

# Estenose hipertrófica do piloro com achados de anquiloglossia: relato de caso

Hypertrophic stenosis of the pylorus with findings of ankyloglossia: case report

Estenosis pilórica hipertrófica con hallazgos de anquiloglossia: reporte de caso

## RESUMO

A Estenose Pilórica Hipertrófica Infantil ou Estenose Hipertrófica de Piloro é caracterizada por um adensamento incomum dos músculos pilóricos do estômago. Já a anquiloglossia, é uma condição que altera a função da língua devido à presença de freio encurtado. Objetivo: A descrição de um caso de estenose pilórica hipertrófica infantil associado à anquiloglossia, evidenciando os achados relevantes para o diagnóstico e tratamento. Método: A coleta de dados envolveu informações relatadas pela genitora e avaliação completa feita por pediatra devidamente registrada no Conselho de Medicina. A associação das patologias, juntamente com às barreiras no acesso, principalmente organizacional, exibiu uma dificuldade diagnóstica, devido a seus sinais desencadearem uma semelhança sintomática como êmese pós-prandial e deglutição comprometida. Resultado: Após o tratamento cirúrgico evidenciou-se uma melhora considerável no quadro de desnutrição e desenvolvimento do paciente. Conclusão: A abordagem precoce, associada à atuação multiprofissional, é fundamental para o desfecho favorável do caso.

**DESCRIPTORES:** Anquiloglossia; Estenose Pilórica Hipertrófica; Píloromiotomia; Refluxo Gastroesofágico; Estenose Pilórica Hipertrófica Infantil

## ABSTRACT

Infantile Hypertrophic Pyloric Stenosis or Hypertrophic Pyloric Stenosis is characterized by an unusual thickening of the pyloric muscles of the stomach. Ankyloglossia, on the other hand, is a condition that alters the function of the tongue due to the presence of a shortened brake. Objective: The description of a case of infantile hypertrophic pyloric stenosis associated with ankyloglossia, evidencing the relevant findings for diagnosis and treatment. Method: Data collection involved information reported by the mother and a complete evaluation by a pediatrician duly registered with the Medical Council. The association of pathologies, together with barriers in access, mainly organizational, exhibited a diagnostic difficulty, due to their signs triggering a symptomatic similarity such as postprandial emesis and compromised swallowing. Result: After surgical treatment, there was a considerable improvement in the situation of malnutrition and patient development. Conclusion: The early approach, associated with multi professional action, is fundamental for the favorable outcome of the case.

**DESCRIPTORS:** Ankyloglossia; Hypertrophic Pyloric Stenosis; Pyloromyotomy; Gastroesophageal Reflux

## RESUMEN

La estenosis pilórica hipertrófica infantil o estenosis pilórica hipertrófica se caracteriza por un engrosamiento inusual de los músculos pilóricos del estómago. La anquilosis, por otro lado, es una condición que altera la función de la lengua debido a la presencia de freno acortado. Objetivo: Descripción de un caso de estenosis pilórica hipertrófica infantil asociada a anquilosis, evidenciando los hallazgos relevantes para el diagnóstico y tratamiento. Método: La recolección de datos implicó información reportada por la madre y una evaluación completa por parte de un pediatra debidamente registrado en el Consejo Médico. La asociación de patologías, junto con barreras de acceso, principalmente organizativas, exhibieron una dificultad diagnóstica, debido a que sus signos desencadenan una similitud sintomática como la emesis postprandial y la deglución comprometida. Resultado: Después del tratamiento quirúrgico, hubo una mejora considerable en la situación de desnutrición y desarrollo del paciente. Conclusión: El enfoque temprano, asociado a la acción multiprofesional, es fundamental para el resultado favorable del caso.

**DESCRIPTORES:** Anquiloglossia; Estenosis Hipertrófica del Píloro; Píloromiotomia; Reflujo Gastroesofágico

RECEBIDO EM: 04/10/2021 APROVADO EM: 13/01/2022

### Solange Cristina Costa Cotlinsky

Pediatra, membro do colegiado de Medicina do Centro Universitário Campo Real.  
ORCID: 0000-0001-7381-7511

### Wilhan Wiznieski Munari

Acadêmico do quarto período de Medicina do Centro Universitário Campo Real  
ORCID: 0000-0002-1305-656X

**Pâmella Thayse de Quadros Kassies**

Acadêmica do sexto período de Medicina do Centro Universitário Campo Real  
ORCID: 0000-0001-8330-0751

**Isabel Costa Cotlinsky**

Acadêmica do décimo segundo período de Medicina da PUC PR Londrina  
ORCID: 0000-0001-7381-7511

**Cristina Ide Fujinaga**

Fonoaudióloga, membro do programa de pós-graduação interdisciplinar desenvolvimento comunitário Universidade Estadual do Centro-Oeste/ Unicentro  
ORCID: 0000-0003-0852-1567

**INTRODUÇÃO**

**H**á uma distinção na definição de vômito e refluxo gastroesofágico (RGE), sendo a primeira definida como um conjunto de características e sinais como tosse, náusea e esforço para eliminação do conteúdo, em contraponto nos casos de RGE, no qual exibe-se a passagem do líquido de forma espontânea sem os sinais aparentes, tornando-se patológica quando afeta a qualidade de vida do neonato, como problemas de crescimento e desenvolvimento, assim como comprometimento alimentar e possíveis distúrbios respiratórios e alterações no ritmo circadiano.<sup>1</sup>

A amamentação e o refluxo gastroesofágico, seja ele fisiológico ou patológico, estão intimamente ligados, podendo apresentar sinais clássicos de escape (regurgitação) do leite materno, ou complicações maiores, cabendo uma investigação cuidadosa e efetiva; uma das principais influências desta variante são evidenciadas em lactentes com alteração no frênulo lingual, devido a função de sucção e deglutição estarem em desacordo com a normalidade nos portadores desta irregularidade, os quais acabam deglutindo uma quantidade maior de ar durante as mamadas, favorecendo o aparecimento do RGE.<sup>2</sup>

Quando o bebê possui anquiloglossia, condição que altera a função da língua devido à presença de freio encurtado, inelástico, engrossado ou posicionado à ponta da língua, a qual exibe uma fixação anormal desta na cavidade oral, em decorrência de uma membrana que deveria ter sofrido apopto-

**Um estudo recente analisou a atividade elétrica muscular supra hióidea em 235 lactentes, com base na fixação do freio lingual e demonstrou menor atividade quando o freio lingual estava fixado ao ápice da língua ou crista alveolar inferior, assim como maior atividade elétrica quando o freio estava fixado no terço médio ou carúnculas sublinguais**

se no período embrionário pode existir a baixa produção de leite materno pela mãe, devido à pega incorreta, causando fissura nas mamas, baixo ganho de peso neonatal, irritabilidade e choro excessivo do bebê, bem como engasgos, cansaço e fadiga deste aliado a movimentos compensatórios.

Um estudo recente analisou a atividade elétrica muscular supra hióidea em 235 lactentes, com base na fixação do freio lingual e demonstrou menor atividade quando o freio lingual estava fixado ao ápice da língua ou crista alveolar inferior, assim como maior atividade elétrica quando o freio estava fixado no terço médio ou carúnculas sublinguais. Portanto, de acordo com os pontos de fixação há maior ou menor restrição da mobilidade da língua e maior ou menor sintomatologia e repercussões ao binômio mãe bebê.<sup>3</sup>

A estenose pilórica hipertrófica infantil (IHPS) é caracterizada por um adensamento incomum dos músculos pilóricos do estômago, acarretando uma hipertrofia e hiperplasia das camadas musculares longitudinais e circulares do piloro, gerando oclusão da saída gástrica. Evidencia-se com mais frequência no sexo masculino, sendo a proporção no sexo masculino de 4:1.<sup>1</sup> Sua primeira exibição foi feita em 1888 pelo pediatra dinamarquês Dr. Harald Hirschsprung<sup>2</sup> em geral o quadro começa no primeiro mês de vida da criança (3 a 6 semanas) e, na maioria dos casos, antes dos três meses de idade, sua apresentação exibe vômitos em “projéteis” não biliosos, irregulares ou pós-prandial. O diagnóstico tardio, leva a complicações como a desidratação e desnutrição severa com eletrólitos séricos

desordenados e um desequilíbrio ácido-base. A IHPS é uma doença rara com sintomáticas similares a outras doenças comuns como gastroenterite, doença do refluxo gastroesofágico e alergia ao leite, sendo assim sua evidência como diagnóstico primário se torna de difícil constatação.

O exame recomendado para a detecção de estenose hipertrófica de piloro é a ultrassonografia, devido a sua alta sensibilidade, especificidade e fácil execução, ressalta-se que é uma técnica de imagem examinadora dependente. Os achados da ultrassonografia apresentam alterações quando o comprimento do canal pilórico exibe >15mm e a espessura da parede do piloro >3mm, pode incluir também ausência de esvaziamento gástrico.<sup>3</sup> O tratamento inicialmente consiste na reidratação e correção dos desequilíbrios eletrolíticos, de acordo com a gravidade dos sinais, depois de reidratado é feito o tratamento definitivo que é a piloromotomia, relato em 1912 por Ramstedt<sup>2</sup> em que o músculo pilórico é fracionado até sua camada submucosa, para alívio da compressão, permitindo que o conteúdo estomacal transcorra para o duodeno, a cirurgia pode ser aberta ou feita laparoscopicamente, ficando a critério do cirurgião. A operação tem baixa morbidade e após 4 horas da cirurgia o paciente pode retomar a alimentação.<sup>1</sup>

O uso de medicamentos, fatores perinatais e exposições ambientais modificáveis podem estar associados ao desenvolvimento de IHPS, outro ponto notável é a sua incidência familiar com o risco aumentado 20 vezes entre irmãos, herdabilidade entre gêmeos estimada em 87%, hereditariedade SNP de todo genoma 30%<sup>4</sup> e a ocorrência de forma conjunta com síndromes genéticas múltiplas demonstram uma tendência hereditária na doença.<sup>2</sup> Um fator de exposição modificável que demonstra grande influência no desenvolvimento da estenose hipertrófica de piloro é a escolha feita para a nutrição precoce, e a amamentação exclusiva com leite materno está associada a um risco menor de desenvolvimento de IHPS em comparação com a alimentação por fórmula, 5 apresentando um risco 4,6 vezes maior quando comparadas, uma explicação

plausível exibe as diferenças no volume de alimentação entre a amamentação e alimentação com mamadeira, assim como a taxa de ingestão, ambos podendo afetar a distensão e esvaziamento do estômago. Ressaltando o interesse investigativo a respeito da estenose hipertrófica de piloro e seu possível fator associado ao desenvolvimento de anquiloglossia, visando um melhor esclarecimento sobre a abordagem e tratamento precoce deste malefício.

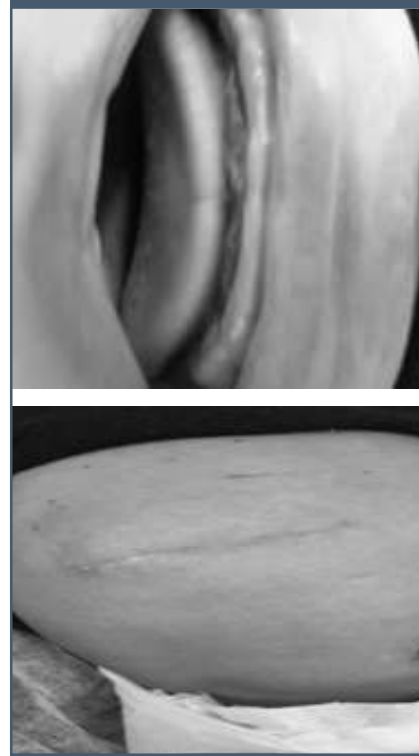
## MÉTODO

O estudo de caráter observacional e descritivo, utilizou como base os artigos publicados nas plataformas SciELO, Pubmed e revista de saúde coletiva (Barueri) para embasamento científico e contextualização; a coleta de dados envolveu 1 amostra, não probabilística por conveniência, tornando-se o critério de inclusão e exclusão não aplicável ao respectivo estudo, sendo utilizado dados de prontuário médico e exames complementares que elucidam o caso retratado, seguindo a diretriz 510/16 como normativa para elaboração da pesquisa.

## RESULTADO

J.G.M. 3 meses, com fratura clavicular pós-parto, parto vaginal, 40 semanas, peso 3.800g, altura 50 cm, PC 33, IMC 15.37, progenitora procura posto de atendimento localizado no Paraná (Sul, Brasil) para receber orientações de puericultura, alimentação com aleitamento materno e fórmula, refere ruptura óssea de clavícula do neonato, sendo imobilizado com método de Velpeau tendo melhor. Índice de Apgar 8/9, coto umbilical não aparente, prescrição de vitamina A+D, aguardando resultados do teste de Guthrie, ganho de peso 58 g/dia. Após 2 meses e meio do nascimento, criança apresentava sinais condizentes com doença do refluxo gastroesofágico, mãe refere realizar decúbito 30 graus no bebê o qual não aceita bem o leite materno, apresentando desnutrição, depleção, pele enrugada, face com dermatite e alterações no frênulo lingual, demonstrando uma inserção inapropriada da ponta da língua até o rebordo alveolar

Figura 1: Ultrassom



Fonte: autor.

inferior e limitações na projeção da língua (extensão e retração), gerando dificuldade na deglutição, sendo internado por 13 dias sob hidratação venosa, mas sem melhora alguma em relação aos vômitos em jato, favorecendo a intensificação do agravo.

Solicitado então com urgência o Ultrassom (USG). Laudo do USG exibe fígado, vesículas biliares, pâncreas, baço, supra renais, rins, retroperitônio e bexiga com aspectos normais, sendo destacado anormalidade no piloro, com achados de parede muscular com espessamento, medindo 7 mm, comprimento do canal de piloro com 18 mm e volume do piloro de aproximadamente 2,4 ml, demonstrando-se alterados, sendo compatíveis com a suspeita de estenose do piloro em conjunto com alterações similares ao aspecto de anquiloglossia, fator exposto e referido devido à dificuldade de sucção do leite materno, a rejeição do seio, e a dificuldade em realizar a extensão e retração da língua, favorecendo a desnutrição severa encontrada no caso.

## DISCUSSÃO

A estenose pilórica hipertrófica infantil (IHPS) apresenta-se normalmente entre a segunda e a quinta semana de vida, em situações raras após a 12ª semana, como o caso relatado, sua origem ainda não é clara, suspeitando-se de múltiplos fatores etiológicos distintos. A utilização da ultrassonografia (USG) é a técnica comum para confirmação diagnóstica, achados como espessura muscular superior a 3mm, comprimento do canal pilórico maior que 15mm são confirmatórios para IHPS.<sup>7</sup> Uma compatibilidade sintomática da IHPS pode ser evidenciada em outras comorbidades como: gastroenterite, hérnia, apendicite tornando o diagnóstico primário de difícil constatação.<sup>1</sup>

Sinais clássicos de IHPS retratam vômitos em jato pós-prandial recorrentes, dificuldade na sucção do leite materno e perda de peso, em bebês com algumas alterações secundárias como a alteração de frênulo lingual, até mesmo a anquiloglossia, sendo que os sintomas e os sinais podem ser atípicos ou direcionados à outras enfermidades mais recorrentes, sendo que a êmese pode ser em menor incidência sem apresentação de projétil, com um aumento de apetite e um peristaltismo gástrico excessivo.<sup>7</sup>

O quadro do paciente exibiu uma forte coincidência com achados de anquiloglossia, posteriormente confirmada, sendo uma anomalia caracterizada por um frênulo lingual curto ou com limitação de movimento devido sua inserção, que pode exibir a ponta da língua inserida no rebordo alveolar inferior, sendo um quadro parcial e mais comumente habitual, ou a fusão integral do assoalho da boca constituída pelos músculos gênio-hióideo e milo-hióideo, exibindo uma condição extremamente rara e delicada, constituindo uma recusa no aleitamento materno, dificuldade na deglutição e vômitos frequentes devido ao vácuo que se forma entre a correta fixação da boca do lactente e o bico do seio materno, gerando uma ingestão de ar ocasionando regurgitação recorrente e um quadro de cólica frequente.<sup>8</sup> A utilização de fórmulas complementares no lugar do aleitamento materno como evi-

**A estenose pilórica hipertrófica infantil (IHPS) apresenta-se normalmente entre a segunda e a quinta semana de vida, em situações raras após a 12ª semana, como o caso relatado, sua origem ainda não é clara, suspeitando-se de múltiplos fatores etiológicos distintos**

denciado no caso clínico, têm demonstrado um fator de risco para o desenvolvimento da estenose pilórica, ressaltando a conduta de indicação do aleitamento como fator protetor de inúmeras doenças.<sup>6</sup>

O tratamento médico normalmente é feito por via cirúrgica, sendo submetido à piloromiotomia e para a anormalidade no frênulo foi realizado a frenotomia conjunta, as cirurgias mostram um baixo índice de morbidade. Os cuidados pós-operatórios indicam uma introdução dos fluidos intravenosos até que o lactente tolere a alimentação, sendo normal uma regurgitação branda pós-cirurgia, cessando até o 5 dia após o procedimento.<sup>6</sup>

Ideal seria a abordagem pós-operatória pelo serviço de fonoaudiologia, visto que ajudaria no diagnóstico correto, auxiliaria na amamentação imediata (impedindo o desmame precoce), reabilitaria a sucção, auxiliaria na cicatrização e prevenção de recidivas, assegurando otimização de orientação aos pais. Uma excelente forma de avaliar a melhora da anquiloglossia após a frenotomia seria avaliar o modo como o bebê dorme; sendo ideal a boca fechada e a língua no céu da boca, ou seja, encostando no palato duro. Ressalta-se que a frequência com que o paciente era levado a postos de saúde e centros de atenção básica, ajudou no diagnóstico inicial e contínua intervenção precoce, destacando a importância do acesso a criança na atenção primária, principalmente nos primeiros anos de vida, onde a continuidade do processo atinge graus de avaliação progressiva do profissional atendente, verificando o seu desenvolvimento físico e mental, adequado para cada estágio da vida, cabendo o mesmo indicar as possíveis falhas que presenciar no processo de crescimento infantil, assim como sua conduta e maneiras de melhorar o prognóstico.<sup>11</sup>

## CONCLUSÃO

O relato de caso tornou possível, a identificação de alguns aspectos condizentes com o diagnóstico de estenose pilórica hipertrófica infantil, sendo ressaltado sua difícil constatação inicial, dentre os achados



mais comuns, encontram-se características como o vômito em jato pós aleitamento, a rejeição do seio materno ou a dificuldade na sucção do leite, levando a um quadro de desnutrição grave; em conformidade com os achados, ainda percebeu-se a necessidade de uma intervenção no frênulo lingual, o qual exibiu irregularidade na sua fixação, condizente com achados de anquiloglossia, sendo um grande agravante no quadro em geral. Notou-se uma melhora significativa

após a intervenção cirúrgica, sendo exibido uma recuperação progressiva e otimizada, favorecendo ao desenvolvimento infantil conforme as curvas de crescimento. Ainda é possível ressaltar que se faz necessário uma atuação de modo multiprofissional com a participação ativa do enfermeiro. Além disso, entende-se que precisa existir vínculo empático, longitudinal e integral entre os profissionais de saúde e as famílias. As contribuições do estudo

são para alertar outros profissionais da saúde e os pais sobre a importância do diagnóstico precoce e tratamento do quadro de estenose pilórica hipertrófica infantil e achados de anquiloglossia, sendo ressaltado a necessidade de mais pesquisas e comparações de dados, evidenciando um caráter investigativo da doença, favorecendo a disseminação do conhecimento prático. ■

## REFERÊNCIAS

- <sup>1</sup>Arnold R, Khokho K, Narrainsamy K, Brits E, Joubert G. Infantile hypertrophic pyloric stenosis: profile, management and outcome of patients admitted to a tertiary hospital in Bloemfontein, South Africa. *South African Journal of Surgery* [Internet]. 2019 [citado 10 out 2021];57(2):64-8. Disponível em: <https://doi.org/10.17159/2078-5151/2019/v57n2a2811>
- <sup>2</sup>Araujo MD, Freitas RL, Lima MG, Kozmhinsky VM, Guerra CA, Lima GM, Silva AV, Júnior PC, Arnaud M, Albuquerque EC, Rosenblatt A. Evaluation of the lingual frenulum in newborns using two protocols and its association with breastfeeding. *Jornal de Pediatria* [Internet]. Maio 2020 [citado 10 out 2021];96(3):379-85. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.jpmed.2018.12.013>
- <sup>3</sup>Fadista J, Skotte L, Geller F, Bybjerg-Grauholm J, Gørtz S, Romitti PA, Caggana M, Kay DM, Matsson H, Boyd HA, Hougaard DM, Nordenskjöld A, Mills JL, Melbye M, Feenstra B. Genome-wide meta-analysis identifies *BARX1* and *EML4-MTA3* as new loci associated with infantile hypertrophic pyloric stenosis. *Human Molecular Genetics* [Internet]. 2 out 2018 [citado 10 out 2021];28(2):332-40. Disponível em: <https://doi.org/10.1093/hmg/ddy347>
- <sup>4</sup>Figueirêdo SD, Araújo Junior CR, Nóbrega BB, Jacob BM, Esteves E, Teixeira KI. Estenose hipertrófica do piloro: caracterização clínica, radiológica e ecográfica. *Radiologia Brasileira* [Internet]. Mar 2003 [citado 10 out 2021];36(2):111-6. Disponível em: <https://doi.org/10.1590/s0100-39842003000200010>
- <sup>5</sup>Fadista J, Skotte L, Courraud J, Geller F, Gørtz S, Wohlfahrt J, Melbye M, Cohen AS, Feenstra B. Integrating genetics with newborn metabolomics in infantile hypertrophic pyloric stenosis. *Metabolomics* [Internet]. Jan 2021 [citado 10 out 2021];17(1). Disponível em: <https://doi.org/10.1007/s11306-020-01763-2>
- <sup>6</sup>Nofal AH, Almetaher HA, Ebeid AE. Pyloromyotomy for infantile hypertrophic pyloric stenosis using a modification of the Tan and Bianchi circumumbilical approach. *Annals of Pediatric Surgery* [Internet]. Jan 2016 [citado 10 out 2021];12(1):1-4. Disponível em: <https://doi.org/10.1097/01.xps.0000472825.56322.24>
- <sup>7</sup>Mowrer AR, Esparaz JR, Hwang EH, Chakraborty SR, Nierstedt RT, Wolfe DJ, Jaroenpuntaruk V, Robertson DJ. Low socioeconomic status and formula feeding directly correlate with increased incidence of hypertrophic pyloric stenosis. *Journal of Pediatric Surgery* [Internet]. Dez 2019 [citado 10 out 2021];54(12):2498-502. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2019.08.044>
- <sup>8</sup>Fraga MD, Barreto KA, Lira TC, Celerino PR, Tavares IT, Menezes VA. Ankyloglossia and breastfeeding: what is the evidence of association between them? *Revista CEFAC* [Internet]. 2020 [citado 10 out 2021];22(3). Disponível em: <https://doi.org/10.1590/1982-0216/202022312219>
- <sup>9</sup>Araujo MD, Freitas RL, Lima MG, Kozmhinsky VM, Guerra CA, Lima GM, Silva AV, Júnior PC, Arnaud M, Albuquerque EC, Rosenblatt A. Evaluation of the lingual frenulum in newborns using two protocols and its association with breastfeeding. *Jornal de Pediatria* [Internet]. Maio 2020 [citado 10 out 2021];96(3):379-85. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.jpmed.2018.12.013>
- <sup>10</sup>França EC, Albuquerque LC, Martinelli RL, Gonçalves IM, Souza CB, Barbosa MA. Surface electromyographic analysis of the suprahyoid muscles in infants based on lingual frenulum attachment during breastfeeding. *International Journal of Environmental Research and Public Health* [Internet]. 30 jan 2020 [citado 10 out 2021];17(3):859. Disponível em: <https://doi.org/10.3390/ijerph17030859>
- <sup>11</sup>Marques Ribeiro Ascenso A, Saraiva Aguiar R. Acesso da criança na atenção primária à saúde: uma revisão integrativa. *Saúde Coletiva (Barueri)* [Internet]. 9 dez 2020 [citado 10 out 2021];10(59):4456-73. Disponível em: <https://doi.org/10.36489/saudecoletiva.2020v10i59p4456-4473>