

ARTIGO ORIGINAL

# Gastrosquise no Brasil em um Contexto Global

## *Gastroschisis in Brazil within a Global Context*

Virginia Maria Muniz<sup>a</sup>, Antônio Lima Netto<sup>b</sup>, Luciane Bresciani Salaroli<sup>c</sup>, Eliana Zandonade<sup>d</sup>



<sup>a</sup>Programa de Pós-Graduação em Saúde Coletiva, Universidade Federal do Espírito Santo (PPGSC/UFES). Avenida Marechal Campos, 1468, Bonfim, Vitória, Espírito Santo, Brasil.

<sup>b</sup>Núcleo de Terapia Intensiva Pediátrica e Neonatologia, Hospital Estadual Infantil Nossa Senhora da Glória. Alameda Mari Ubirajara, 205 - Santa Lucia, Vitória - ES, Brasil.

<sup>c</sup>Departamento de Educação Integrada à Saúde, Programa de Pós-Graduação em Saúde Coletiva, Universidade Federal do Espírito Santo (UFES), Avenida Marechal Campos, 1468, Bonfim, Vitória, Espírito Santo, Brasil.

<sup>d</sup>Departamento de Estatística, Programa de Pós-Graduação em Saúde Coletiva, Universidade Federal do Espírito Santo. Avenida Marechal Campos, 1468, Bonfim, Vitória, Espírito Santo, Brasil.

**Autor correspondente**  
vmuniz605@gmail.com

*Manuscrito recebido: março 2021*  
*Manuscrito aceito: agosto 2021*  
*Versão online: janeiro 2022*

### Resumo

**Introdução:** a disparidade global nos resultados da gastrosquise é visível. Taxas de sobrevivência em países de alta renda melhoraram desde 1960 e atualmente estão em torno de 100%, devido ao progresso da cirurgia pediátrica e da terapia intensiva neonatal. No entanto, em países de média e baixa renda, as taxas de mortalidade continuam elevadas.

**Objetivo:** este estudo tem como objetivo mapear a literatura existente sobre gastrosquise no Brasil e discutir as evidências disponíveis em um contexto global.

**Método:** revisão de escopo. Foram pesquisados o PubMed, o Scielo Brasil, a Biblioteca Virtual em Saúde (BVS) e o Google Scholar no período de janeiro de 2000 a maio de 2020.

**Resultados:** oito estudos preencheram os critérios de inclusão e os dados encontrados de 912 pacientes foram: idade materna média de 20.7 anos, média do diagnóstico antenatal de 80.2%, taxa média de cesarianas de 77.7%, tempo de permanência hospitalar médio de 40.8 dias e taxa média de mortalidade 25.3%. Os fatores de risco associados ao óbito encontrados foram a prematuridade, baixo peso ao nascer, APGAR baixo, reintervenções cirúrgicas, sepse, intervalo nascimento-cirurgia maior que 4 horas, poucas consultas do pré-natal e diagnóstico antenatal tardio.

**Conclusão:** estudos sobre gastrosquise no Brasil são escassos, a maioria realizada no Sudeste do país. Os piores desfechos estão em regiões com poucos recursos econômicos, situação semelhante à encontrada na literatura internacional. Esta revisão deve ser validada com estudos futuros que investiguem a situação de gestantes portadoras de fetos com gastrosquise, especialmente em regiões de poucos recursos, no Brasil.

**Palavras-chave:** Brasil, anomalias congênitas, gastrosquise, recém-nascido, resultado da gravidez

**Suggested citation:** Muniz VM, Netto AL, Salaroli LB, Zandonade E. Gastroschisis in Brazil within a Global Context. *J Hum Growth Dev.* 2022; 32(1):83-91. DOI: 10.36311/jhgd.v32.11796

## Síntese dos autores

### Por que este estudo foi feito?

Existem poucas publicações sobre resultados de coortes de gastrosquise em países de baixa e média renda. Esta revisão de escopo tem como objetivo mapear a literatura existente sobre gastrosquise no Brasil e discutir o corpo de evidências disponíveis em um contexto global.

### O que os pesquisadores fizeram e encontraram?

Estudos sobre gastrosquise no Brasil são escassos, a maioria deles realizados no Sudeste do país. Os dados foram consolidados e os resultados sugerem que há contrastes regionais nos desfechos da gastrosquise no Brasil. Os piores resultados estão em regiões com poucos recursos econômicos, situação semelhante à encontrada na literatura internacional.

### O que essas descobertas significam?

Espera-se contribuir com os formuladores de políticas e profissionais envolvidos na assistência ao paciente com gastrosquise na obtenção de melhores resultados na assistência à saúde dessa população.

## INTRODUÇÃO

A A gastrosquise é uma anomalia congênita que consiste na externalização dos órgãos abdominais por um defeito, que na maioria das vezes fica à direita do cordão umbilical; os órgãos não são cobertos por membranas<sup>1</sup>. Sua patogênese está relacionada a anormalidades na hérnia umbilical “fisiológica”, que ocorre entre a quinta e a décima semanas de gestação<sup>2</sup>.

Uma disparidade global nos resultados da gastrosquise é visível<sup>3</sup>. As taxas de sobrevivência em países de alta renda melhoraram desde 1960 e atualmente estão em torno de 100%, devido ao progresso da cirurgia pediátrica e da terapia intensiva neonatal<sup>3</sup>. No entanto, em países de baixa renda, as taxas de mortalidade podem atingir todos os casos<sup>3</sup>. A falta de diagnóstico pré-natal, ineficiência no atendimento pré-hospitalar, acesso limitado às unidades de terapia intensiva neonatal (UTIN), indisponibilidade de cirurgia pediátrica e nutrição parenteral total (NPT) são fatores relacionados ao óbito em regiões com baixos recursos econômicos<sup>3</sup>.

Existem poucas publicações sobre resultados de coortes de gastrosquise em países de baixa e média renda<sup>3</sup>. O Brasil é um país de renda média alta com contrastes regionais<sup>4</sup>. A Região Sudeste apresenta Índices de Desenvolvimento Humano (IDH) mais elevados, profissionais de saúde e leitos de UTIN mais qualificados do que as Regiões Norte e Nordeste do país<sup>5,6</sup>. Esta revisão de escopo visa mapear a literatura existente sobre gastrosquise no Brasil e discutir o corpo de evidências disponível em um contexto global.

## MÉTODO

### Desenho do estudo

A metodologia desta revisão de escopo foi baseada no formato descrito por Arksey e O'Malley<sup>7</sup> e revisado por Levac *et al.*<sup>8</sup> Incluiu as seguintes cinco fases principais: 1- definição da questão de pesquisa, 2- reconhecimento de estudos relevantes, 3- seleção do estudo, 4- mapeamento de dados e 5- agrupar, resumir e relatar os resultados. A questão específica foi: “Qual o estado atual das evidências sobre os desfechos dos pacientes com gastrosquise no Brasil?”

### Fontes de dados

A busca foi realizada no PubMed, Scielo Brasil, Biblioteca Virtual em Saúde (BVS), Google acadêmico. Limitamos nossa busca a estudos publicados em inglês e português, no período de janeiro de 2000 a maio de 2020.

Busca: foram adotados os descritores “Gastroschisis and Brazil” e “Gastrosquise”, observando-se as propriedades operacionais inerentes a cada base de dados. O processo de busca e seleção foi realizado de forma independente por dois autores (ALN e VMM), que leram o título e o resumo das publicações.

### Seleção dos estudos

Os critérios de inclusão foram estudos quantitativos, ou seja, publicações originais sobre gastrosquise realizadas em UTIN no Brasil. Os critérios de exclusão foram estudos que incluíram outras malformações congênitas maiores, bancos de dados duplicados, relatos de casos, teses ou dissertações não publicadas, editoriais, cartas de leitores, estudos qualitativos, apresentações em eventos científicos, capítulos de livros, aulas, pesquisas realizadas exclusivamente com fetos (medicina fetal) e pesquisas em animais. O fluxograma do estudo foi preparado de acordo com os itens de Relatório Preferidos para Revisões Sistemáticas e Extensão de Meta-análises para revisões de escopo (PRISMA-ScR), figura 1<sup>9</sup>.

Os seguintes dados foram extraídos: região geográfica do Brasil, período da pesquisa, local do estudo, desenho do estudo, variáveis do pré-natal e do pós-natal. Esses dois últimos grupos de variáveis compreenderam os seguintes parâmetros: variáveis de assistência pré-natal e parto: idade materna (média) e diagnóstico pré-natal (%), via de parto (parto vaginal ou cesáreo), local de nascimento (nascido em centro de referência “*inborn*”, ou não “*outborn*”), gênero do recém-nascido, peso ao nascer (gramas) e idade gestacional (semanas). Variáveis do pós-natal: gastrosquise simples ou complexa (com atresia, estenose, volvo, isquemia, necrose)<sup>10</sup>. Tipo de fechamento da parede (fechamento primário ou colocação do silo), NPT (tempo médio ou porcentagem de uso), ventilação mecânica “VM” (tempo médio ou porcentagem de uso), sepse, tempo para a primeira alimentação enteral (média de dias), tempo para atingir à alimentação enteral plena (média de dias), tempo de internação (média de dias), taxa de mortalidade (%) e número total de pacientes.

## RESULTADOS

Oito estudos preencheram os critérios de inclusão. A tabela 1 mostra as características dos estudos incluídos<sup>11-18</sup>.

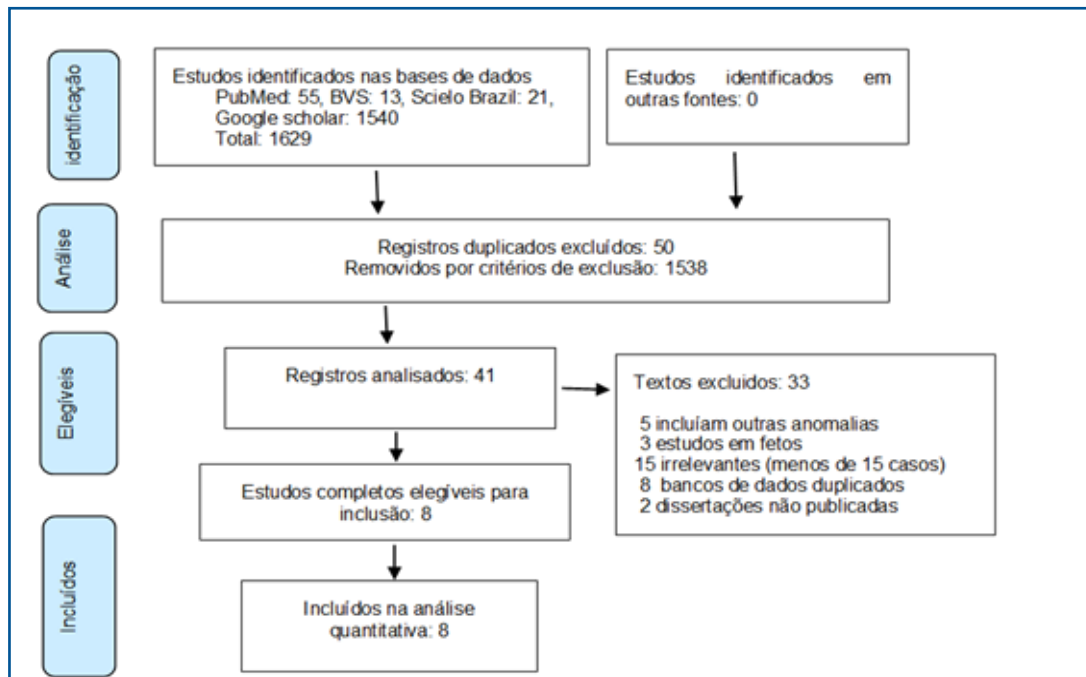


Figura 1: Fluxograma do Processo de Pesquisa (PRISMA-ScR)<sup>9</sup>.

Tabela 1: Características dos estudos incluídos sobre os desfechos da gastrosquise no Brasil

Autor/ano	Região	Local	Desenho	Objetivos
Martins <i>et al.</i> <sup>11</sup> 2016-2019	Sudeste	IFF <sup>a</sup>	prospectivo	Descrever as características e desfechos clínicos e cirúrgicos da gastrosquise.
Bilibio <i>et al.</i> <sup>12</sup> 2010-2015	Norte	FSCMPA <sup>b</sup>	retrospectivo	Descrever os fatores de risco para a mortalidade em gastrosquise.
Osmundo Jr <i>et al.</i> <sup>13</sup> 2005-2017	Sudeste	HC-FMUSP <sup>c</sup>	retrospectivo	Investigar a associação entre parto espontâneo tardio com desfechos neonatais em gestações afetadas por gastrosquise.
Miranda <i>et al.</i> <sup>14</sup> 1989-2013	Sudeste	HC-UFMG <sup>d</sup>	retrospectivo	Testar a hipótese de que certas intervenções influenciam os desfechos de pacientes com gastrosquise.
Carvalho <i>et al.</i> <sup>15</sup> 2009-2013	Sudeste	UNIFESP-EPM <sup>e</sup>	retrospectivo	Avaliar os desfechos pós-natais de fetos com gastrosquise.
Calcagnotto <i>et al.</i> <sup>16</sup> 1992-2012	Sul	HCPA <sup>f</sup>	retrospectivo	Analisar a mortalidade perinatal de pacientes com gastrosquise.
Tannuri <i>et al.</i> <sup>17</sup> 2003-2009	Sudeste	HC-FMUSP, FCMUNICAMP <sup>g</sup> FMRP-USP <sup>h</sup>	retrospectivo	Analisar os desfechos pós-cirúrgicos de pacientes com gastrosquise.
Vilela <i>et al.</i> <sup>18</sup> 1995-1999	Nordeste	IMIP <sup>i</sup>	retrospectivo	Analisar os fatores de risco para o óbito em pacientes com gastrosquise.

<sup>a</sup>IFF Instituto Fernandes Figueira, <sup>b</sup>FSCMPA Fundação Santa Casa de Misericórdia do Pará, <sup>c</sup>HC-FMUSP Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina da Universidade Federal de São Paulo, <sup>d</sup>HC-UFMG Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Minas Gerais, <sup>e</sup>UNIFESP-EPM Escola Paulista de Medicina, <sup>f</sup>HCPA Hospital de Clínicas de Porto Alegre, Faculdade de Medicina da FMUSP - Universidade de São Paulo, <sup>g</sup>FCMUNICAMP Faculdade de Ciências Médicas - Estado Universidade Estadual de Campinas, <sup>h</sup>FMRP-USP Faculdade de Medicina de Ribeirão Preto - Universidade de São Paulo, <sup>i</sup>IMIP Instituto Materno-Infantil de Pernambuco.

**Desfechos extraídos dos estudos incluídos.**

Os resultados de 912 pacientes foram verificados. O menor número de indivíduos observados foi 31 e o maior

207<sup>13,18</sup>. A tabela 2 mostra as variáveis da assistência ao pré-natal e ao parto. A tabela 3 as variáveis da assistência pós-cirúrgica.

**Tabela 2:** Variáveis da assistência ao pré-natal e ao parto extraídas dos estudos sobre os desfechos da gastrosquise conduzidos no Brasil.

Variáveis	Brasil	Martins et al. <sup>11</sup>	Bilibio et al. <sup>12</sup>	Osmundo Jr et al. <sup>13</sup>	Miranda et al. <sup>14</sup>	Carvalho et al. <sup>15</sup>	Calcagnotto et al. <sup>16</sup>	Tannuri et al. <sup>17</sup>	Vilela et al. <sup>18</sup>
Idade Materna (a <sup>a</sup> /média/DP <sup>b</sup> )	20,7	21 (±5,1)	19,7 (±3,7)	21 (±4,1)	21 (±5,1)	21,2 (±3,6)	21,5	20,1 (±4,5)	
Diagnóstico pré-natal (%)	80,2	96	55,1	100	84	100	92,2	82,2	32,3
Cesariana (%)	77,7	67	67,7	91,3	83,3	90,9	92,2	84,7	45
Outborn (%)	20,8	13	53,2	0	15,3	0	0		64,5
Feminino (%)	49,4	53	47,8		50,6	40,9		54,6	
Peso ao nascer (g <sup>c</sup> ) (média/DP)	2302	2339 (±492)	2302 (±464)	2347 (±454)	2308 (±492)	2349 (±514)	2269	2200	>2500g/ 54,8%

<sup>a</sup>a ano, <sup>b</sup>DP Desvio Padrão, <sup>c</sup>G gramas, \*Percentual.

**Tabela 3:** Variáveis dos cuidados pós-cirúrgicos extraídas dos estudos sobre os desfechos da gastrosquise conduzidos no Brasil

Variáveis	Brasil	Martins et al. <sup>11</sup>	Bilibio et al. <sup>12</sup>	Osmundo Jr et al. <sup>13</sup>	Miranda et al. <sup>14</sup>	Carvalho et al. <sup>15</sup>	Calcagnotto et al. <sup>16</sup>	Tannuri et al. <sup>17</sup>	Vilela et al. <sup>18</sup>
GC <sup>a</sup> (%)	22,9	11		15,9	14,7		59,4	13,5	
Fechamento Primário (%)	64,8	76	65,5	82,6	50	65,8	68,8	68,1	41,9
Tempo de NPT <sup>b</sup> (média)	26,2	23	19,8		29			33,2	83,9%
Tempo para início dieta enteral (média)	20,5	16			21			24,7	
Tempo para dieta enteral total (média)	30	24		28,5				37,6	
Tempo de VM <sup>c</sup> (média) Sepse (%)	6,9	5,5	9,7	2,3	12			4,9	41,9%
Tempo de internação (média)	53,2	34,5		53,6	76,9	52,5	50	40,5	64,5
Mortalidade (%)	40,8	36	32,3	37	46	52,7		41,2	
Mortality (%)	25,3	4,2	51,2	10,6	26,9	20,5	23,4	14,1	51,6
n	912	79	168	207	156	44	64	163	31

<sup>a</sup>GC gastrosquise complexa; <sup>b</sup>NPT nutrição parenteral total; <sup>c</sup>VM ventilação mecânica, \*percentual de uso.

### Fatores de risco para mortalidade e outras associações

Três estudos verificaram os fatores de risco associados ao óbito. Calcagnotto *et al.*<sup>16</sup> encontraram prematuridade ( $p = 0.03$ ), baixo peso ao nascer ( $p = 0.001$ ), baixo escore do Apgar ( $p = 0.03$ ), reintervenções ( $p = 0.001$ ) e sepse ( $p = 0.008$ ). Vilela *et al.*<sup>18</sup> observaram peso ao nascer menor que 2.500 g ( $p = 0.03$ ), intervalo nascimento-cirurgia maior do que 4 horas ( $p = 0.04$ ) e necessidade de ventilação mecânica ( $p = 0.02$ ). Bilibio *et al.*<sup>12</sup> encontraram menor número de consultas do pré-natal ( $p = 0.004$ ), retardo no diagnóstico pré-natal ( $p = 0.005$ ), baixo peso ao nascer ( $p = 0.001$ ), lesão intestinal ( $p = 0.001$ ) e sepse ( $p = 0.001$ ).

Além disso, o trabalho de parto espontâneo em prematuros foi associado à gastrosquise complexa ( $p = 0.002$ ) e síndrome do intestino curto ( $p = 0.013$ ) quando comparado aos partos prematuros indicados<sup>13</sup>. Os baixos níveis séricos de sódio e albumina no pós-operatório foram associados ao tempo prolongado de VM<sup>17</sup>. O grupo da gastrosquise complexa apresentou defeito significativamente menor ( $p = 0.04$ ), mais reintervenções cirúrgicas ( $p = 0.001$ ) e resultados clínicos piores do que o grupo da gastrosquise simples, com início da alimentação 1.5 vezes maior ( $p = 0.001$ ), o dobro do tempo de uso de NPT ( $p = 0,001$ ) e o tempo de internação 2.5 vezes maior<sup>11</sup>. Pacientes submetidos à técnica sem sutura tiveram significativamente menos infecções da ferida operatória ( $p$

= 0.01) e menor duração da VM do que pacientes suturados ( $p = 0.001$ )<sup>11</sup>. Os resultados antes e depois do protocolo do pacote de cuidados foram verificados<sup>14</sup>. Quando comparados à coorte anterior, os pacientes apresentaram maiores taxas de diagnóstico pré-natal ( $p = 0.001$ ), parto em centro terciário ( $p = 0.001$ ), fechamento precoce ( $p = 0.001$ ), reparo primário ( $p = 0.01$ ), monitoramento da pressão intravesical ( $p = 0.001$ ), colocação da PICC ( $p = 0.001$ ), início precoce da alimentação enteral ( $p = 0.001$ ) e menores taxas de distúrbios eletrolíticos ( $p = 0.001$ )<sup>14</sup>.

## DISCUSSÃO

Nesta revisão, a idade materna média foi de 20.7 anos (19.7 a 21.5 anos). A menor média foi relatada em uma região com o segundo menor IDH do país<sup>5</sup>. Em 2013, um estudo brasileiro mostrou uma tendência de primeira gravidez precoce entre as mulheres da Região Norte (19.4 anos) em comparação com as da Região Sudeste (21.9 anos). Esses números indicam uma prevalência maior de gravidez precoce na região mais pobre do país<sup>19</sup>. A título de comparação, a idade materna média nesta revisão foi inferior às relatadas em estudos do Canadá (23.3 anos), EUA (22.2 anos) e França (25 anos)<sup>20-22</sup>.

As taxas de diagnóstico pré-natal de gastrosquise variam consideravelmente de acordo com a situação econômica do país. Enquanto nos países de alta renda a gastrosquise é diagnosticada no pré-natal entre 68% e 100% dos casos<sup>21,23</sup>, nos países de baixa e média renda essa taxa é reduzida, com variação entre 4.7% a 46%<sup>24-26</sup>. Em nossa revisão, a taxa total de diagnóstico pré-natal foi de 80.2% (32.2% a 100%). Estudos realizados em regiões mais pobres apresentaram menores taxas de diagnóstico pré-natal e isso indica falhas no sistema de saúde local. O diagnóstico pré-natal permite a diferenciação adequada com onfalocele, distinção entre gastrosquise simples e complexa, planejamento do parto e aconselhamento familiar<sup>27</sup>.

As taxas de cesarianas variam entre as regiões brasileiras. De acordo com um estudo anterior, nas regiões de poucos recursos do país as taxas de partos operatórios variaram de 35% a 45%, enquanto na região de recursos elevados as mesmas taxas estiveram entre 55% e 65%<sup>28</sup>. Nos países de alta renda as taxas de cesárea variaram de 31.5% a 68%<sup>20,22,23</sup>, e nos de baixa e média renda entre 5% e 76.3%<sup>24,26,29</sup>. No estudo atual, a taxa de cesárea foi de 77.7% (45% a 92.2%). No entanto, foram maiores em estudos realizados em ambientes de recursos econômicos elevados do Brasil. A melhor via de nascimento em fetos com gastrosquise permanece controversa<sup>27,30</sup>. Os supostos benefícios da indução do parto próximo ao termo incluem a redução da exposição do intestino ao líquido amniótico e a redução de lesões intestinais graves. Por outro lado, esse procedimento aumenta o risco de condições relacionadas à prematuridade, como desconforto respiratório e outras comorbidades<sup>27</sup>.

Nesta revisão, a taxa média de pacientes outborn foi de 20.8% (0% a 64.5%). No entanto, foram mais frequentes em estudos realizados nas regiões mais pobres do país. As taxas de *outborn* em países de baixa e média renda variaram de 46.8% a 100%<sup>24,26,29</sup>, enquanto nos de alta renda essas taxas variaram entre 2.9% e 62.5%<sup>20,22,23</sup>.

Após a confirmação do diagnóstico de gastrosquise, a gestante deve ser encaminhada para centro de referência terciário para partos de alto risco, onde sejam acessíveis a medicina fetal, cirurgia pediátrica, UTIN e equipes nutricionais<sup>27,30</sup>.

Em relação às características relacionadas aos recém-nascidos, a média do peso ao nascer foi de 2.302 g (2.200 g a 2.349 g). Estudos realizados em todo o mundo encontraram peso ao nascer com variação entre 2.232 g a 2.549 g<sup>20,22,26,29</sup>. A taxa de gênero feminino foi de 49.4% (40.9% a 54.6%), semelhante a estudos encontrados na literatura internacional<sup>20,22-24,26</sup>. A idade gestacional média desta revisão foi de 36.2 semanas (35.9 a 37.6 semanas); os nascimentos a termo foram mais frequentes em estudos realizados nas regiões mais pobres do Brasil e foram semelhantes às taxas encontradas nos países de baixa e média renda<sup>26,29</sup>. A menor idade gestacional reflete a utilização de protocolos de acompanhamento da gravidez durante o pré-natal, incluindo a indução do parto próximo ao termo em sistemas de saúde de alta renda<sup>20,22,23</sup>.

A gastrosquise complexa oferece desafios adicionais, uma vez que os recém-nascidos afetados são mais propensos a múltiplas cirurgias e NPT de longa duração, mais vulneráveis a sepse e óbito<sup>10,30</sup>. Nesta revisão atual, a taxa de gastrosquise complexa de 22.9% (11% a 59.4%) foi semelhante à relatada em estudos de outros países<sup>22,23,25,29</sup>.

A taxa de cirurgia de fechamento primário de parede encontrada nesta revisão de 64.8% (41.9% a 76%) foi próxima aos estudos realizados em países de alta renda<sup>22,23,31</sup>. Esse procedimento, quando realizado imediatamente após o nascimento, oferece algumas vantagens como o posicionamento precoce do intestino de volta ao seu local adequado e a redução do risco de lesões por exposição mecânica. No entanto, essa técnica nem sempre é possível ou segura, principalmente na presença de alças intestinais distendidas e friáveis ou cavidades intra-abdominais estreitas, devido ao risco de síndrome compartimental<sup>32</sup>.

O tempo médio de uso da NPT foi de 26.2 dias (19.8 a 33.2 dias). Estudos realizados em ambientes com muitos recursos econômicos no Brasil mostraram um tempo médio de uso de NPT semelhante aos estudos em países de alta renda<sup>20,22,23</sup> e maior do que aqueles observados nos de renda média<sup>26,29</sup>. A manutenção de um recém-nascido em NPT é um desafio, pois esse procedimento exige uma equipe treinada nas técnicas de inserção e manutenção de cateteres intravenosos e no preparo dessas soluções<sup>3</sup>. Em regiões com poucos recursos, essas opções terapêuticas não estão disponíveis e isso pode resultar em tempos de sobrevivência mais curtos para pacientes com gastrosquise, refletida no menor tempo de uso da NPT observada nos estudos realizados em países de baixa e média renda<sup>3</sup>.

O tempo médio para a primeira alimentação enteral neste estudo foi de 20.5 dias (16 a 24.7 dias), próximo ao encontrado na literatura internacional<sup>20,25</sup>. O tempo médio para alimentação enteral plena de 30 dias (24 a 37.6 dias) foi superior ao encontrado em estudos realizados em países de alta renda (24 a 26 dias)<sup>22,23</sup>. A maioria dos pacientes com gastrosquise simples inicia a dieta enteral por volta da segunda semana de vida, enquanto os casos



de gastrosquise complexa requerem jejum prolongado devido a complicações intestinais<sup>32</sup>.

O tempo médio em VM nesta revisão foi de 6.9 dias (2.3 a 12 dias), semelhante aos estudos realizados em países de alta e média renda (4 a 9.5 dias)<sup>20,22,23,26,29</sup>. Os pacientes dos estudos em países de baixa renda não tiveram acesso à VM<sup>24,33</sup>.

A taxa média de sepse observada neste estudo de 53.2% (34.5% a 76.9%) foi maior do que nos relatórios de países de alta renda (19% a 36.2%)<sup>22,23</sup>, e próxima as observadas em estudos de países de média renda (54% a 83%)<sup>25,26,29</sup>.

O tempo médio de internação observada nesta revisão de 40.8 dias (32.3 a 52.7 dias) foi superior aos estudos realizados em países de alta renda (34 a 37 dias)<sup>20,23,31</sup>. Nos países de baixa e média renda esse período varia de 17 a 34 dias<sup>24-26,29,34</sup>. A longa permanência hospitalar reflete as complicações da gastrosquise, que evoluem com a necessidade de múltiplas reintervenções, jejum prolongado, além de retardar o desenvolvimento motor do recém-nascido<sup>32,35</sup>. O curto tempo de internação está relacionado a falhas assistenciais e altas taxas de mortalidade nas primeiras semanas de vida<sup>3</sup>.

A mortalidade observada neste estudo foi de 25.3% (4.2% a 51.6%). Observa-se que em estudos realizados em ambiente de recursos econômicos elevados no Brasil as taxas de mortalidade (4% a 26.8%) foram próximas às observadas nos países de renda média (12% a 39.1%)<sup>26,29</sup>, e distantes das taxas dos países de renda alta (1.4% a 3.5%)<sup>20,22,31</sup>. No cenário de poucos recursos do país, essas taxas (51.6% e 51.2%) eram semelhantes às dos países de baixa renda (58%)<sup>34</sup>.

Vulnerabilidades no pré-natal, no acesso aos serviços de saúde e no pós-operatório foram fatores de risco associados ao óbito observados nesta revisão, e esses achados são semelhantes aos obtidos em países de baixa renda<sup>3</sup>. O desfecho óbito não pode ser utilizado como resultado primário em estudo de um país de alta renda, pois o número de óbitos foi desprezível<sup>20</sup>. No entanto, um estudo recente encontrou peso ao nascer, índice de Apgar de 5 minutos e gastrosquise complexa como preditores para a mortalidade<sup>23</sup>. Outro estudo não encontrou tendências estatisticamente significativas na mortalidade geral por gastrosquise<sup>31</sup>.

Nos estudos mais recentes em centros de referência em localidades de altos recursos no Brasil, a utilização de protocolos para padronização de condutas em gastrosquise tem sido observada com bons resultados. Um grupo de pesquisa composto por pesquisadores ingleses e africanos propôs três níveis de intervenção em casos de gastrosquise que poderiam melhorar os resultados nesses pacientes em locais com recursos limitados. No nível micro, programas educacionais voltados à reanimação neonatal (pré e intra-hospitalar), treinamento de equipe multiprofissional e envolvimento dos pais no acompanhamento da prestação dos cuidados. No nível macro, a incorporação do ultrassom na assistência pré-natal e logística para a oferta de NPT e VM. Em nível global, a gastrosquise tem sido sugerida como uma condição sentinela para avaliar a capacidade dos serviços de prestar atendimento em casos de emergências cirúrgicas neonatais, em geral, nos países de baixa e média economia<sup>3</sup>. A importância dessas diretrizes foi corroborada

por um estudo recente em Uganda que alcançou uma redução de 40% nas taxas de mortalidade após a implementação do protocolo de intervenção em nível micro<sup>34</sup>.

Nesta revisão constata-se que as publicações sobre gastrosquise realizadas no Brasil foram escassas, a maioria delas realizadas no Sudeste do país, com amostras pequenas, metodologia heterogênea, nem todas as variáveis estavam presentes nos estudos incluídos e apenas um estudo foi multicêntrico. Essas características são típicas de estudos sobre gastrosquise realizados em outros países, o que tem dificultado a realização de revisões sistemáticas clássicas<sup>36</sup>.

Este estudo tem algumas limitações. Em primeiro lugar, as variáveis foram estudadas de forma heterogênea e nem todas estavam presentes nos estudos incluídos. Em segundo lugar, todos os estudos relatam dados de pacientes que tiveram acesso a centros de referência terciários, que sob esse aspecto, podem não representar toda a população de pacientes que nasceram com gastrosquise no Brasil. Por fim, em alguns estudos houve períodos de realização com diferenças de tempo prolongadas, o que pode não refletir a realidade do atendimento atual nesses locais.

As lacunas observadas nesta revisão sugerem que estudos futuros no Brasil possam ser realizados com a cooperação dos serviços terciários de referência em gastrosquise com pesquisas multicêntricas e elaboração de protocolos de consenso sobre os quais os resultados devem ser verificados, para melhor qualidade da assistência.

## CONCLUSÃO

Os achados clínicos baseados neste corpo de evidências sugerem que existem contrastes regionais nos estudos realizados sobre gastrosquise no Brasil. Os piores desfechos estão em regiões com poucos recursos econômicos, situação semelhante à encontrada na literatura internacional. No entanto, os resultados desta revisão de escopo devem ser validados com futuras pesquisas que investiguem a situação de gestantes com fetos com gastrosquise, principalmente em regiões de poucos recursos do Brasil.

## Contribuições

Muniz V.M., Salaroli L.B. e Zandonade E. Elaboraram o conceito original e desenho do estudo. Muniz V.M. e Netto A.L. realizaram a coleta dos dados. Muniz V.M. realizaram a análise dos dados, sobre a supervisão de Salaroli L.B. e Zandonade E. Muniz V.M. e Netto A.L. escreveram o primeiro rascunho, que foi aprovado por todos os autores.

## Agradecimento

Os autores agradecem ao Professor Marcelo Ramos Muniz pela revisão do texto. À Secretaria de Estado de Saúde do Acre (SESACRE), à Universidade Federal do Acre (UFAC) e ao Centro Universitário Saúde FMABC, pela parceria interinstitucional através do convênio nº. 007/2015, para a formação de profissionais de saúde no Acre, Amazônia Ocidental, Brasil.

## Conflitos de Interesse

Nada a declarar.

## REFERÊNCIAS

1. Ruschkowsk B, Lafreniere A, Demellawy DE, Grynspan D. Gastroschisis Is Associated With Placental Delayed Villous Maturation. *Pediatr Dev Pathol* [Internet]. 2020 Sep [cited 2021 Aug 12]; 23(3): 197-203. Available from: <https://journals.sagepub.com/doi/10.1177/1093526619875877>
2. Opitz JM, Feldkamp ML, Botto LD. An evolutionary and developmental biology approach to gastroschisis. *Birth Defects Res* [Internet]. 2019 Fev [cited 2021 Aug 12]; 111(6): 294-311. Available from: <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/10.1002/bdr2.1481>
3. Wright NJ, Sekabira JS, Ade-Ajayi N. Care of infants with gastroschisis in low-resource settings. *Semin Pediatr Surg* [Internet]. Sep 2018 [cited 2021 Aug 12]; 27(5): 321-326. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC7116007/>
4. World Bank. Washington (DC): World Bank Country and Lending Groups [Internet]. 2019 [cited 2019 Dec 20]. Available from: <https://datahelpdesk.worldbank.org/knowledgebase/articles/906519-world-bank-country-and-lending-groups>
5. Instituto de Pesquisa Econômica Aplicada (IPEA) Brasília: Radar IDHM: evolução do IDHM e de seus índices componentes no período de 2012 a 2017, 2019 [Internet]. 2019 [cited 2021 Aug 12] Available from: [https://www.ipea.gov.br/portal/images/stories/PDFs/livros/livros/190416\\_rada\\_IDHM.pdf](https://www.ipea.gov.br/portal/images/stories/PDFs/livros/livros/190416_rada_IDHM.pdf)
6. Oliveira GS, Lima MCBM, Lyra CO, Oliveira AGRC, Ferreira MAF. Desigualdade espacial da mortalidade neonatal no Brasil: 2006 a 2010. *Cien Saude Colet* [Internet]. Aug 2013 [cited 2021 Aug 12]; 18(8): 2431-2441. Available from: <https://www.scielo.br/j/csc/a/NMCvFKCnkp5tHKjchHbfk/?lang=pt>
7. Arksey H, O'Malley L. Scoping studies: towards a methodological framework. *Int J Soc Res Methodol* [Internet]. Feb 2007 [cited 2021 Aug 12]; 8(1): 19-32. Available from: <https://www.tandfonline.com/doi/abs/10.1080/1364557032000119616>
8. Levac D, Colquhoun H, O'Brien KK. Scoping studies: advancing the methodology. *Implement Sci* [Internet]. Sep 2010 [cited 2021 Aug 12]; 5:69. Available from: <https://implementationscience.biomedcentral.com/articles/10.1186/1748-5908-5-69>
9. Tricco AC, Lillie E, Zarin W, O'Brien KK, Colquhoun H, Levac D, et al. Extension for scoping reviews (PRISMA-ScR): checklist and explanation. *Ann Intern Med* [Internet]. Oct 2018 [cited 2021 Aug 12]; 169(7): 467-473. Available from: [https://www.acpjournals.org/doi/full/10.7326/M18-0850?rfr\\_dat=cr\\_pub++0pubmed&url\\_ver=Z39.88-2003&rfr\\_id=ori%3Arid%3Acrossref.org](https://www.acpjournals.org/doi/full/10.7326/M18-0850?rfr_dat=cr_pub++0pubmed&url_ver=Z39.88-2003&rfr_id=ori%3Arid%3Acrossref.org)
10. Bergholz R, Boettcher M, Reinshagen K, Wenke K. Complex gastroschisis is a different entity to simple gastroschisis affecting morbidity and mortality—A systematic review and meta-analysis. *J Pediatr Surg* [Internet]. Sep 2014 [cited 2021 Aug 12]; 49(10): 1527–32. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(14\)00482-5/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(14)00482-5/fulltext)
11. Martins BMR, Abreu I, Méio MDB, Moreira MEL. Gastroschisis in the neonatal period: a prospective case-series in a Brazilian referral center. *J Pediatr Surg* [Internet]. Aug 2020 [cited 2021 Aug 12]; 55(8): 1546-1551. Available from: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0022346820302943>
12. Bilibio JP, Beltrão AM, Vargens AC, Gama TB, Lorenzoni PL. Gastroschisis during gestation: prognostic factors of neonatal mortality from prenatal care to postsurgery. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* [Internet] Apr 2019 [cited 2021 Aug 12]; 237: 79-84. Available from: [https://www.ejog.org/article/S0301-2115\(19\)30179-4/fulltext](https://www.ejog.org/article/S0301-2115(19)30179-4/fulltext)
13. Osmundo Jr GS, Mohamed SHM, Nishie EN, Tannuri ACA, Gibellia MABC, Francisco RPV, et al. Association of spontaneous labor onset with neonatal outcomes in pregnancies with fetal gastroschisis: A retrospective cohort analysis. *Acta Obstet Gynecol Scand* [Internet]. Feb 2019 [cited 2021 Aug 12]; 98(2): 154-161. Available from: <https://obgyn.onlinelibrary.wiley.com/doi/10.1111/aogs.13473>
14. Miranda ME, Emil S, Paixão RM, Piçarro C, Cruzeiro PCF, Campos BA, et al. A 25-year study of gastroschisis outcomes in a middle-income country. *J Pediatr Surg* [Internet]. Mar 2019 [cited 2021 Aug 12]; 54(7): 1481-1486. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(19\)30137-X/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(19)30137-X/fulltext)
15. Carvalho NS, Helfer MT, Serni PO, Terasaka OA, Boute T, Araujo Junior E, et al. Postnatal outcomes of infants with gastroschisis: a 5-year follow-up in a tertiary referral center in Brazil. *J Matern Fetal Neonatal Med* [Internet]. Mar 2015 [cited 2021 Aug 12]; 29(3): 418-422. Available from: <https://www.tandfonline.com/doi/abs/10.3109/14767058.2014.1002764?journalCode=ijmf20>
16. Calcagnotto H, Müller ALL, Leite JCL, Sanseverino MTV, Gomes KW, Magalhães JAA. Fatores associados à mortalidade em recém-nascidos com gastrosquise. *Rev Bras Ginecol Obstet* [Internet]. Dec 2013 [cited 2021 Aug 12]; 35(12): 549-53. Available from: <https://www.scielo.br/j/rbgo/a/bf6tmZc3rg49rqynbBkVm3r/?lang=pt>

17. Tannuri ACA, Sbragia L, Tannuri U, Silva LM, Leal AJG, Schmidt AFS, et al. Evolution of critically ill patients with gastroschisis from three tertiary centers. *Clinics* [Internet]. 2011 [cited 2021 Aug 12]; 66(1): 17-20. Available from: <https://www.scielo.br/j/clin/a/WsKpdM7BNtF3jbBWXJrmbTg/?lang=en>
18. Vilela PC, Amorim MMR, Falbo GH, Santos LC. Risk Factors for Adverse Outcome of Newborns With Gastroschisis in a Brazilian Hospital. *J Pediatr Surg* [Internet]. Apr 2001 [cited 2021 Aug 12]; 36(4): 559-564. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(01\)69750-1/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(01)69750-1/fulltext)
19. Fernandes FCGM, Santos EGO, Barbosa IR. Age of first pregnancy in Brazil: data from the national health survey. *J Hum Growth Dev* [Internet]. 2019 [cited 2021 Aug 12]; 29(3): 304-312. Available from: <https://revistas.marilia.unesp.br/index.php/jhgd/article/view/9523>
20. Youssef F, Laberge JM, Puligandla P, Emil S, Canadian Pediatric Surgery Network (CAPSNet). Determinants of outcomes in patients with simple gastroschisis. *J Pediatr Surg* [Internet]. Feb 2017 [cited 2021 Aug 12]; 52(5): 710-714. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(17\)30051-9/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(17)30051-9/fulltext)
21. Overcash RT, DeUgarte DA, Stephenson ML, Gutkin RM, Norton ME, Parmar S, et al. Factors associated with gastroschisis outcomes. *Obstet Gynecol* [Internet]. Sep 2014 [cited 2021 Aug 12]; 124(3): 551-557. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4147679/>
22. Tosello B, Zahed M, Guimond F, Baumstarck K, Faure A, Michel F, et al. Management and Outcome Challenges in Newborns with Gastroschisis: A 6-year retrospective French study. *J Matern Fetal Neonatal Med* [Internet]. Dec 2017 [cited 2021 Aug 12]; 30(23): 2864-2870. Available from: <https://www.tandfonline.com/doi/abs/10.1080/14767058.2016.1265935?journalCode=ijmf20>
23. Raymond SL, Hawkins RB, St. Peter SD, Downard CD, Qureshi FG, Renaud E, et al. Predicting Morbidity and Mortality in Neonates Born With Gastroschisis. *J Surg Res* [Internet]. Jan 2020 [cited 2021 Aug 12]; 245: 217-224. Available from: [https://www.journalofsurgicalresearch.com/article/S0022-4804\(19\)30559-1/fulltext](https://www.journalofsurgicalresearch.com/article/S0022-4804(19)30559-1/fulltext)
24. Wesonga AS, Fitzgerald TN, Kabuye R, Kirunda S, Langer M, Kakembo N, et al. Gastroschisis in Uganda: Opportunities for improved survival. *J Pediatr Surg* [Internet]. Aug 2016 [cited 2021 Aug 12]; 51(11): 1772-1777. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(16\)30193-2/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(16)30193-2/fulltext)
25. Marshall Niles SG, Mitchell-Fearon K, Gill MI, DeSouza CJ, Fearon IC, Abel CA, et al. Mortality-related factors in gastroschisis a Jamaican perspective. *J Pediatr Surg* [Internet]. Apr 2017 [cited 2021 Aug 12]; 52(4): 530-533. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(16\)30506-1/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(16)30506-1/fulltext)
26. Zalles-Vidal C, Peñarrieta-Daher A, Bracho-Blanchet E, Ibarra-Rios D, Dávila-Perez R, Villegas-Silva R, et al. A Gastroschisis bundle: effects of a quality improvement protocol on morbidity and mortality. *J Pediatr Surg* [Internet]. Nov 2018 [cited 2021 Aug 12]; 53(11): 2117-2122. Available from: [https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468\(18\)30387-7/fulltext](https://www.jpedsurg.org/article/S0022-3468(18)30387-7/fulltext)
27. Haddock C, Skarsgard ED. Understanding gastroschisis and its clinical management: where are we? *Expert Rev Gastroenterol Hepatol* [Internet]. Apr 2018 [cited 2021 Aug 12]; 12(4): 405-415. Available from: <https://www.tandfonline.com/doi/abs/10.1080/17474124.2018.1438890?journalCode=ierh20>
28. Ramires de Jesus G, Ramires de Jesus N, Peixoto-Filho FM, Lobato G. Cesarean rates in Brazil: what is involved? *BJOG* [Internet]. Apr 2015 [cited 2021 Aug 12]; 122(5): 606-609. Available from: <https://obgyn.onlinelibrary.wiley.com/doi/10.1111/1471-0528.13119>
29. Du L, Pan WH, Cai W, Wang J, Wu YM, Shi CR. Delivery room surgery: an applicable therapeutic strategy for gastroschisis in developing countries. *World J Pediatr* [Internet]. Feb 2014; 10(1): 69-73. Available from: <https://link.springer.com/article/10.1007%2Fs12519-014-0455-3>
30. O'Connell RV, Dotters-Katz SK, Kuller JA, Strauss RA. Gastroschisis: A review of management and outcomes. *Obstet Gynecol Surv* [Internet]. Sep 2016 [cited 2021 Aug 12]; 71(9): 537-544. Available from: [https://journals.lww.com/obgynsurvey/Abstract/2016/09000/Gastroschisis\\_\\_A\\_Review\\_of\\_Management\\_and\\_Outcomes.18.aspx](https://journals.lww.com/obgynsurvey/Abstract/2016/09000/Gastroschisis__A_Review_of_Management_and_Outcomes.18.aspx)
31. Bhatt P, Lekshminarayanan A, Donda K, Dapaah-Siakwan F, Thakkar B, Parat S, et al. Trends in incidence and outcomes of gastroschisis in the United States: analysis of the national inpatient sample 2010-2014. *Pediatr Surg Int* [Internet] Sep 2018 [cited 2021 Aug 12]; 34(9): 919-929. Available from: <https://link.springer.com/article/10.1007%2Fs00383-018-4308-3>
32. Skarsgard ED. Management of gastroschisis. *Curr Opin Pediatr* [Internet] Jun 2016 [cited 2021 Aug 12]; 28(3): 363-369. Available from: [https://journals.lww.com/co-pediatrics/Abstract/2016/06000/Management\\_of\\_gastroschisis.17.aspx](https://journals.lww.com/co-pediatrics/Abstract/2016/06000/Management_of_gastroschisis.17.aspx)
33. Apfeld JC, Wren SM, Macheke N, Mbuwayesango BA, Bruzoni M, Sylvester KG, et al. Infant, maternal, and geographic factors influencing gastroschisis related mortality in Zimbabwe. *Surgery* [Internet] Dec 2015 [cited 2021 Aug 12]; 158(6): 1475-1480. Available from: [https://www.surgjournal.com/article/S0039-6060\(15\)00368-2/fulltext](https://www.surgjournal.com/article/S0039-6060(15)00368-2/fulltext)



34. Wesonga A, Situma M, Lakhoo K. Reducing gastroschisis mortality: a quality improvement initiative at a Ugandan pediatric surgery unit. *World J Surg* [Internet]. May 2020 [cited 2021 Aug 12]; 44(5): 1395-1399. Available from: <https://link.springer.com/article/10.1007%2Fs00268-020-05373-w>
35. Mota GAO, Shimizu GY, Lahoz ALC, Nicolau CM, Paula LCS, Maristela TCunha MT, Tanaka C. Motor performance evaluation of newborns with gastroschisis after surgical correction. *J Hum Growth Dev* [Internet]. 2021 [cited 2021 Aug 12]; 31(2): 217-223. Available from: <https://revistas.marilia.unesp.br/index.php/jhgd/article/view/12225/7517>
36. Allin BSR, Hall NJ, Ross AR, Marven SS, Kurinczuk JJ, Knight M, et al. Development of a gastroschisis core outcome set. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed* [Internet]. Jan 2019 [cited 2021 Aug 12]; 104(1): F76-F82. Available from: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6762000/>

## Abstract

**Introduction:** global disparity in outcomes of gastroschisis is visible. Survival rates in high-income countries have improved since 1960, and are currently around 100%, due to progress in pediatric surgery and neonatal intensive care. However, in low- and middle-income countries mortality rates can reach all cases.

**Objective:** this study aims to map the existing literature on gastroschisis in Brazil within a global context.

**Methods:** scoping Review. PubMed, Scielo Brazil, Biblioteca Virtual em Saúde (BVS) and Google Scholar, were searched from January 2000 to May 2020.

**Results:** eight studies met the inclusion criteria. The consolidated data of 912 patients were: Mean maternal age of 20.7 years, antenatal diagnosis rate of 80.2%, cesarean section rate of 77.7%. Mean of hospital stay of 40.8 days. Mean mortality rate of 25.3 %. Risk factors associated with death were: prematurity, low birth weight, low APGAR score, reinterventions, sepsis, birth-to-surgery interval greater than 4 hours, fewer prenatal visits, delayed prenatal diagnosis.

**Conclusion:** studies on gastroschisis in Brazil were scarce, most of carried out in southeast of country. This study suggests that there are regional contrasts on gastroschisis outcomes in Brazil. The worst results are in regions with low economic resources, a similar situation found in international literature. This review should be validated with future studies to investigate the situation of pregnant women with fetuses with gastroschisis, especially in low-resource regions, in Brazil.

**Keywords:** Brazil, congenital abnormalities, gastroschisis, newborn, pregnancy outcome.

©The authors (2022), this article is distributed under the terms of the Creative Commons Attribution 4.0 International License (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided you give appropriate credit to the original author(s) and the source, provide a link to the Creative Commons license, and indicate if changes were made. The Creative Commons Public Domain Dedication waiver (<http://creativecommons.org/publicdomain/zero/1.0/>) applies to the data made available in this article, unless otherwise stated.