraindicada. Portanto, somente uma análise de custos foi realizada comparando os custos da traqueostomia com DOM.

Na análise foram incluídos os itens de custo ou os serviços de saúde utilizados pelos recém-nascidos submetidos a ambos os procedimentos, segundo registro nos estudos de custo citados. Estes itens de custo foram valorados segundo perspectiva do SUS de acordo com valores obtidos pelo SIGTAP - Sistema de Gerenciamento da Tabela de Procedimentos, Medicamentos e OPM do SUS. Os itens de custo ou serviços de saúde captados dos estudos e incluídos nessa análise foram os custos de diárias de internação, alimentação enteral, estudos radiológicos, medicamentos e exames laboratoriais, cirurgias e materiais utilizados (gastrostomia, traqueostomia, DOM), custos de consultas ambulatoriais e atendimentos de emergência. Segundo os estudos, todos os pacientes que receberam alta com traqueostomia receberam cuidados de profissionais de saúde em casa. O horizonte temporal foi de um ano. A frequência de utilização dos serviços foi também obtida dos estudos de análise de custos acima referenciados.



Com relação à DMO, os pacientes foram submetidos a um mínimo de três operações - colocação inicial do aparelho de distração, remoção do braço de distração e remoção do dispositivo. Foi considerado que a primeira cirurgia teria o valor semelhante ao procedimento 04.04.03.005-0 - osteotomia da mandíbula em paciente com anomalia crânio e bucomaxilofacial do SIGTAP. Para as subseqüentes foram considerados valores menores, por serem considerados procedimentos mais simples. O valor da diária de internação foi obtido do SIH - DATASUS, considerando o valor gasto por internação com traqueostomia em outubro de 2017. O valor da diária de internação de emergência em traqueostomizados foi obtido do SIH em outubro de 2017. Para valorar o tempo de cuidado domiciliar por profissionais de saúde considerou-se o valor do procedimento: 03.01.05.003-1 - assistência domiciliar por equipe multiprofissional na atenção especializada. Os custos da cânula de traqueostomia e conjunto gastrostomia foram resgatados no COMPRASNET – Sistema de Compras do Governo Federal.

Nesta análise, pelo período de um ano, a DOM foi mais dispendiosa que a traqueostomia com uma diferença de R\$ 12.132,00 a mais por paciente. Os custos do aparelho distrator corresponderam a cerca de 80% dos gastos totais. Já na traqueostomia, os maiores custos estão relacionados à internação, correspondendo à 70% dos custos totais, visto que o paciente traqueostomizado permanece por maior tempo no hospital. As internações de emergências foram responsáveis por 19% dos gastos com traqueostomia. As **Tabelas 8 e 9** descrevem os custos detalhados de cada procedimento.

Tabela 8. Custos atribuídos à distração osteogênica mandibular

Distração osteogênica mandibular	Quantidade	Custo unitário	Custo total
Distrator	2	R\$ 14.000,00	R\$ 28.000,00
Osteotomia e colocação do dispositivo	1	R\$ 659,03	R\$ 659,03
Remoção dos braços rotatórios e extubação*	1	R\$ 151,67	R\$ 151,67
Remoção dos dispositivos de distração após a consolidação**	1	R\$ 225,17	R\$ 225,17
Tempo de permanência hospitalar em dias (média) em 1 ano	12	R\$ 408,93	R\$ 4.907,15
Tempo de cuidados domiciliares (dias)	1	R\$ 18,29	R\$ 18,29
Radiologia (número de filmes)	14	R\$ 9,03	R\$ 126,42
Conjunto gastrostomia, sonda trato digestivo	4	R\$ 36,09	R\$ 144,36
Necessidade de internações de emergência	1,2	R\$ 404,16	R\$ 484,99
Microbiologia (número de testes)	1	R\$ 2,80	R\$ 2,80
Virologia (número de testes)	0	R\$ 18,55	R\$ 0,00
Total			R\$ 34.431,98

Legenda: *04.08.06.036-0 - RETIRADA DE FIXADOR EXTERNO**04.08.06.040-9 - RETIRADA DE TRAÇÃO TRANS-ESQUELÉTICA



Tabela 9. Custos atribuídos à traqueostomia

Traqueostomia	Quantidade	Custo unitário	Custo total
CANULA P/ TRAQUEOSTOMIA	6	R\$ 28,57	R\$ 171,42
TRAQUEOSTOMIA	1	R\$ 554,73	R\$ 554,73
Tempo de permanência hospitalar em dias (média) em 1 ano	38	R\$ 408,93	R\$ 15.539,31
Tempo de cuidados domiciliares (dias)	46,7		R\$ 853,53
Radiologia (número de filmes)	4	R\$ 9,03	R\$ 36,12
CONJUNTO GASTROSTOMIA, SONDA TRATO DIGESTIVO	6	R\$ 36,09	R\$ 216,54
Necessidade de internações de emergência	10,5	R\$ 404,16	R\$ 4.243,68
Custos com complicações - pneumonia	1	R\$ 582,42	R\$ 582,42
Microbiologia (número de testes)	10	R\$ 2,80	R\$ 28,00
Virologia (número de testes)	4	R\$ 18,55	R\$ 74,20
Total			R\$ 22.299,95

Por meio da traqueostomia efetivamente se realiza a desobstrução das vias aéreas e esse procedimento ainda é considerado o padrão ouro para obstrução grave. Entretanto, tem maior morbidade associada, incluindo efeitos negativos na fala em longo prazo, dificuldades na alimentação, atrasos psicossociais, internações frequentes e pneumonia. De maior importância, a traqueostomia está associada a uma pequena, mas real chance de mortalidade (1% a 4%). Pela distração mandibular aborda-se diretamente o problema primário, a micrognatia. A complicação mais comum é infecção no sítio cirúrgico.

Ressalta-se que, nesta análise de horizonte temporal de um ano, a DOM foi mais dispendiosa devido aos custos atribuídos ao distrator, no entanto, expandindo-se este horizonte, os custos seriam certamente reduzidos, enquanto os gastos com traqueostomia permaneceriam. Em função dos estudos dos quais se extraíram as informações para a composição dessa projeção de custos, optou-se por não estender o horizonte da análise para além de um ano.

Outra questão bastante relevante refere-se à qualidade de vida dos recém-nascidos e familiares no contexto da obstrução das vias aéreas e necessidade de traqueostomia. Essas medidas de efetividade (utilidade) não existem na literatura e, portanto, não puderam ser incorporadas aos estudos econômicos, mas ressalta-se que há estudos na literatura nos quais se demonstra um ganho expressivo em qualidade



de vida pela retirada da traqueostomia. Esse ganho de qualidade de vida expressa-se pelo desenvolvimento psicossocial das crianças que passam a não dependerem mais da traqueostomia para respirar.

6. ASPECTOS ECONÔMICOS – IMPACTO ORÇAMENTÁRIO

Foi conduzida análise de impacto orçamentário na perspectiva do SUS para se projetar os gastos em um horizonte temporal de cinco anos de uma possível incorporação do distrator osteogênico mandibular para realização de cirurgia de aumento mandibular em indivíduos não sindrômicos com maloclusão esquelética severa por hipoplasia mandibular ou com micrognatia congênita (Pierre Robin ou síndromes) e obstrução das vias aéreas superiores, indicados para a traqueostomia.

Uma vez que esses procedimentos são de alta complexidade e com poucos centros no país habilitados a realizá-los, optou-se por utilizar a capacidade instalada como referencial para a projeção de impacto orçamentário. Entendeu-se que a aferição da demanda pelo método epidemiológico geraria informações superestimadas e irrealistas, uma vez que o principal determinante da produção (consumo de distratores) seria a capacidade instalada.

Para o cálculo da capacidade instalada partiu-se das informações da produção anual de dois grandes centros habilitados em cirurgia crânio e bucomaxilofacial no Brasil. Em um primeiro hospital realizam-se em média 12 cirurgias por ano e, no outro, 17 cirurgias de distração mandibular por ano. Optou-se por adotar o pressuposto de que a capacidade instalada de um hospital brasileiro habilitado em cirurgia crânio-bucomaxilofacial seria de 17 cirurgias para aumento mandibular por ano.

No Brasil atualmente há 29 hospitais habilitados em cirurgia crânio e bucomaxilofacial e, portanto, a produção nacional projetada para um ano seria de 493 cirurgias. Outro pressuposto utilizado e que também foi obtido a partir de informações de especialistas foi a proporção maior de cirurgias em recém-nascidos e crianças em relação aos adultos (adotou-se a proporção de 70:30 – pediátrica: adulto). Assim fazendo seriam 148 cirurgias em adultos por ano e 345 em recém-nascidos e crianças. Considerou-se que essa produção seria mantida em todos os cinco anos da projeção de impacto orçamentário.

Considerando o custo da cirurgia pediátrica como o custo incremental ou a diferença entre o custo do procedimento cirúrgico de distração osteogênica mandibular e o custo da traqueostomia evitada (ver item 5.2 desse parecer), obtém-se um valor de R\$ 12.132,00 por paciente pediátrico/ano. O custo da cirurgia em adultos segue o que se determinou no estudo econômico (item 5.1), ou seja, R\$ 29.318,00.

Assim fazendo-se obtém-se uma projeção de gastos pela incorporação do distrator osteogênico mandibular de R\$ 8,4 milhões por ano e de 42 milhões em cinco anos.



7. CONSIDERAÇÕES FINAIS

A evidência que subsidia o uso da distração osteogênica mandibular é de alta qualidade quando se avalia o uso em comparação à osteotomia sagital bilateral para o aumento mandibular em indivíduos com micrognatia severa não sindrômica e oclusão de classe II. É possível atingir aumentos mandibulares maiores com a mesma estabilidade obtida pela consolidada cirurgia de osteotomia sagital em aumentos mais moderados em períodos de até 36 meses. Para a outra indicação, desobstrução das vias aéreas superiores em recém-nascidos com sequência de Pierre Robin ou síndromes que afetam o tamanho da mandíbula as evidências se baseiam em revisões sistemáticas de estudos observacionais em que se avaliam desfechos clínicos antes e após a cirurgia. Esses estudos justificam-se pela inexistência de tecnologias ou procedimentos médicos que possam substituir a distração osteogênica mandibular nesse contexto e pela gravidade da situação clínica, que envolve a obstrução das vias aéreas em recém-nascidos. A relação de custo-efetividade incremental quando se comparam a distração osteogênica mandibular e a osteotomia sagital bilateral em situações em que aumentos maiores que 10 mm são necessários é bastante alta e dependente do custo do distrator osteogênico. Os custos da distração osteogênica mandibular nos casos de obstrução das vias aéreas superiores em recém-nascidos são mais altos que a traqueostomia no primeiro ano, mas projeta-se uma diminuição nos anos subsequentes à cirurgia, com manutenção dos gastos para os pacientes traqueostomizados.

8. RECOMENDAÇÃO INICIAL DA CONITEC

Os membros da CONITEC presentes no plenário no dia 03/10/2018 durante a 71ª reunião ordinária da Comissão decidiram por unanimidade e de forma preliminar recomendar a não incorporação do distrator osteogênico ao SUS, entendendo ser o valor desse equipamento médico de uso único bastante elevado, gerando razão de custo-efetividade incremental desfavorável.

9. CONSULTA PÚBLICA

A Consulta Pública nº 62 foi realizada entre os dias 16/10/2018 a 05/11/2018. Foram recebidas 298 contribuições, sendo 31 pelo formulário para contribuições técnico-científicas e 267 pelo formulário para contribuições sobre experiência ou opinião de pacientes, familiares, amigos ou cuidadores de pacientes, profissionais de saúde ou pessoas interessadas no tema.



Foram consideradas apenas as contribuições encaminhadas no período estipulado e por meio do site da CONITEC, em formulário próprio.

O formulário de contribuições técnico-científicas é composto por duas partes, a primeira sobre as características do participante, e a segunda, sobre a contribuição propriamente dita, acerca do relatório em consulta, estruturada com cinco perguntas sobre: (1) a recomendação preliminar da CONITEC, (2) as evidências clínicas, (3) a avaliação econômica, (4) o impacto orçamentário, e (5) outras contribuições além das citadas.

O formulário de experiência ou opinião é composto por duas partes, a primeira sobre as características do participante, e a segunda, sobre a contribuição propriamente dita, acerca do relatório em consulta, que esta estruturada em três blocos de perguntas com o objetivo de conhecer a opinião do participante sobre: (1) a recomendação preliminar da CONITEC, (2) a experiência prévia com o medicamento em análise e (3) a experiência prévia com outros medicamentos para tratar a doença em questão.

As características dos participantes foram quantificadas e estratificadas de acordo com os respectivos formulários. As contribuições foram quantitativamente e qualitativamente avaliadas, considerando as seguintes etapas: a) leitura de todas as contribuições, b) identificação e categorização das ideias centrais, e c) discussão acerca das contribuições. A seguir, é apresentado um resumo da análise das contribuições recebidas. O conteúdo integral das contribuições se encontra disponível na página da CONITEC (<http://conitec.gov.br/index.php/consultas-publicas>).

CONTRIBUIÇÕES TÉCNICO-CIENTÍFICAS

Das 31 contribuições recebidas de cunho técnico-científico, 9 foram excluídas por se tratarem de temas diferentes ou por não conterem informações (em branco), restando 22 contribuições que foram avaliadas. Somente os resultados dessas 22 contribuições foram sistematizados e serão apresentados a seguir.



Perfil dos participantes

O perfil dos participantes será apresentado nas Tabelas a seguir.

Tabela 10 – Contribuições técnico-científicas da consulta pública nº 62 de acordo com a origem.

Característica	Número absoluto (%)
Pessoa física	30 (97%)
Paciente	0
Familiar, amigo ou cuidador de paciente	5 (16%)
Profissional de saúde	22 (71%)
Interessado no tema	3 (10%)
Pessoa jurídica	1 (3%)

Tabela 11 - Características demográficas de todos os participantes da consulta pública nº 62 recuperadas por meio do formulário técnico científico.

Característica	Número absoluto (%)	População do Brasil (%)
Sexo		
Feminino	15 (50%)	51%
Masculino	15 (50%)	49%
Cor ou Etnia		
Amarelo	1 (3%)	1,1%
Branco	21 (70%)	47,5%
Indígena	0	0,42%
Pardo	6 (20%)	43,2%
Preto	2 (7%)	7,52%
Faixa etária		
Menor de 18 anos	2 (7%)	29%



18 a 24 anos	6 (20%)	8%
25 a 39 anos	12 (40%)	24%
40 a 59 anos	8 (27%)	25%
60 anos ou mais	2 (7%)	14%
Regiões brasileiras		
Norte	3 (10%)	8,7%
Nordeste	5 (16%)	27,1%
Sul	10 (32%)	14,2%
Sudeste	12 (39%)	42%
Centro-Oeste	1 (3%)	7,7%

Avaliação geral da recomendação preliminar da CONITEC

Das 22 contribuições avaliadas de cunho técnico-científico, 18 (82%) discordaram totalmente e 4 (18%) discordaram parcialmente da recomendação preliminar da CONITEC e apresentaram argumentos categorizados a seguir. Os argumentos apresentados para justificar a discordância total ou parcial podem ser categorizados nos que se referem à eficácia/efetividade da tecnologia em avaliação, à existência de consensos de prática clínica em que se preconiza a utilização da tecnologia para as indicações avaliadas, à difusão da tecnologia em hospitais e centros de pesquisa brasileiros; à falta de tecnologias substitutivas nos casos indicados de Sequência de Pierre Robin e outras doenças congênitas com comprometimento das vias aéreas e aos piores prognóstico, desenvolvimento global, qualidade de vida e maiores custos associados aos recém-nascidos e crianças que são submetidas à traqueostomia. Essas ideias centrais serão detalhadas e desenvolvidas nas seções seguintes.

Evidência Clínica

Das 22 contribuições recebidas de cunho técnico-científico, 15 responderam sim para contribuir com aspectos relacionados às evidências clínicas sobre o distrator osteogênico mandibular para casos selecionados de Sequência de Pierre Robin ou síndromes com



comprometimento grave do tamanho da mandíbula associado a sofrimento respiratório devido à glossoptose, apneia e dificuldade ou impossibilidade de alimentação por via oral. Todas apresentaram argumentação técnico-científica contrárias à recomendação preliminar da CONITEC e se basearam nos seguintes fundamentos:

Eficácia/Efetividade:

Novas evidências submetidas constituem-se de relatos de séries de casos, estudos observacionais retrospectivos, opiniões de especialistas e revisão opinativa. Assim foram submetidos 9 estudos, de forma que em 3 deles, publicados principalmente por cirurgiões brasileiros, relatam-se, de forma retrospectiva ou como relatos de séries de casos clínicos, a utilização da distração mandibular osteogênica bilateral em recém-nascidos, crianças ou adolescentes diagnosticados com Sequência de Pierre Robin isolada ou associada a síndromes e com dificuldades respiratória e alimentar severas (n=53) (Freitas *et al.*, 2011; Freitas *et al.*, 2010; Costa *et al.*, 2017). Em outros 5 estudos, com as mesmas características dos citados, a distração osteogênica mandibular foi utilizada em recém-nascidos, crianças e adultos diagnosticados com Síndrome de Hanhart, microssomia craniofacial incluindo casos de Síndrome de Goldenhar, Síndrome auriculocondilar e Síndrome de Nager. Nesses estudos os recém-nascidos apresentavam dificuldade respiratória severa (Postai *et al.*, 2009; Maricevich *et al.*, 2014; Freitas *et al.*, 2008-A; Freitas *et al.*, 2007; Alonso; Freitas, 2002). Esses oito estudos foram realizados no Brasil principalmente nas regiões Sudeste e Sul e os desfechos relatados favorecem o uso do distrator osteogênico mandibular, à medida em que possibilitou a reabilitação global dos indivíduos tanto do ponto de vista funcional, incluindo respiração (decanulação), deglutição, alimentação, ganho ponderal, desenvolvimento da fala, quanto da deformidade mandibular. Em um último estudo, classificado como revisão opinativa, Rachmiel e Shilo (2015) preconizam o uso da distração osteogênica mandibular em casos selecionados de recém-nascidos com Sequência de Pierre Robin e Síndrome de Treacher Collins com sofrimento respiratório devido à glossoptose. Em outras contribuições cirurgiões relatam, sem, entretanto, submeterem literatura comprobatória, que já realizaram o procedimento para as indicações propostas nesse parecer, com bons resultados.

Vale registrar que, em uma das contribuições, menciona-se a existência de procedimento investigativo no Ministério Público Federal do estado de Goiás que inclui pareceres do Instituto Nacional de Traumatologia e Ortopedia (INTO), da Universidade Federal de Goiás (UFG) e da Associação Brasileira de Cirurgia Crânio Maxilo-Facial (ABCCMF) a respeito do uso da distração osteogênica para as indicações investigadas nesse parecer. Os pareceres, apesar de favoráveis à utilização do procedimento, apontam para a necessidade da elaboração de protocolos nos quais se oriente a prática médica.

Em dois estudos, dos quais um já foi citado anteriormente, relatam-se as taxas de complicações relacionadas ao procedimento (Freitas *et al.*, 2008-B; Maricevich *et al.*, 2014). Os



problemas mais comumente descritos são aqueles já mencionados no relatório tais como complicações relacionadas ao desenvolvimento dentário, formação de cicatrizes hipertróficas, infecção, problemas relacionados ao nervo alveolar inferior e estruturas enervadas. Mencionam-se que esses problemas, em sua maioria, se resolvem sem a necessidade de internações hospitalares e que o procedimento é considerado seguro.

A existência de consensos/protocolos de prática clínica

Uma das principais contribuições foi proveniente do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo- Centrinho (HRAC). A instituição apresentou no documento as indicações clínicas para as quais a distração osteogênica mandibular é utilizada nesse centro, a seguir transcritas: *“Diferentes condições clínicas, na sua maioria sindrômicas, cursam com deformidades craniofaciais em que os métodos convencionais de tratamento não são capazes de corrigir funcional e esteticamente. A aplicação clínica da distração osteogênica baseia-se essencialmente na correção das grandes hipoplasias dos segmentos faciais, especialmente as hipoplasias mandibulares e as do terço médio da face. Diferentes condições clínicas, no entanto, cursam com micrognatia. Mais de 400 síndromes apresentam a hipoplasia mandibular como um de seus achados clínicos. A micrognatia cursa, especialmente no período neonatal, com comprometimento respiratório e alimentar graves. A osteotomia mandibular (cirurgia ortognática) não é uma alternativa de tratamento uma vez que não está indicada em ossos faciais em crescimento. A única alternativa à Distração Osteogênica de Mandíbula (DOM) nessas situações, é a traqueostomia associada em grande parte das vezes à gastrostomia. As alterações relacionadas à micrognatia, ou seja, hipoplasia grave da mandíbula ocorrem em três situações principais: Sequência de Robin (SR); Síndrome de Treacher Collins e Espectro Oculauriculovertebral (EOAV) ou Microssomia Craniofacial. ”*

Cita também a existência de protocolo clínico de tratamento utilizado na Instituição para os casos indicados, da seguinte forma: *“Os casos são selecionados e a indicação acontece apenas naquelas situações em que as medidas conservadoras falham. **O protocolo de tratamento do hospital** prioriza o uso de cânula nasofaríngea e medidas como fonoterapia para o tratamento de crianças com SR especialmente, que apresentem desconforto respiratório e disfagia. Naqueles casos em que essas medidas não são suficientes, a DOM é considerada. A traqueostomia associada muitas vezes à gastrostomia é realizada quando não se dispõe do distrator uma vez que a aquisição é realizada pela Universidade de São Paulo por meio de licitação sem a participação do Sistema Único de Saúde no custeio dessa tecnologia. A experiência da equipe multidisciplinar constituída de cirurgiões, pediatras, intensivistas, otorrinolaringologistas, fonoaudiólogos e enfermeiros converge com a indicação da DOM em preferência à traqueostomia nessas condições. ”*

Finalmente, submetem uma recomendação a respeito da incorporação desse equipamento: *“recomendamos a incorporação dos distratores mandibulares para o tratamento*



de pacientes com hipoplasias mandibulares graves, associada à definição de protocolo clínico e de regulação, a definição de centros de referências nacionais e estaduais para tratamento, o acesso ordenado via regulação nacional e estadual, bem como o apoio técnico à regulação pelos núcleos internos de regulação dos serviços credenciados. ”

Difusão da tecnologia em hospitais e centros de pesquisa brasileiros e inexistência de tecnologias substitutivas nos casos indicados de Sequência de Pierre Robin e outras doenças congênitas com comprometimento das vias aéreas e indicação para traqueostomia.

Os estudos submetidos e já apresentados acima, na discussão sobre efetividade, foram realizados em hospitais brasileiros, principalmente no eixo sul-sudeste do país, destacando-se os estados do Paraná e São Paulo. Dessa forma, argumentou-se que já há uma certa difusão da tecnologia no país e que há centros nos quais esse procedimento é incorporado ao algoritmo de tratamento de recém-nascido e crianças com Sequência de Pierre Robin ou Síndromes que afetam o tamanho da mandíbula e causam sofrimento respiratório, após falha de medidas conservadoras utilizadas para restabelecer a respiração normal. Outro argumento presente no parecer elaborado pelo HRAC e também subsidiado por alguns dos estudos apresentados acima é que as cirurgias ortognáticas com osteotomia são contraindicadas em recém-nascidos, diferentemente da distração osteogênica, e procedimentos como a glossopexia não resolvem a disfagia e a severa hipoplasia óssea comum nesses indivíduos. Apesar de não haver estudos de comparação direta entre essas tecnologias, a distração osteogênica tem sido empregada como procedimento de eleição em casos selecionados, evitando ou diminuindo o tempo de traqueostomia e corrigindo a disfagia e a hipoplasia óssea. Em estudo observacional prospectivo Siqueira e colaboradores (2017) acompanharam, durante 14 anos, 50 indivíduos com Sequência de Pierre Robin e observaram que 52% permaneciam, na adolescência, com indicação para a cirurgia de correção mandibular e 20% se submeteram de fato a algum procedimento cirúrgico para a correção dessas deformidades.

Avaliação Econômica

Das 22 contribuições avaliadas de cunho técnico-científico, seis responderam sim para contribuir com aspectos relacionados à avaliação econômica, entretanto, apenas em duas das contribuições apresentaram-se argumentações consideradas válidas. Todas as contribuições foram discordantes recomendação inicial apresentada no relatório da CONITEC. Os fundamentos apresentados nessas duas contribuições serão apresentados a seguir:



Custos da morbidade relacionada à traqueostomia e tempo de traqueostomia e de outros procedimentos médicos em recém-nascidos que não fazem a correção da hipoplasia mandibular

Nas duas contribuições avaliadas, critica-se o horizonte temporal utilizado na avaliação econômica parcial elaborada para demonstrar as diferenças de custos entre cenários com a introdução da cirurgia de distração osteogênica mandibular e sem a utilização dessa tecnologia, com traqueostomia sendo o procedimento de eleição. Nesse estudo o horizonte temporal escolhido foi de um ano, enquanto, nas contribuições afirma-se que, em prazos maiores, os custos relacionados à traqueostomia certamente superariam o custo inicial do tratamento de distração mandibular. No parecer técnico submetido pelo HRAC os elaboradores apresentam a experiência profissional com os casos de recém-nascidos tratados no hospital, descrevendo a frequente necessidade de traqueostomia e o uso prolongado de sondas alimentares ou gastrostomia. Relatam que a traqueostomia é frequentemente associada à morbidade, alto custo e mortalidade ocasional.

Em relação à segunda contribuição, também se trata de relato de experiência profissional em hospital onde se realiza o procedimento. O aspecto abordado refere-se os custos relacionados às cirurgias ortognáticas necessárias em longo prazo para corrigir a deformidade mandibular desses pacientes. Copia-se na íntegra: *“de acordo com trabalhos de investigação realizados em nossa instituição, muitos pacientes que são tratados inicialmente por protocolos conservadores, quando acompanhados em longo prazo continuam apresentado em 80% dos casos micrognatia suave, moderada e acentuada. Em torno de 20% apresentaram micrognatia severa necessitando posteriormente de cirurgias ortognáticas (osteotomia sagital bilateral) **o que eleva o custo do tratamento da mesma forma numa fase mais tardia.** O custo efetividade quando avaliada a cirurgia de distração mandibular com indicações precisas na fase neonatal será muito maior, principalmente do ponto de vista da qualidade de vida após o procedimento.”*

Análise de Impacto Orçamentário

Das 22 contribuições recebidas de cunho técnico-científico, 8 responderam sim para contribuir com aspectos relacionados ao impacto orçamentário, considerando-se apenas cinco para apresentação nesse parecer por trazerem argumentação técnica. Todas as cinco contribuições apresentaram argumentação discordantes à apresentada no relatório da CONITEC. As contribuições avaliadas, apresentaram os seguintes argumentos discordantes (ideias centrais):

1. O valor dos distratores considerados na avaliação de impacto orçamentário é compatível com os valores dos equipamentos importados, mas existem equipamentos produzidos no Brasil e com preços mais acessíveis. Nas contribuições



não se anexa, entretanto, comprovante ou registro de compra comprobatório e que pudesse validar essa afirmação. Registra-se uma das contribuições: *“O custo unitário por distrator está superestimado, provavelmente por ser baseado em um curto período de indisponibilidade do único fornecedor nacional, aonde eram utilizados somente os caros distratores importados (custo atual R\$ 29.135,92 por par da Jhonson & Jhonson versus R\$ 17.360,00 da Improtec).”*

2. Não se considerou na avaliação outros gastos em saúde além dos relacionados à aquisição dos distratores mandibulares. Assim segue a contribuição na íntegra: *“consideração não apenas o valor do distrair em si, mas sim o valor do tratamento desses pacientes quando não colocam o distrair, visto que esses pacientes ficam mais tempo internados, necessitam de ventilação assistida, podem necessitar de traqueostomia, tem dificuldades alimentares VO, que levam ao uso de sondas ou gastrostomia (com suas possíveis complicações e custos de manutenção) para nutrição e correm maior risco de apneia e infecção hospitalar pelo maior tempo de internação.”*
3. O número de pacientes considerados elegíveis para receber o tratamento estaria superestimado. Relata-se a experiência do estado do Rio Grande do Sul: *“O número de pacientes submetidos ao tratamento cirúrgico pode estar superestimado. Como cirurgião que realiza este procedimento rotineiramente em uma Fundação (FUNDEF) com uma área de abrangência na Secretaria Estadual de Saúde do Rio Grande do Sul em uma abrangência de 13 das 19 Coordenadorias Estaduais de Saúde, foram realizados pelos SUS 20 procedimentos entre os anos de 2011 e novembro de 2018, perfazendo uma média de 2,5 pacientes/ano, média bem distante dos 17 pacientes ano referentes à um grande centro, média inclusive muito maior que o de 12 pacientes em outro grande centro. Desta forma o número de procedimentos poderá estar superestimado, ao se extrapolar à toda capacidade instalada.”*

Contribuições além dos aspectos citados

Das 22 contribuições recebidas de cunho técnico-científico, sete responderam sim para contribuir com aspectos além dos citados, entretanto, em nenhuma delas se identificaram aspectos técnicos ou científicos relevantes que pudessem contribuir para a discussão sobre a recomendação inicial da CONITEC.



CONTRIBUIÇÕES SOBRE EXPERIÊNCIA OU OPINIÃO

Das 267 contribuições recebidas sobre experiência com a tecnologia ou opinião sobre a incorporação, 96 foram excluídas por se tratarem de duplicações de outras contribuições, restando 171 contribuições que foram avaliadas.

Perfil dos participantes

Todas as contribuições partiram de pessoa física, sendo que 80% representam profissionais de saúde e familiares, amigos ou cuidadores de pacientes. O restante foi enviado por pacientes e interessados no tema. A maioria das contribuições partiu de mulheres (77%), brancas (74%), entre 25 e 59 anos (83%), da região Sul e Sudeste (82%). As representações de pacientes participaram em 45% das vezes e profissionais de saúde e sociedades médicas em 40% das vezes.

Tabela 12 – Contribuições de experiência ou opinião da consulta pública nº 62 de acordo com a origem.

Característica	Número absoluto (%)
Pessoa física	267 (100%)
Paciente	10 (4%)
Familiar, amigo ou cuidador de paciente	110 (41%)
Profissional de saúde	106 (40%)
Interessado no tema	41 (15%)
Pessoa jurídica	-



Tabela 13 - Características demográficas de todos os participantes da consulta pública nº 62 por meio do formulário de experiência ou opinião.

Característica	Número absoluto (%)	População do Brasil (%)
Sexo		
Feminino	205 (77%)	51%
Masculino	62 (23%)	49%
Cor ou Etnia		
Amarelo	7 (3%)	1,1%
Branco	198 (74%)	47,5%
Indígena	-	0,42%
Pardo	56 (21%)	43,2%
Preto	6 (2%)	7,52%
Faixa etária		
Menor de 18 anos	11 (4%)	29%
18 a 24 anos	28 (10%)	8%
25 a 39 anos	127 (48%)	24%
40 a 59 anos	94 (36%)	25%
60 anos ou mais	7 (3%)	14%
Regiões brasileiras		
Norte	16 (6%)	8,7%
Nordeste	25 (9%)	27,1%
Sul	90 (34%)	14,2%
Sudeste	128 (48%)	42%
Centro-oeste	8 (3%)	7,7%



Avaliação geral da recomendação preliminar da CONITEC

Das 267 contribuições recebidas sobre opinião ou experiência com a tecnologia, 252 discordaram totalmente, 4 discordaram parcialmente, 10 concordaram totalmente e 1 concordaram parcialmente da recomendação preliminar da CONITEC.

As argumentações que acompanham as contribuições discordantes abordam vários aspectos das doenças para as quais o distrator está indicado, ressaltando a complexidade e os impactos funcional, psicossocial e em qualidade de vida associados à história natural dessas doenças. Trazem também aspectos relacionados à efetividade e segurança desse equipamento e do procedimento de distração mandibular, assim como o impacto positivo dessa intervenção em importantes desfechos em saúde principalmente relacionados à reabilitação global dos pacientes, em um contexto em que estão contraindicadas as cirurgias ortognáticas com osteotomia em recém-nascidos e crianças. Pontuam-se as ideias centrais das argumentações:

1. A utilização do equipamento de distração osteogênica para a ampliação da mandíbula em casos selecionados é bem estabelecida, com resultados robustos e satisfatórios. Esse equipamento é efetivo e, por isso, considerado essencial ao tratamento de doenças que se caracterizam por deficiências esqueléticas, associadas a problemas funcionais e de desenvolvimento. Destaca-se a utilização essencial em casos com grandes deformidades ósseas.
2. Nos casos das deformidades congênitas como na Sequência de Pierre Robin e Síndromes que afetam o tamanho mandibular, a cirurgia ortognática com osteotomia está contraindicada, o que reduz ou inviabiliza as opções de intervenções cirúrgicas nos casos para os quais as medidas conservadoras não são suficientes para manter os parâmetros respiratórios normais.
3. Nos casos em que há deformidades severas da mandíbula, a distração osteogênica elimina a discrepância esquelética de forma mais fisiológica do que as osteotomias e está associada a melhor prognóstico, com menos recidivas. A distração também pode ser utilizada para preparação da mandíbula atrófica/hipoplásica para a cirurgia ortognática.
4. Nessas condições há um comprometimento do funcionamento normal dos sistemas respiratório e estomatognático, com hipóxia, necessidade de intubação, traqueostomia, instalação de sonda alimentar, internação hospitalar em UTI. As características esqueléticas e os frequentes procedimentos necessários à manutenção da vida dos pacientes comprometem-lhes o desenvolvimento global, dificultam a integração social e o desenvolvimento psicossocial associado à linguagem e à aparência (dimensões mais equilibradas dos ossos faciais). Há um importante impacto na qualidade de vida dos pacientes e cuidadores.
5. A intervenção com o distrator osteogênico mandibular evita ou diminui o tempo de traqueostomia e permite que outros aspectos relacionados a deformidades severas



da mandíbula, citados acima, possam se desenvolver. O equipamento é inacessível à maioria da população devido ao alto custo.

6. É possível que, para o sistema de saúde, os custos diretos relacionados à aquisição dos distratores mandibulares sejam compensados em longo prazo pelas intervenções em saúde evitadas devido ao aumento mandibular, à normalização da função respiratória e à reabilitação dos indivíduos.

Nas quatro contribuições com declarações de discordância parcial reforçam-se as ideias centrais das argumentações detalhadas e discutidas acima. Relatam-se duas delas na íntegra: **1.** *“A utilização do distrator osteogênico para a mandíbula é o único tratamento eficiente para deformidades congênitas (Pierre Robin, Treacher Collins, Microsomia Hemifacial), portanto deve ser incorporado pois não há substituto (o paciente ficará sem tratamento algum). A comparação do distrator com a osteotomia sagital está adequada. Portanto, o uso do distrator em deformidades congênitas nas crianças é essencial.”*; **2.** *“Deformidades congênitas como Sequência de Pierre Robin (tema de minha tese de doutorado pela USP), síndrome de Treacher Collins, Apert e Crouzon, além de inúmeras craniossinostoses, ficam desassistidas de tratamento adequado. O custo humano e social é imensurável já que esses pacientes perdem a oportunidade de se tornarem produtivos na vida adulta. Realmente o uso dos distratores para questões ortodônticas na população adulta ficaria em uma indicação secundária.”*

Nas contribuições em que se declarou concordância total ou parcial não se identificaram argumentos compatíveis com a opinião concordante.

Experiência profissional

Das 267 contribuições recebidas no formulário de opinião ou experiência, 83 foram contribuições de experiência profissional, sendo que todas apresentaram argumentações positivas e/ou negativas. Destas, 79 tiveram alguma experiência com o equipamento avaliado e 45 tiveram alguma experiência com o equipamento avaliado e com outras tecnologias. As argumentações apresentadas foram:

Argumentações Positivas

1. Distrator osteogênico mandibular

- Resultados previsíveis, possibilita reabilitação orofacial, melhora funcional
- Melhora na qualidade de vida/benefícios psicológicos/socialização
- Possibilita tratamento durante a infância/melhora prognóstico de cirurgias ortognáticas futuras para discrepâncias esqueléticas graves
- Remodelação óssea e de tecidos moles
- Opção de escolha/bons resultados em deformidades severas
- Melhor recuperação pós-operatório/redução de tempo de UTI



- Evita complicações mais dispendiosas/traqueostomia/procedimentos mais complexos
- Não há necessidade de enxertos ósseos
- Baixa morbidade

2. Traqueostomia

- Melhora do desconforto/desobstrução respiratória
- Mantém a funcionalidade das vias aéreas em casos mais severos
- Custo inicial mais baixo

3. Cirurgias ortognáticas tradicionais/outras técnicas cirúrgicas sem distrator/enxerto ósseo

- Menor custo

Argumentações Negativas

1. Distrator osteogênico mandibular

- Custo do equipamento
- Há casos de recidivas
- Avanço final insuficiente
- Dificuldade de determinação do vetor de distração
- Infecções
- Alterações na dentição/perda de dentes
- Cicatrizes
- Lesão do nervo alveolar
- Necessidade de treinamento para uso (incluindo familiares)
- Adaptação (emocional, sono, higienização, alimentação)
- Deslocamento do equipamento

2. Traqueostomia

- Procedimento paliativo; prolonga o tempo e custos de tratamento
- Morbidade elevada
- Afeta a qualidade de vida/necessidade de cuidador (higienização, secreção).
- Afeta o desenvolvimento da fala
- Risco de infecção
- Risco de deslocamento
- Risco de obstrução
- Evolução para óbito



3. Cirurgias ortognáticas tradicionais/outras técnicas cirúrgicas sem distrator/enxerto ósseo

- Não está indicado em recém-nascidos (maior tempo com a deformidade óssea)
- Resultados aquém dos esperados/insatisfatórios
- Procedimentos mais complexos/retirada de enxertos
- Avanços ósseos limitados/não tem efeito nas hipoplasias severas/lesão nos tecidos moles
- Maior risco de recidivas
- Maior morbidade

Experiência como paciente

Das 267 contribuições recebidas no formulário de opinião ou experiência, 7 foram contribuições de experiência de paciente, sendo que nenhuma compatível com a situação de paciente, provavelmente porque a cirurgia é realizada com maior frequência em recém-nascidos e crianças.

Experiência como cuidador ou responsável

Das 267 contribuições recebidas no formulário de opinião ou experiência, 30 foram contribuições de pessoas que se declararam como cuidadores ou responsáveis, sendo que todas foram avaliadas. Destas, 23 tiveram alguma experiência com o equipamento avaliado, 10 tiveram alguma experiência com o equipamento avaliado e com outras tecnologias, e 7 tiveram alguma experiência apenas com outras tecnologias. As argumentações apresentadas foram:

Argumentações Positivas

1. Distrator osteogênico mandibular

- O equipamento é fundamental no tratamento das doenças, que em sua maioria de natureza sindrômica, afetando o formato dos ossos da face, tem profundo impacto na formação e desenvolvimento dos indivíduos além de causar problemas funcionais e traumas psicológicos graves;
- O uso do equipamento possibilitou a respiração sem apneia (sem saturação de oxigênio), força em deglutição, ganho de peso, crescimento, alimentação por via oral e melhora na aparência (aumento da mandíbula);
- Melhora na qualidade de vida;
- Possibilitou a correção da mandíbula;
- Evitou ou possibilitou a retirada precoce da traqueostomia;



- Possibilitou a retirada da gastrostomia;
- Reabilitação rápida

2. Aspiradores

- A passagem de ar fica maior e se respira melhor

3. Cânula nasofaríngea

- Procedimento menos invasivo;
- Melhora em casos menos severos de micrognatia em Sequência de Pierre Robin;
- Não houve necessidade de distração osteogênica mandibular e nem traqueostomia.

4. Traqueostomia

- “Tratamento da obstrução respiratória com risco eminente de morte”*

Argumentações Negativas

1. Distrator osteogênico mandibular

- Difícil acesso ao equipamento
- Custo alto do equipamento
- A cirurgia é um pouco agressiva
- Cicatrizes hipertróficas
- Necessária contenção para evitar que as crianças danifiquem o equipamento
- Desconfortáveis e de difícil manuseio

2. Cânula nasofaríngea

- “Em muitos casos, a cânula não é eficiente e o paciente continua tem episódios de apneia”;*
- “SOMENTE DÁ CERTO EM GRAUS LEVES DE SEQUENCIA DE PIERRE ROBIN GRAU SEVERO SO SE CORRIGE COM DISTRAÇÃO DE MANDIBULA”.*

3. Traqueostomia

- “Limitador de qualidade de vida, muito invasivo”*



AVALIAÇÃO GLOBAL DAS CONTRIBUIÇÕES

Após apreciação das contribuições encaminhadas pela Consulta Pública o plenário considerou que apesar do alto custo do equipamento e impossibilidade de reutilização, os benefícios, principalmente para recém-nascidos e crianças com Sequência de Pierre Robin ou Síndromes congênicas, quanto a resguardar esses indivíduos de procedimentos como a traqueostomia ou minimizar o tempo em que permanecem traqueostomizados e a possibilitar a retirada de sonda gástrica foram considerados de extrema relevância em um contexto em que não há tecnologias substitutivas. As contribuições, em sua maioria de profissionais de saúde com experiência no uso do distrator, reforçaram esses aspectos, apresentando as séries de casos submetidos à distração osteogênica mandibular no país. O procedimento foi associado à uma melhora na reabilitação global desses indivíduos, em aspectos fundamentais à saúde e qualidade de vida tais como desenvolvimento do aparelho respiratório e estomatognático, socialização, desenvolvimento normal da fala, da alimentação com ganho de peso e crescimento dentro da normalidade e da autoestima. Com relação aos custos, as contribuições dos profissionais de saúde apontam para uma recuperação dos custos iniciais em longo prazo, uma vez que a maior frequência e custos dos procedimentos médicos envolvidos no suporte dos indivíduos traqueostomizados e que muitas vezes são submetidos, na fase adulta, a cirurgias ortognáticas são expressivos.

Sendo assim, o plenário da CONITEC entendeu que houve argumentação suficiente para alterar a recomendação preliminar.

10.RECOMENDAÇÃO FINAL DA CONITEC

Aos 07 (sete) dias do mês de fevereiro de 2019, reuniu-se a Comissão Nacional de Incorporação de Tecnologias no SUS – CONITEC, regulamentada pelo Decreto nº 7.646, de 21 de dezembro de 2011, e os membros presentes deliberaram por unanimidade recomendar a incorporação do distrator osteogênico para tratamento de deformidades crânio e bucomaxilofaciais congênicas ou adquiridas, mediante negociação de preço e conforme Protocolo do Ministério da Saúde. Assinou-se o registro de deliberação nº 419/2019, pela incorporação da tecnologia.



11. DECISÃO

PORTARIA Nº 6, DE 18 DE FEVEREIRO DE 2019

Torna pública a decisão de incorporar o distrator osteogênico para tratamento de deformidades crânio e buco-maxilo-faciais congênitas ou adquiridas, no âmbito do Sistema Único de Saúde - SUS.

A SECRETÁRIA DE CIÊNCIA, TECNOLOGIA E INSUMOS ESTRATÉGICOS - SUBSTITUTA, DO MINISTÉRIO DA SAÚDE no uso de suas atribuições legais e com base nos termos dos art. 20 e art. 23 do Decreto 7.646, de 21 de dezembro de 2011, resolve:

Art. 1º Fica incorporado o distrator osteogênico para tratamento de deformidades crânio e buco-maxilo-faciais congênitas ou adquiridas, mediante negociação de preço e conforme Protocolo do Ministério da Saúde, no âmbito do Sistema Único de Saúde - SUS.

Art. 2º Conforme determina o art. 25 do Decreto 7.646/2011, o prazo máximo para efetivar a oferta ao SUS é de cento e oitenta dias.

Art. 3º O relatório de recomendação da Comissão Nacional de Incorporação de Tecnologias no SUS (CONITEC) sobre essa tecnologia estará disponível no endereço eletrônico: <http://conitec.gov.br/>.

Art. 4º Esta Portaria entra em vigor na data de sua publicação.

VANIA CRISTINA CANUTO SANTOS

Publicada no Diário Oficial da União (DOU) nº 35, no dia 19/02/2019, seção 1, página 51.



12. REFERÊNCIAS

A systematic review on the outcome of mandibular distraction osteogenesis in infants suffering Robin sequence.,"/pubmed/23722462","**Paes** EC, Mink van der Molen AB, Muradin MS, Speleman L, Sloot F, Kon M, Breugem CC.", "Clin Oral Investig. 2013 Nov 17(8):1807-20. doi: 10.1007/s00784-013-0998-z

Bilateral mandibular distraction in micrognathism or hypoplasia of mandible, hazrat fatemeh hospital. **Mohammad-Esmail Hassani**; Hamid Karimi; Hosein Hassani; Ali Hassan Journal of Acute Disease Volume 3, Issue 4, 2014, Pages 296-299 open access.

Bilateral Sagittal Split Ramus Osteotomy Versus Distraction Osteogenesis for Advancement of the Retrognathic Mandible.,"/pubmed/25857283","**Al-Moraissi EA, Ellis E 3rd.**", "J Oral Maxillofac Surg. 2015 Aug 73(8):1564-74. doi: 10.1016/j.joms.2015.01.003

Complications of mandibular distraction osteogenesis for congenital deformities: a systematic review of the literature and proposal of a new classification for complications.,"/pubmed/25148931","**Verlinden** CR, van de Vijfeijken SE, Jansma EP, Becking AG, Swennen GR.", "Int J Oral Maxillofac Surg. 2015 Jan 44(1):37-43. doi: 10.1016/j.ijom.2014.07.009.

Complications of mandibular distraction osteogenesis for developmental deformities: a systematic review of the literature.,"/pubmed/25442740","**Verlinden** CR, van de Vijfeijken SE, Tuinzing DB, Jansma EP, Becking AG, Swennen GR.", "Int J Oral Maxillofac Surg. 2015 Jan 44(1):44-9. doi: 10.1016/j.ijom.2014.09.007

Distraction osteogenesis as a treatment of obstructive sleep apnea syndrome: A systematic review.,"/pubmed/27603361","**Tsui** WK, Yang Y, Cheung LK, Leung YY.", "Medicine (Baltimore). 2016 Sep 95(36):e4674. doi: 10.1097/MD.0000000000004674.

Does the Rate of Distraction or Type of Distractor Affect the Outcome of Mandibular Distraction in Children With Micrognathia?,"/pubmed/26920642","**Breik** O, Tivey D, Umapathysivam K, Anderson P.", "J Oral Maxillofac Surg. 2016 Jul 74(7):1441-53. doi: 10.1016



Feeding and reflux in children after mandibular distraction osteogenesis for micrognathia: A systematic review.,"/pubmed/27240511",**Breik O**, Umapathysivam K, Tivey D, Anderson P.",*Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2016 Jun 85:128-35. doi: 10.1016/j.ijporl.2016.03.033

Mandibular distraction osteogenesis for the management of upper airway obstruction in children with micrognathia: a systematic review.,"/pubmed/26867668",**Breik O**, Tivey D, Umapathysivam K, Anderson P.",*Int J Oral Maxillofac Surg.* 2016 Jun 45(6):769-82. doi: 10.1016/j.ijom.2016.01.009.

Mandibular advancement for adult obstructive sleep apnea: A systematic review and meta-analysis.**Noller MW**1, Guilleminault C2, Gouveia CJ3, Mack D4, Vivian C4, Abdullatif J5, Mangili S6, Liu SY3, Zaghi S7, Camacho M8. *J Craniomaxillofac Surg.* 2017 Dec;45(12):2035-2040. doi: 10.1016/j.jcms.2017.10.006

Mandibular distraction osteogenesis: a systematic review of stability and the effects on hard and soft tissues.,"/pubmed/27609710",**Rossini G**, Vinci B, Rizzo R, Pinho TM, Deregibus A.",*Int J Oral Maxillofac Surg.* 2016 Nov 45(11):1438-1444. doi: 10.1016/j.ijom.2016.08.012.

Mandibular reconstruction in the growing patient with unilateral craniofacial microsomia: a systematic review.,"/pubmed/24332589",**Pluijmers BI**, Caron CJ, Dunaway DJ, Wolvius EB, Koudstaal MJ.",*Int J Oral Maxillofac Surg.* 2014 Mar 43(3):286-95. doi: 10.1016/j.ijom.2013.11.001.

Neonates with tongue-based airway obstruction: a systematic review.,"/pubmed/21926259",**Bookman LB**, Melton KR, Pan BS, Bender PL, Chini BA, Greenberg JM, Saal HM, Taylor JA, Elluru RG.",*Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012 Jan 146(1):8-18. doi: 10.1177/0194599811421598.

Outcome Following Surgical Interventions for Micrognathia in Infants With Pierre Robin Sequence: A Systematic Review of the Literature.,"/pubmed/27414091",**Almajed A**, Viezel-Mathieu A, Gilardino MS, Flores RL, Tholpady SS.",*Cleft Palate Craniofac J.* 2017 Jan 54(1):32-42. doi: 10.1597/15-282.

Patient discomfort and other side effects after bilateral sagittal split osteotomy or distraction osteogenesis of the mandible: a randomized clinical trial.,"/pubmed/26099918",**Baas EM**, van Gemert BP, Bierenbroodspot F, Milstein DM, de Lange J.",*Int J Oral Maxillofac Surg.* 2015 Sep 44(9):1119-24. doi: 10.1016/j.ijom.



The effectiveness of mandibular distraction in improving airway obstruction in the pediatric population.,"/pubmed/24572880","**Tahiri** Y, Viesel-Mathieu A, Aldekhayel S, Lee J, Gilardino M.", "Plast Reconstr Surg. 2014 Mar 133(3):352e-359e. doi: 10.1097/01.prs.0000438049.29258.a8.

The effects of clinical factors on airway outcomes of mandibular distraction osteogenesis in children with Pierre Robin sequence.,"/pubmed/28372992","**Ren** XC, Gao ZW, Li YF, Liu Y, Ye B, Zhu SS.", "Int J Oral Maxillofac Surg. 2017 Jul 46(7):805-810. doi: 10.1016/j.ijom.

Skeletal stability after bilateral sagittal split osteotomy or distraction osteogenesis of the mandible: a randomized clinical trial. **Baas** EM1, Bierenbroodspot F2, de Lange J3. Int J Oral Maxillofac Surg. 2015 May;44(5):615-20. doi: 10.1016/j.ijom.2014.12.011

Early Distraction for Mild to Moderate Unilateral Craniofacial Microsomia: Long-Term Follow-Up, Outcomes, and Recommendations. Weichman KE1, Jacobs J, Patel P, Szpalski C, Shetye P, Grayson B, **McCarthy** JG. Plast Reconstr Surg. 2017 Apr;139(4):941e-953e. doi: 10.1097/PRS.0000000000003223.

Estudo econômico

Kohan E, Hazany S, Roostaeian J, Allam K, Head C, Wald S, Vyas R, Bradley JP. Economic advantages to a distraction decision tree model for management of neonatal upper airway obstruction. Plast Reconstr Surg. 2010 Nov;126(5):1652-64. doi: 10.1097/PRS.0b013e3181ef8e82. PubMed PMID: 20639799.

Runyan CM, Uribe-Rivera A, Karlea A, Meinzen-Derr J, Rothchild D, Saal H, Hopkin RJ, Gordon CB. Cost analysis of mandibular distraction versus tracheostomy in neonates with Pierre Robin sequence. Otolaryngol Head Neck Surg. 2014 Nov;151(5):811-8. doi: 10.1177/0194599814542759. Epub 2014 Jul 22. PubMed PMID: 25052512.

Paes EC, Fouché JJ, Muradin MS, Speleman L, Kon M, Breugem CC. Tracheostomy versus mandibular distraction osteogenesis in infants with Robin sequence: a comparative cost analysis. Br J Oral Maxillofac Surg. 2014 Mar;52(3):223-9. doi: 10.1016/j.bjoms.2013.11.017. Epub 2013 Dec 30. PubMed PMID: 24388657.

Consulta pública:

Freitas, R.; Alonso, N ; Isis Scomação ; Busato, Luciano ; Canan Junior, Lady Wilson ; Pinheiro Neto, CD. Pierre Robin Syndrome: evaluation of a large series of patients treated in two Brazilian centers. Brazilian Journal of Craniomaxillofacial Surgery, v. 14, p. 71-74, 2011.

Freitas, R.; Cruz, Gilvani A. O. ; Forte AJV ; Busato, L ; Persing J. Tessier number 30 clefts: surgical correction of a rare malformation. Brazilian Journal of Craniomaxillofacial Surgery, v. 13, p. 12-17, 2010.



Costa, Amanda Lucas da, Denise Manica, Cláudia Schweiger, Gabriel Kuhl, MD, Leo Sekine, Simone Chaves Fagondes, Marcus Vinicius Collares, Paulo Jose Cauduro Marostica. The effect of mandibular distraction osteogenesis on airway obstruction and polysomnographic parameters in children with Robin sequence. *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery*. (2017), doi: 10.1016/j.jcms.2018.05.030.

Postai, G. ; da Silva Freitas, R. ; Menacho A. M. ; Souza, J. ; Alonso, N ; Passos-Bueno MR . Síndrome de Hanhart: relato de casos. *Arquivos Catarinenses de Medicina*, v. 38, p. 278-280, 2009.

Maricevich, Pablo ; Cruz, Ricardo Lopes Da ; Alonso, Nivaldo ; Freitas, Renato Da Silva ; Basílio, Gabriel Duarte ; Braune, André ; Lessa, Edmar Soares ; Costa, Mayra Joan Marins Da ; Silva, Leizi Regina Barreto . Mandibular distraction osteogenesis: experience of the INTO-RJ. *Revista Brasileira de Cirurgia Plástica (online)*, v. 29, p. 475-485, 2014.

Freitas, R.; Souza, RT ; Calixto, EC ; Biaggi VM ; Invitti HL ; Bodanese T ; Fernandes, Heitor Augusto Dalla Rosa ; Freitas, JF ; Busato, Luciano ; Alonso, Nivaldo . Microsomia craniofacial: o espectro clínico de 163 pacientes tratados. *Brazilian Journal of Craniomaxillofacial Surgery*, v. 11, p. 89-93, 2008-A.

Freitas, R.; Alonso, Nivaldo ; Busato, Luciano ; Doro, U. ; Ferreira, Marcus . Mandible Distraction Using Internal Device: Mathematical Analysis of the Results. *Journal of Craniofacial Surgery*, v. 18, p. 1-10, 2007.

Alonso, Nivaldo ; da Silva Freitas, R. . Mandibular distraction: comparison between intraoral and extraoral devices. *Brazilian Journal of Craniomaxillofacial Surgery*, v. 5, p. 15-18, 2002.

Rachmiel A, Shilo D. The use of distraction osteogenesis in oral and maxillofacial surgery. *Ann Maxillofac Surg*. 2015;5(2):146-7.

Freitas, Renato; Tolazzi, André R. D. ; ALONSO, Nivaldo ; Cruz, Gilvani A. O. ; BUSATO, Luciano . Evaluation of Molar Teeth and Buds in Patients Submitted to Mandible Distraction: Long-Term Results. *Plastic and Reconstructive Surgery*, v. 121, p. 1335-1342, 2008-B.

Siqueira, Gabriela Leticia Clavisio; Daniela Gamba Garib; Diego Coelho Lorenzoni ; John Daskalogiannakis; Ilza Lazarini Marques; Terumi Okada Ozawa; Longitudinal behavior of facial profile in patients with isolated Pierre Robin sequence. V Simpósio Internacional de Fissuras Orofaciais e Anomalias Relacionadas, Anais, nov. 2017, ISBN 978-85-87666-12-3; ISSN 2318-5449.