

UNIVERSIDADE ESTADUAL PAULISTA
FACULDADE DE FILOSOFIA E CIÊNCIAS
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM FONOAUDIOLOGIA

PAULA ROBERTA NOGUEIRA

**PERFIL DA FLUÊNCIA E FREQUÊNCIA DA GAGUEIRA DO
DESENVOLVIMENTO PERSISTENTE FAMILIAL**

MARÍLIA
2015

PAULA ROBERTA NOGUEIRA

**PERFIL DA FLUÊNCIA E FREQUÊNCIA DA GAGUEIRA DO
DESENVOLVIMENTO PERSISTENTE FAMILIAL**

Dissertação apresentada ao Programa de Pós-Graduação em Fonoaudiologia da Faculdade de Filosofia e Ciências – UNESP – Campus de Marília, para obtenção do título de Mestre.

Área de Concentração: Prevenção, avaliação e terapia em Fonoaudiologia.

Orientador: Prof.º Dr.º Danilo Moretti-Ferreira

Co-orientadora: Prof.ª Dr.ª Cristiane Moço Canhetti de Oliveira

Apoio: Coordenação de Aperfeiçoamento Pessoal de Nível Superior - CAPES

MARÍLIA
2015

Nogueira, Paula Roberta.
N778p Perfil da fluência e frequência da gagueira do desenvolvimento persistente familiar / Paula Roberta Nogueira. – Marília, 2015.
99 f. ; 30 cm.

Dissertação (Mestrado em Fonoaudiologia) –
Universidade Estadual Paulista, Faculdade de Filosofia e Ciências, 2015.

Bibliografia: f. 79-91

Orientador: Danilo Moretti-Ferreira.

Co-orientadora: Cristiane Moço Canhetti de Oliveira

1. Fonoaudiologia. 2. Fala. 3. Distúrbios da Fala. 4.
Gagueira – Aspectos genéticos. I. Título.

CDD 616.8554

PAULA ROBERTA NOGUEIRA

PERFIL DA FLUÊNCIA E FREQUÊNCIA DA GAGUEIRA DO DESENVOLVIMENTO
PERSISTENTE FAMILIAL

Dissertação para obtenção do título de Mestre, da Faculdade de Filosofia e Ciências, da
Universidade Estadual Paulista – UNESP – Campus de Marília, na área de concentração:
Prevenção, avaliação e terapia em Fonoaudiologia.

BANCA EXAMINADORA

Orientador: _____
Prof.º Dr.º Danilo Moretti-Ferreira – Orientador
Universidade Estadual Paulista - UNESP - Faculdade de Filosofia e Ciências.

2ª Examinadora: _____
Prof.ª Dr.ª Ana Maria Schiefer – Examinadora
Universidade Federal de São Paulo – UNIFESP.

3º Examinadora: _____
Prof.ª Dr.ª Célia Maria Giacheti – Titular – Examinadora
Universidade Estadual Paulista - UNESP - Faculdade de Filosofia e Ciências.

Marília, 11 de Fevereiro de 2015.

DEDICATÓRIAS ESPECIAIS

À Deus, meu maior orientador, que me conduziu em todos os caminhos me auxiliando sempre nas escolhas, dedico cada linha deste trabalho. Agradeço por me guiar sempre para as melhores decisões durante toda minha vida, e em especial durante o Mestrado.

Aos meus queridos pais, Felisberto e Ivani, que sempre apoiaram minhas escolhas e me auxiliaram de todas as maneiras em minha trajetória escolar. A vocês, meu orgulho e minha admiração porque souberam oferecer a melhor educação a mim e aos meus irmãos, para sermos pessoas dignas e merecedoras de alegrias como esta que estou recebendo.

Aos meus irmãos, Paulo e Pheterson, que me apoiaram, ajudaram e incentivaram para que eu pudesse concretizar este trabalho, diminuindo com carinho a distância da nossa família. A vocês, queridos irmãos, meu eterno amor e carinho, estarei sempre ao lado de vocês.

Aos meus futuros sogros, Luís e Roseli, que com doçura, conduzindo-me sempre como “pais” em todas minhas decisões. Com carinho, dedico estas palavras para eternizar assim minha admiração e amor por vocês.

Aos meus tios e tias que com tranquilidade e alegria souberam sempre guiar-me para pensamentos otimistas e felizes.

Às minhas companheiras de cinco anos, Moniane e Renata, que aceitaram dividir comigo, dentre muitas coisas, o verdadeiro significado da palavra amizade, a vocês, queridas amigas, minha admiração e orgulho. Obrigada.

Ao meu namorado e amigo, Caio, que com carinho e amor e muita paciência, com grandes abraços de incentivo e de coragem, soube me guiar para lugares onde jamais iria conseguir chegar sozinha. Agradeço muito pelos momentos felizes e tristes, e principalmente pelo apoio e incentivo incondicional para eu realizar este Mestrado.

AGRADECIMENTOS

Ao Programa de Pós-graduação da Faculdade de Filosofia e Ciências – Campus de Marília por todo apoio acadêmico e financeiro durante o período do Mestrado.

A meu orientador, Prof.º Dr.º Danilo Moretti-Ferreira, que acreditou e confiou no meu trabalho e pela grande oportunidade que tive em aprender mais sobre pesquisa científica e genética.

A minha co-orientadora, Prof.^a Dr.^a Cristiane Moço Canhetti de Oliveira, que acreditou e confiou no meu trabalho desde o segundo ano de faculdade, orientando-me muitas vezes além das linhas científicas à senhora, professora, a minha admiração, carinho e votos de muito sucesso e alegrias.

Aos funcionários e professores do Programa de Pós-graduação da Faculdade de Filosofia e Ciências.

Às professoras membros da Banca de Qualificação, Prof.^a Dr.^a Célia Maria Giacheti e a Prof.^a Dr.^a Ana Maria Schiefer, pelas sugestões oferecidas que auxiliaram na elaboração desta dissertação.

Aos meus professores e aos funcionários da graduação da Faculdade de Filosofia e Ciências – Campus de Marília.

Aos membros do Laboratório de Estudos da Fluência - LAEF, pelos momentos de aprendizagem e estudos, e principalmente pela amizade.

Às Fonoaudiólogas Michele Fiorin e Paula Bianca Meireles Dias, pela amizade e companheirismo durante essa caminhada.

Aos amigos de Itapetininga, que entenderam minha ausência durante todo o período que estive em Marília. Aos amigos que fiz em Marília que estiveram comigo durante todo tempo e pela amizade que levarei.

As alunas de graduação com quem eu tanto aprendi no estágio de docência, a vocês todo meu carinho.

À Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal de Nível Superior – CAPES, pela credibilidade e pelo financiamento de minha pesquisa.

Aos pais e pacientes com disfluências, que aceitaram participar desse trabalho, acreditando e confiando na pesquisa realizada, mesmo sabendo que não poderiam ter benefício imediato, minha admiração e agradecimentos sinceros por tudo que aprendi durante todo o período de convívio com todos vocês.

“Nas grandes batalhas da vida, o primeiro passo para a vitória é o desejo de vencer.”

Mahatma Gandhi

RESUMO

Gagueira é um distúrbio da fluência caracterizado pelas rupturas atípicas excessivas na formulação linguística, prejudicando a suavidade da fala. Fatores genéticos podem estar envolvidos na transmissão da gagueira. O objetivo deste estudo foi caracterizar o perfil da fluência de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar e determinar a frequência familiar e sexual do distúrbio nos familiares. Participaram 100 indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar, de ambos os sexos, na faixa etária de 5 a 59 anos, com os seguintes critérios de inclusão: queixa de gagueira, o início do distúrbio deve ter ocorrido durante a infância, duração mínima de 36 meses das DTG (disfluências típicas da gagueira), apresentar mínimo de 3% de DTG, pontuação mínima de 11 pontos (crianças) ou de 18 pontos (adolescentes acima de 17 anos) no Instrumento de Gravidade da Gagueira (*Stuttering Severity Instrument* - SSI- 3). Os procedimentos utilizados foram: história clínica e familiar, avaliação da fluência e Instrumento de Gravidade da Gagueira. A análise estatística foi realizada por meio de testes específicos para comparação das variáveis nas diferentes classes etárias, bem como para comparação em relação ao sexo feminino e masculino.

Os resultados mostraram uma média de 13,25% do total das disfluências e 6,92% de disfluências típicas da gagueira. A gravidade leve foi a mais frequente (45%). Houve diferença significativa na frequência da gagueira em familiares do sexo masculino em relação ao feminino ($p= 0,042$). Pode-se concluir que o perfil da fluência apresentou características diferentes do perfil da fluência de fluentes. Indivíduos com gagueira manifestaram maior quantidade de disfluências típicas da gagueira e do total de disfluências quando comparados com fluentes. No entanto, os achados sobre a taxa de elocução foram diversos e não conclusivos com relação aos fluentes. Indivíduos com gagueira manifestaram maior prevalência de disfluências típicas da gagueira em relação às outras disfluências. Com relação à gravidade do distúrbio, houve um predomínio do subtipo leve. A comparação da fluência entre as diferentes classes etárias analisadas mostrou que o grupo comportou-se semelhante aos indivíduos fluentes, ou seja, uma tendência de redução das disfluências e aumento da taxa de elocução com o passar dos anos. No entanto, vale destacar que, as mulheres mostraram uma tendência de apresentar maior redução das disfluências ao longo da vida do que os homens. Os indivíduos do sexo masculino e feminino não apresentaram diferenças quanto às frequências de disfluências, a taxa de elocução e a gravidade da gagueira. A frequência da gagueira foi maior nos familiares de primeiro grau em relação aos de segundo e terceiro grau. Indivíduos do sexo masculino apresentaram maior frequência da gagueira em relação ao feminino, numa razão masculino:feminino de 3:1. Baseado nestes achados é possível afirmar que o perfil da fluência de uma grande amostra de falantes do português brasileiro com gagueira do desenvolvimento persistente familiar, não diferiu das grandes amostras do inglês americano, demonstrando o caráter biológico (genético) da gagueira do desenvolvimento persistente familiar.

Palavras-Chave: Fonoaudiologia; Fala; Distúrbios da fala; Gagueira; Genética; Avaliação.

ABSTRACT

Stuttering is a fluency disorder characterized by excessive atypical ruptures in the linguistic formulation, in which a person has difficulty in producing smooth speech. Genetic factors may be involved in the stuttering transmission. In this sense, objective assessments and family history plays a key role in both the initial diagnosis and in controlling disease progression. Accordingly, the purpose of this study was to characterize the fluency profile of individuals with familial persistent developmental stuttering and determine the familial and sexual frequency of the disorder in the family. Participants were 100 individuals with familial persistent developmental stuttering of both gender, aged 5-59 years, with the following inclusion criteria: stuttering complaining, onset of stuttering must have occurred during childhood, minimum duration of 36 months typical of stuttering-like disfluencies, present minimum of 3% of stuttering-like disfluencies, minimum score of 11 points (children) or 18 points (teenagers aged 17 and over) in the Stuttering Severity Instrument - SSI-3. The following procedures were used: clinical and familial history, fluency assessment and Stuttering Severity Instrument. Statistical analysis was performed using specific tests to compare the variables in the different age groups, as well as a comparison of their female and male.

Our results showed about 13.25% of all disfluencies and 6.92% of stuttering-like disfluencies. The mild severity was the most common (45%). There was a significant difference in the frequency of stuttering in male relatives over female ($p = 0.042$). We conclude that the fluency profile showed different characteristics when compared to the fluency profile of fluency. However, findings on the speech rate were dispersed and not conclusive with respect fluents. Stuttering individuals showed greater prevalence of stuttering-like disfluencies in respect to other disfluencies. Regarding the stuttering severity, there was a predominance of mild subtype. Comparing fluency between the different ages groups analyzed it was showed that the group behaved similarly to fluent individuals, ie, a tendency to reduce disfluencies and increased speech rate over the years. In spite of that, it is noteworthy that women showed a tendency of further reduction of disfluencies lifelong than men. The male and female subjects showed no differences in disfluencies frequency, in speech rate and stuttering severity. The frequency of stuttering was higher in relatives of first degree compared to the second and third degree. Males had a higher frequency of stuttering comparing to females, by ratio male:female 3:1.

Based on these findings it is clear that the profile of the flow of a large sample of speakers of Brazilian Portuguese with stuttering familial persistent development, not different from the great American English samples, demonstrating the biological nature (genetic) of stuttering familial persistent development.

Key-words: Speech, Language and Hearing Sciences; Speech; Speech Disorders; Stuttering; Genetics; Evaluation.

LISTA DE TABELAS

Tabela 1 – Distribuição dos indivíduos com gagueira quanto à classificação etária.....	44
Tabela 2 – Valores dos resultados da porcentagem de disfluências típicas da gagueira dos indivíduos.....	52
Tabela 3 – Valores dos resultados da porcentagem das outras disfluências dos indivíduos....	52
Tabela 4 – Valores encontrados da frequência de disfluências, da taxa de elocução, número de indivíduos e porcentagem segundo a gravidade da gagueira de acordo com a classificação etária.....	54
Tabela 5 – Valores encontrados da porcentagem de disfluências típicas da gagueira no grupo masculino e feminino por classificação etária.....	55
Tabela 6 – Valores encontrados da porcentagem das outras disfluências no grupo masculino e feminino por classificação etária.....	56
Tabela 7 – Valores encontrados da porcentagem do total de disfluências no grupo masculino e feminino por classificação etária.....	57
Tabela 8 – Valores encontrados da frequência das disfluências no grupo masculino e feminino.....	57
Tabela 9 – Valores encontrados da média e do desvio padrão do fluxo de sílabas e de palavras por minuto, de acordo com a classificação etária.....	58
Tabela 10 – Valores encontrados no fluxo de sílabas e de palavras por minuto por classificação etária do grupo feminino.....	59
Tabela 11 – Valores encontrados no fluxo de sílabas e de palavras por minuto nas diferentes classes etária do grupo masculino.....	60
Tabela 12 – Valores encontrados do fluxo de sílabas e de palavras por minuto no grupo masculino e feminino.....	60
Tabela 13 – Valores encontrados sobre o número e a porcentagem das diferentes gravidades da gagueira de acordo com a classificação etária.....	61
Tabela 14 – Escore da frequência, da duração e dos concomitantes físicos e escore total dos indivíduos do grupo de adultos com gagueira conforme o Instrumento de Gravidade da Gagueira.....	62
Tabela 15 – Valores encontrados do número e porcentagem das diferentes gravidades da gagueira de acordo com os sexos masculino e feminino.....	62

Tabela 16 – Valores encontrados das diferentes gravidades da gagueira de acordo com a classificação etária.....	63
Tabela 17 – Frequência familiar da gagueira em parentes dos probandos, representada pelo número de indivíduos gagos do sexo masculino e feminino divididos pelo número total de parentes do sexo masculino e feminino.....	64
Tabela 18 – Frequência familiar da gagueira distribuída em familiares de primeiro grau, segundo e terceiro grau.....	64
Tabela 19 – Frequência de gagueira nos familiares dos probandos do sexo masculino e feminino de acordo com o grau de parentesco.....	65
Tabela 20 – Distribuição dos familiares afetados de acordo com o sexo e a razão masculino/feminino.....	66

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

A	Adolescentes
ABFW	Teste de Linguagem Infantil – ABFW
C.E	Classe etária
CEES	Centro de Estudos da Educação e Saúde
CEP	Comitê de Ética em Pesquisa
CONEP	Comissão Nacional de Ética em Pesquisa
CNS	Conselho Nacional de Saúde
DP	Desvio Padrão
DTG	Disfluências Típicas da Gagueira
E	Escolares
Fem.	Feminino
G	Grave
L	Leve
LAEF	Laboratório de Estudos da Fluência
M	Moderada
MD	Mediana
Min	Mínimo
MG	Muito Grave
Masc.	Masculino
Mat	Materno
Máx	Máximo
N	Número
OD	Outras Disfluências
Pat	Paterno
PE	Pré Escolares
PPM	Palavras por Minuto
RP	Repetição de palavras
SSI-3	Instrumento de Gravidade da Gagueira
SPM	Sílabas por Minuto
TCLE	Termo de Consentimento Livre e Esclarecido
TD	Total de Disfluências
UNESP	Universidade Estadual Paulista
\bar{X}	Média
%	Porcentagem

SUMÁRIO

1.0 INTRODUÇÃO.....	13
2.0 REVISÃO DA LITERATURA.....	16
2.1 Fluência	17
2.2 Gagueira	24
3.0 JUSTIFICATIVAS E HIPÓTESES	36
4.0 OBJETIVO.....	39
5.0 MATERIAL E MÉTODO	41
5.1 Aspectos éticos	42
5.2 Casuística	42
5.3 Seleção dos participantes.....	42
5.4 Descrição dos indivíduos.....	43
5.5 Procedimentos	44
5.5.1 Assinatura do Termo de Consentimento Pós-informado.....	44
5.5.2 Histórico familiar.....	45
5.5.3 Avaliação da fluência.....	45
5.5.4 Instrumento de Gravidade da Gagueira.....	46
6.0 PROCEDIMENTOS ESTÁTISTICOS.....	47
7.0 RESULTADOS.....	50
8.0 DISCUSSÃO.....	67
9.0 CONCLUSÃO.....	77
REFERÊNCIAS	79
ANEXOS.....	93
APÊNDICE.....	98

INTRODUÇÃO

1.0 - INTRODUÇÃO

Gagueira é um distúrbio da fluência caracterizado pelas rupturas atípicas excessivas durante a formulação linguística do discurso (BLEEK et al., 2012; CIVIER et al., 2013; COOK; DONLAN; HOWELL, 2013; LOGAN; MULLINS; JONES, 2008; TRAN; BLUMGART; CRAIG, 2011), prejudicando a suavidade (SASISEKARAN, 2013) e o tempo da fala (LIU et al., 2014). Sua principal manifestação é a falha intermitente do sistema nervoso em gerar sinais de comando apropriado para os músculos dos quais a atividade deve ser controlada dinamicamente para a fala fluente ser produzida (SMITH et al., 2010).

A medida de porcentagem de disfluências típicas da gagueira é considerada como “padrão ouro” da avaliação comportamental do distúrbio (KARIMI et al., 2014). Neste sentido, avaliações objetivas têm um papel importante não somente na etapa inicial do diagnóstico, como também no controle da evolução do distúrbio (OLIVEIRA C.M.C. et al., 2012). Além disso, a classificação da gravidade da gagueira também é indicada no processo de avaliação (BAKHTIAR et al., 2010; HOWELL, 2013; KARIMI et al., 2014; RILEY, 1994; SASISEKARAN, 2013), pois além de aprimorar o diagnóstico fonoaudiológico, auxiliará no controle da eficácia terapêutica.

A gagueira é o mais conhecido distúrbio da fluência e o que apresenta maior prevalência na população (VAN BORSEL et al., 2014). Para alguns estudiosos a gagueira que começa na infância está entre os mais prevalentes distúrbios do desenvolvimento (ONSLow; O'BRIAN, 2013), e é intitulada como gagueira do desenvolvimento. Muitas crianças recuperam espontaneamente da gagueira, principalmente nos primeiros 12 meses após o início das disfluências (YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI et al., 1996). No entanto, a gagueira pode persistir por mais de 36 meses, e neste caso é chamada de gagueira do desenvolvimento persistente (YAIRI; AMBROSE; COX, 1996).

Historicamente, há uma variedade de explicações etiológicas para a gagueira (RAUTAKOSKI et al., 2012), e apesar de sua origem ainda não ser bem compreendida (DOMINGUES et al., 2014), há um consenso de que fatores genéticos atuam em aproximadamente metade dos casos de gagueira do desenvolvimento persistente (DRAYNA; KILSHAW; KELLY, 1999).

Nos casos em que há recorrência familiar, ou em que dois ou mais indivíduos da mesma família são acometidos pela gagueira, esta é denominada familiar (YAIRI et al., 1996). Este subgrupo de gagueira que tem seu início na infância, cujas disfluências típicas da gagueira persistem por 36 meses ou mais, e que tem outros familiares afetados é denominado

Gagueira do Desenvolvimento Persistente Familiar, e é o subtipo do distúrbio mais prevalente. Neste sentido, pesquisas devem ser realizadas para aprimorar os conhecimentos fonoaudiológicos e genéticos deste subtipo do distúrbio, o que propiciará uma prática mais eficaz, tanto em nível de prevenção, como de diagnóstico e de intervenção.

Desta forma, buscando aprimorar o conhecimento deste subtipo de gagueira em relação aos aspectos fonoaudiológicos e genéticos, essa dissertação apresentará à comunidade científica achados sobre o perfil da fluência da fala de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar, e os resultados obtidos referentes à frequência familiar e sexual do distúrbio nos familiares de 100 probandos.

REVISÃO DA LITERATURA

2.0 - REVISÃO DA LITERATURA

Este capítulo apresenta a revisão da literatura que proporcionou os conhecimentos teóricos baseados para a realização desta investigação. Para melhor compreensão, as informações foram separadas nos seguintes tópicos: fluência e gagueira.

2.1 Fluência

O estudo sobre fluência nesta dissertação é relevante uma vez que indivíduos com gagueira apresentam prejuízos na fluência do fluxo da fala. Estas disfluências, ou descontinuidades, ou também nomeadas de rupturas que ocorrem na fala podem interferir nas habilidades cognitivas, emocionais, sociais e linguísticas do falante.

Starkweather em 1987 descreveu os parâmetros que caracterizam a fluência, ou seja, a continuidade, a velocidade, o ritmo e o esforço. Esta descrição foi fundamental e faz parte da definição de fluência proposta pela ASHA (1999): *“Fluência é um aspecto de produção da fala que diz respeito à continuidade, suavidade, velocidade e/ou esforço, com as quais as unidades da linguagem fonológica, lexical, morfológica e/ou sintática são expressas”*.

A fala fluente é contínua, e por isso a disfluência é reconhecida como um fator distrativo, pois a mensagem é interrompida, ocasionando prejuízos na comunicação e chamando a atenção do ouvinte, sem contribuir com informação (STARKWEATHER, 1991). No entanto, a fala fluente é mais do que uma fala sem disfluência, ela também é pronta e rápida, além de ocorrer com um ritmo adequado e ser produzida pelo falante de forma suave, sem esforço.

Vale ressaltar que, a fluência da fala é um parâmetro que fornece dados importantes quanto à maturidade linguística do indivíduo (VAN et al., 2012). O falante fluente é aquele capaz de produzir longas sequências de sílabas, sem esforço, combinando emissões rápidas e contínuas, permitindo que sua emissão seja o reflexo próximo de sua intenção (ANDRADE, 2004).

A questão linguística da fluência também foi ressaltada por Merlo (2006), que descreveu que a fluência requer, necessariamente, o desenvolvimento de mecanismos linguísticos que diminuam a carga de processamento da informação, originando enunciados mais longos e complexos.

Neste contexto, disfluências foram definidas como interrupções do fluxo da fala (AMBROSE; YAIRI, 1999), e ocorrem tanto na fala de pessoas com gagueira como na fala de pessoas fluentes (AMBROSE; YAIRI, 1999). O termo disfluência é utilizado para as interrupções comuns, também chamadas de outras disfluências, e para as interrupções típicas da gagueira. Devido à complexidade do processo da fala, todos os falantes apresentam momentos de disfluências, frequentemente caracterizadas como outras disfluências (BLOODSTEIN, 1995; CORDES; INGHAM, 1995; DEGIOVANI; CHIARI; SCHIEFER, 1999; DUCHIN; MYSAK, 1987; LEEPER; CULATTA, 1995; PERKINS, 1990; YAIRI; AMBROSE, NIERMAN, 1993; ZACKIEWICZ, 1999).

As outras disfluências, que ocorrem na fala de qualquer pessoa, parecem evidenciar incertezas linguísticas relacionadas à formulação das frases ou pronúncia das palavras (PERKINS, 1990). Vários fatores justificam a variabilidade da ocorrência destas disfluências, tais como: (1) nível de demanda da linguagem de determinada situação em termos linguísticos e cognitivos (DUCHIN; MYSAK, 1987; GORDON; LUPER, 1989; LEEPER; CULATTA, 1995); (2) grau de familiaridade com o tópico, e; (3) interrupções e taxa de elocução do interlocutor (INGHAM; RILEY, 1998; RATNER, 1995), entre outros.

Em termos qualitativos, as outras disfluências são caracterizadas como: interjeição, hesitação, revisão, palavras incompletas, repetição de frase e repetição de palavras - até duas (CAMPBELL; HILL, 1998; GREGORY; HILL 1993; PINTO, 2012; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI et al., 1999).

Além das outras disfluências, a fluência pode ser interrompida pelas disfluências típicas da gagueira, que são os comportamentos descritos como característicos da fala de indivíduos gagos (BLOODSTEIN, 1995; BLOODSTEIN; GROSSMAN, 1981; CAMPBELL; HILL, 1998; GREGORY; HILL, 1993; LEEPER; CULATTA, 1995; PETERS; GUITAR, 1991; SCHWARTZ; CONTURE, 1988; THRONEBURG; YAIRI; PADEN, 1994; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI; AMBROSE, NIERMAN, 1993; ZACKIEWICZ, 1999).

As disfluências típicas da gagueira parecem evidenciar uma ruptura na fala relacionada à sua execução motora (BLOODSTEIN; GROSSMAN, 1981), e talvez por este motivo estas disfluências não apresentem muita variabilidade em decorrência de contextos de fala diferentes (ANDREWS et al., 1983; DUCHIN; MYSAK, 1987; HOOD, 1975; ZACKIEWICZ, 1999).

Qualitativamente as disfluências típicas da gagueira podem ser classificadas em: repetição de palavras - acima de três, repetição de sílabas, repetição de som, bloqueio, prolongamento, pausa e intrusão (ANDRADE, 2011; CAMPBELL; HILL, 1998; GREGORY;

HILL 1993; PINTO, 2012; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI et al., 1999). Outra característica qualitativa descrita por alguns pesquisadores é que frequentemente estas disfluências ocorrem dentro da palavra (OLIVEIRA, C.M.C. et al, 2012; OLIVEIRA, 2013; SAWYER; YAIRI, 2006).

Apesar de estas disfluências serem típicas da gagueira, indivíduos fluentes também podem apresentar alguns eventos de disfluências típicas da gagueira (AMBROSE; YAIRI, 1999; DUTCHIN; MYSAK, 1987; LEPPER; CULATTA, 1995; MANNING; MONTE, 1981; SEARL; GABEL; FULKS, 2002; YAIRI; CLIFTON, 1972; ZACKIEWICZ, 1999), no entanto, geralmente ocorrem num quantidade máxima de 2,0% (AMBROSE; YAIRI, 1999; CELESTE; RUSSO; FONSECA, 2013; FRANKEN et al., 1995; HOWELL; SACKIN; GLENN, 1997; INGHAM; RILEY, 1998; MARTINS; ANDRADE, 2008; NATKE et al., 2006; SCHWARTZ; CONTURE, 1988; THRONEBURG; YAIRI, 2001).

Para determinar o quanto o indivíduo foi disfluyente, ou a descontinuidade de sua fala, a soma das outras disfluências com as disfluências típicas da gagueira deve ser realizada, obtendo-se assim o total das disfluências. Os valores máximos de porcentagem de descontinuidade da fala em geral são de até 10% (DUCHIN; MYSAK, 1987; LEEPER; CULATTA, 1995; MANNING; MONTE, 1981; MARTINS; ANDRADE, 2008; SEARL; GABEL; FULKS, 2002; YAIRI; CLIFTON, 1972).

Portanto, o conhecimento dos diferentes tipos de disfluências é fundamental para o diagnóstico fonoaudiológico. Sendo assim, para avaliar a fluência de um indivíduo, é necessário considerar a tipologia e a frequência das rupturas, entre outros parâmetros. O tipo e a frequência do aparecimento da ruptura na fala do interlocutor são os fatores que irão diferenciar um falante fluente de um falante que gagueja, e nestes, indicar a gravidade do distúrbio (BRITTO-PEREIRA, 2003).

Outra forma de distinguir as disfluências apresentadas por todos os falantes e aquelas mais típicas de indivíduos com gagueira, é separar as disfluências que ocorrem entre as palavras daquelas que ocorrem dentro das palavras (CONTURE, 2000).

O grau da fluência varia de um indivíduo para outro e num mesmo indivíduo, dependendo do dia, das emoções, do domínio sobre o tema da conversação e das diferentes situações de fala (ANDRADE, 2004; ZACKIEWICZ, 1999).

A fluência da fala é um parâmetro importante da comunicação, que pode evidenciar dificuldades relacionadas à fala e à linguagem. Devido à sua relevância, estudos que caracterizaram o perfil da fluência ou que estudaram os aspectos da fluência foram realizados em diversas populações. No entanto, para esta pesquisa é interessante analisar o perfil da

fluência de fluentes e de indivíduos com gagueira (ANDRADE, 2006b; ANDRADE; MARTINS, 2007; DUCHIN; MYSAK, 1987; MARTINS; ANDRADE, 2008; SEARL; GABEL; FULKS, 2002).

Inicialmente os achados sobre o perfil da fluência de pessoas sem queixa fonoaudiológica serão apresentados.

Para a Língua Inglesa, estudos que verificaram a ocorrência de disfluências em falantes fluentes vêm sendo realizados desde a década de 30 (DAVIS, 1940; JOHNSON, 1942; METRAUX, 1950; STEER, 1937). No Brasil é possível encontrar parâmetros comparativos da fluência diferenciados por idade: crianças, adolescentes, adultos e idosos (ANDRADE, 2006b; ANDRADE; MARTINS, 2007; MARTINS; ANDRADE, 2008).

Em geral, as medidas analisadas para a caracterização do perfil da fluência englobaram aspectos qualitativos e quantitativos. Entre os qualitativos mais estudados encontram-se a distinção dos diferentes tipos de disfluências e sua caracterização como outras disfluências ou disfluências comuns, ou como disfluências típicas da gagueira ou disfluências gagas. Os aspectos quantitativos dizem respeito principalmente às porcentagens de disfluências típicas da gagueira e do total das disfluências (soma as outras disfluências com as disfluências típicas da gagueira), bem como a taxa de elocução medida pelo fluxo de sílabas e de palavras por minuto.

Com relação à variação quantitativa do total das disfluências nas diferentes faixas etárias, os resultados das pesquisas não foram conclusivos, pois mostraram dados contraditórios. Yairi e Clifton (1972) apontaram que adolescentes apresentaram menos disfluências do que crianças e idosos. Outros investigadores relataram aumento nas disfluências dos adultos para os idosos, seguidos de uma diminuição nos indivíduos mais idosos (LEPPER; CULATTA, 1995; MANNING; MONTE, 1981).

Com respeito aos tipos de disfluências mais frequentes na fala de crianças fluentes, a literatura mostrou que com relação às outras disfluências foram: hesitação e interjeição (YAIRI et al., 1999); repetição de palavra, revisão e hesitação (CARLO; WATSON, 2003) e, hesitação (JUSTE; ANDRADE, 2006). As disfluências típicas da gagueira que apresentaram maior ocorrência na fala de crianças fluentes foram: repetição de palavra monossilábica (YAIRI et al., 1999); prolongamento (CARLO; WATSON, 2003) e, prolongamento e pausa (JUSTE; ANDRADE, 2006). Vale destacar que o último estudo não encontrou a presença de bloqueios e intrusões na fala das crianças fluentes.

Um estudo realizado com 130 adolescentes (79 do sexo feminino e 51 do sexo masculino), com idade entre 12 e 17 anos mostrou que o grupo feminino apresentou uma

média de 2,65% de disfluências típicas da gagueira, e o grupo masculino 2,27% (ANDRADE; MARTINS, 2007). As autoras encontraram uma média de 9,56% de descontinuidade da fala no grupo feminino e de 9,59% no grupo masculino. Nenhuma diferença significativa foi encontrada em relação às frequências de disfluências entre os sexos feminino e masculino.

O perfil evolutivo da fluência da fala de 594 indivíduos fluentes, de ambos os sexos, com idades entre 2:0 e 99:11 anos, falantes do Português Brasileiro, divididos de acordo com a faixa etária, foi analisado e os resultados mostraram que ao longo das idades não houve diferença estatisticamente significativa para os índices das rupturas (comuns ou total das disfluências), embora algumas variações isoladas foram identificadas (MARTINS; ANDRADE, 2008). As autoras concluíram que a maturação do sistema neurolinguístico para a fluência, no que se refere às rupturas, parece se estabelecer já nos primeiros anos de vida e tendem a se manter inalteradas ao longo da vida.

Apesar de não ter ocorrido variação estatisticamente significativa, os resultados sobre as disfluências comuns e o total das disfluências indicaram uma instabilidade que vai da infância até o final da adolescência, seguida de uma estabilização na fase adulta, uma diminuição aos 60-70 anos e um posterior aumento a partir dos 80 anos (MARTINS; ANDRADE, 2008).

Em geral, o valor máximo do total das disfluências ou da descontinuidade da fala apontado nos estudos com pessoas fluentes é de 10% (DUCHIN; MYSAK, 1987; GREGORY; HILL 1993; LEEPER; CULATTA, 1995; MANNING; MONTE, 1981; MARTINS; ANDRADE, 2008; SEARL; GABEL; FULKS, 2002; YAIRI; CLIFTON, 1972). No entanto, estudiosos também relataram que algumas pessoas manifestaram valores maiores do que os 10% do total das disfluências (LEPPER; CULATTA, 1995; MARTINS; ANDRADE, 2008; SEARL; GABEL; FULKS, 2002).

Referentes às disfluências típicas da gagueira, ou chamadas de disfluências gagas por Martins e Andrade (2008), a variação encontrada entre os 594 indivíduos fluentes de 2 a 99 anos, não foi estatisticamente significativa. Os resultados mostraram algumas variações isoladas: os idosos de 60 a 79 anos apresentaram menos disfluências gagas que os adolescentes na fase final da adolescência; e as crianças em idade escolar apresentaram mais disfluências gagas que os idosos de 70 a 79 anos (MARTINS; ANDRADE, 2008).

Quantitativamente, o número de disfluências típicas da gagueira ou de disfluências gagas é baixo nas pessoas fluentes (AMBROSE; YAIRI, 1999; CELESTE; RUSSO; FONSECA, 2013; FRANKEN et al., 1995; HOWELL; SACKIN; GLENN, 1997; INGHAM;

RILEY, 1998; MARTINS; ANDRADE, 2008; NATKE et al., 2006; SCHWARTZ; CONTURE, 1988; THRONEBURG; YAIRI, 2001).

Boey e colaboradores (2007) analisaram as disfluências típicas da gagueira numa população de 79 crianças holandesas e encontraram uma média de 0,42 eventos destas disfluências.

Vale destacar que, os dados sobre as disfluências de pessoas fluentes também mostraram que ocorreu grande variabilidade na quantidade de disfluências (MARTINS; ANDRADE, 2008). Outra informação relevante sobre o perfil da fluência de pessoas fluentes foi que os resultados, em geral, mostraram um predomínio das outras disfluências quando comparadas com as disfluências típicas da gagueira (JUSTE; ANDRADE, 2006; MARTINS; ANDRADE, 2008). Por exemplo, num estudo com 20 crianças fluentes, Juste e Andrade (2006) encontraram uma média de 13 eventos de disfluências comuns e de 1,22 eventos de disfluências gagas.

Os fluxos de sílabas e de palavras por minuto, que representam a taxa de elocução ou a velocidade de fala, outro importante parâmetro da fluência, mostraram variações entre as diversas fases da vida. Os resultados dos estudos apontaram para um aumento da velocidade de fala entre as fases da infância e adulta (MARTINS; ANDRADE, 2008), seguida de uma diminuição com o envelhecimento (LEPPER; CULATTA, 1995; DUCHIN; MYSAK, 1987; MARTINS; ANDRADE, 2008; SEARL; GABEL; FULKS, 2002).

Portanto, as variações encontradas nos fluxos de sílabas e de palavras por minuto indicaram que os padrões desses fluxos são adquiridos, desenvolvidos, estabilizados e posteriormente sofrem degeneração (MARTINS; ANDRADE, 2008).

Essas variações da taxa de elocução ao longo da vida podem ser explicadas com base no desenvolvimento dos processos motores para a fala (MARTINS; ANDRADE, 2008), que se estende após os 16 anos de idade, podendo se estabelecer por volta dos 21 anos (WALSH; SMITH, 2002). Com o envelhecimento pode ocorrer uma instabilidade no controle motor da fala propiciando uma redução da velocidade de fala (MARTINS; ANDRADE, 2008).

Um estudo que analisou a fluência de 128 indivíduos com idade acima de 60 anos, de ambos os sexos, concluiu que no grupo acima de 80 anos houve significância estatística indicando aumento das rupturas de fala e decréscimo da velocidade (ANDRADE; MARTINS, 2010). As autoras concluíram que o efeito da idade parecer ser mais expressivo depois dos oitenta anos em relação aos parâmetros de fluência da fala analisados nesse estudo.

Brabo e Schiefer (2009) analisaram a fala de 20 adultos sem gagueira e concluíram que a disfluência comum (ou típica ou outra disfluência) com maior ocorrência foi a hesitação, e

entre as disfluências gagas (ou atípicas ou disfluências típicas da gagueira) a mais frequente foi o prolongamento.

Estudos com crianças gagas mostraram que as tipologias mais frequentes em relação às outras disfluências foram: repetição de palavra (ANDERSON; PELLOWSKI; CONTURE, 2005) e, repetição de palavra e hesitação (JUSTE; ANDRADE, 2006). Os tipos de disfluências típicas da gagueira mais frequentes na fala de crianças gagas foram: repetição de palavra monossilábica (YAIRI et al., 1999) e, repetição de sílaba, bloqueio e prolongamento (ANDERSON; PELLOWSKI; CONTURE, 2005; JUSTE; ANDRADE, 2006).

A avaliação da fluência de 40 crianças com gagueira entre 4 e 11 anos, sendo 29 do sexo masculino e 11 do sexo feminino, mostrou uma média de 15,67 de disfluências comuns e 16,20 de disfluências gagas (JUSTE; ANDRADE, 2006).

Boey e colaboradores (2007) analisaram as disfluências típicas da gagueira numa população de 693 crianças holandesas com gagueira, e encontraram uma média de 15,71 destas disfluências. Esses resultados, quando comparados com os achados de 79 crianças fluentes, mostraram que as crianças com gagueira apresentaram maior frequência das disfluências típicas da gagueira, e também encontraram diferenças qualitativas como maior duração e mais tensão associada. Prolongamentos e bloqueios foram mais frequentes nas crianças com gagueira.

Brabo e Schiefer (2009) analisaram a fala de 20 adultos com gagueira e concluíram que as outras disfluências com maior ocorrência foram a repetição de palavra, e entre as disfluências típicas da gagueira a mais frequente foi o bloqueio.

A análise da fluência de um grupo de 16 pré-escolares (4 a 7 anos) e 10 escolares (8 a 11 anos), todos com gagueira, mostrou uma média de 5,47% (DP= 3,17) de disfluências típicas da gagueira no grupo de pré-escolares, e 5,45% (DP=4,60) nos escolares (JUSTE et al., 2012).

A pesquisa de Pinto (2012) realizada com 15 indivíduos com gagueira (17 a 48 anos, média de 27,33 anos), mostrou que a tipologia mais frequente foi o bloqueio, e a menos frequente foi a pausa.

Um estudo comparou a fluência de um grupo de 20 meninos com gagueira com um grupo de 20 meninos sem gagueira, na faixa etária entre 6 a 11 anos, e mostrou que os meninos com gagueira manifestaram sete vezes mais disfluências típicas da gagueira (média de 7% de disfluências típicas da gagueira) em relação aos meninos sem gagueira (média de 1% de disfluências típicas da gagueira) (OLIVEIRA; NOGUEIRA, 2014).

2.2 Gagueira

Gagueira do desenvolvimento é um distúrbio da fluência que se manifesta por rupturas involuntárias no fluxo da fala, que se inicia na infância e que pode persistir na fase adulta (ARCURI et al., 2009; CHANG et al., 2009; LOGAN; MULLINS; JONES, 2008).

As interrupções do fluxo da fala, comumente chamadas de disfluências, são as principais características da gagueira (AMBROSE; YAIRI, 1999). Portanto, as disfluências são sinais obrigatórios do distúrbio e têm sido as características mais frequentemente utilizadas para descrever, definir e medir a gagueira (ANDRADE; MARTINS, 2007). No entanto, as manifestações da gagueira são variadas, e podem englobar dimensões motoras da fala, linguísticas, auditivas, cognitivas, emocionais e sociais.

Zimmermann (1980) foi o primeiro a propor que a gagueira seria resultado de uma falta de coordenação entre a respiração, a fonação e a articulação. O autor também sugeriu que ocorre uma interação entre estas habilidades motoras da fala, com condições emocionais e ambientais existentes na realidade de cada indivíduo.

Peters e Hulstijn (1989) caracterizaram os achados fisiológicos e acústicos da gagueira. Na respiração os autores encontraram antagonismo entre o movimento torácico e abdominal, irregularidades do ciclo respiratório e fonação inspiratória. Vibração arritmica das pregas vocais, interação inadequada dos músculos laríngeos agonistas, atividade muscular aumentada e pobre coordenação dos músculos laríngeos antagonistas da fonação também foram relatados. Quanto à articulação sabe-se que quanto maior a complexidade motora da palavra, maior possibilidade de ocorrer a gagueira. Os articuladores dos gagos foram menos extensivos em deslocação, além de apresentarem posições interarticulatórias e com maior intervalo de tempo do início do movimento da mandíbula e do início da fonação.

Alterações qualitativas da fala como na taxa de elocução, mudanças na intensidade e na frequência vocal, tensão visual ou audível também foram descritas (CAMPBELL; HILL, 1998).

Além das manifestações típicas do distúrbio, indivíduos que gaguejam podem apresentar outras alterações fonoaudiológicas. Por exemplo, o estudo de Louko e colaboradores (1990) mostraram que indivíduos com gagueira parecem ter uma probabilidade maior (30 a 40%) de apresentarem alterações fonológicas, quando comparados com a população em geral, ou de atraso de linguagem. Schiefer, Barbosa e Pereira (1999) analisaram 14 crianças gagas e encontraram em 85% alterações fonético-fonológicas, em 21% alterações semântico-sintáticas e 62% demonstram problemas de linguagem escrita.

A influência das informações auditivas para a produção da fala, e conseqüentemente sua influência na gagueira tem sido relatada. Postma e Kolk (1992) propuseram a “teoria do déficit do *feedback* auditivo nas pessoas que gaguejam”, na qual as pessoas com gagueira apresentariam dificuldade no monitoramento da produção da fala. A idéia de que a gagueira não era um distúrbio motor, mas sim uma alteração da percepção auditiva por uma instabilidade deste *feedback* auditivo começou a ser discutida, gerando novos questionamentos sobre a capacidade do falante para monitorar sua própria voz (CHERRY; SAYERS; MARLAND, 1995).

Neste sentido, vale destacar o modelo “*Directions Into Velocities of Articulators*” (DIVA) proposto por Perkell e Guenter em 2003, pois se baseou na explicação de como a cadeia da fala é gerada. Segundo os autores, existem dois sistemas de controle da fala: “*feedback*”, que detecta erros e permite sua correção, aprimorando os mecanismos automáticos do outro sistema, intitulado “*feedforward*”, no qual os sons da fala, as sílabas e as palavras são codificadas como seqüências automáticas. Carrasco (2013) confirmou que esse modelo é importante para o estudo da gagueira, pois esquematizou os processos de produção e percepção da fala, permitindo identificar e explicar as dificuldades apresentadas pelas pessoas gagas, na interação entre os dois mecanismos de controle da fala.

Max e colaboradores (2004) propuseram a “*internal models and feedback-biased motor control theory*”, na qual sugeriram que o planejamento motor é construído e executado pelo controlador “*feedforward*”, e a execução é ajustada pelo controlador “*feedback*”, que integram em tempo real ambos os sinais aferentes (auditivos) e eferentes (motores). Os autores especularam que a gagueira resulta de uma incompatibilidade entre o “*feedforward*” e o “*feedback*”, portanto, poderia estar relacionada como uma falha na integração auditiva-motora.

Alterações do processamento auditivo central em indivíduos com gagueira também foram descritas por vários estudiosos (ANDRADE et al., 2008; BLOOD, 1996; MAIORINO, 1993; SCHIEFER; BARBOSA; PEREIRA, 1999; SILVA; OLIVEIRA; CARDOSO, 2011).

Alguns sentimentos e atitudes foram encontrados nas pessoas que gaguejam e relatados como possíveis manifestações da gagueira. Indivíduos que gaguejam geralmente desencadeiam sentimentos de vergonha e culpa, e tentam esconder sua gagueira evitando sons, palavras e situações de fala (GINSBERG, 2000; MURPHY; YARUSS; QUESAL, 2007). Esta fuga pode ocasionar restrições à participação social e do bem-estar geral (BRICKER-KATZ; LINCOLN; MCCABE, 2010; PLEXICO; MANNING; LEVITT, 2009), podendo assim desencadear problemas sociais (LANGEVIN; PACKMAN; ONSLOW, 2009),

e impactar na qualidade de vida social (CRAIG; BLUMGART; TRAN, 2009).

Healey, Trautman e Susca (2004) propuseram um modelo multidimensional da gagueira integrado, sugerindo a interação de cinco aspectos que contribuem e mantêm o distúrbio: 1) Cognitivo: referente ao pensamento, percepção, consciência e entendimento sobre a própria fala; 2) Afetivo: sentimentos, emoções e atitudes; 3) Linguístico: competência e demanda linguística, complexidade do discurso; 4) Motor: controle sensório-motor dos movimentos de fala, e; 5) Social: efeitos no que se refere aos tipos de ouvintes e situações de fala. Este modelo foi denominado CALMS.

Pela variabilidade das manifestações da gagueira descrita anteriormente, sabe-se que o quadro clínico não é homogêneo, e nem é necessário apresentar todas as características para ser diagnosticado como gago. Além disso, as manifestações variam entre os indivíduos e de acordo com os fatores relacionados à própria pessoa.

No entanto, o critério diagnóstico mais reconhecido pela comunidade científica para o distúrbio é a presença de no mínimo 3% de disfluências típicas da gagueira (BOEY et al., 2007; CONTURE, 2000; GREGORY; HILL 1993; YAIRI; AMBROSE, 2005). Vários estudos indicaram que a quantidade de disfluências típicas da gagueira foi muito maior nas amostras de fala de indivíduos com gagueira do que nos indivíduos consideradas fluentes (AMBROSE; YAIRI, 1995, 1999; BOEY et al., 2007; PELLOWSKI; CONTURE, 2002; THRONEBURG; YAIRI; PADEN, 1994; YAIRI; AMBROSE, 2005; ZEBROWSKI, 1995). Em geral a média de frequência de disfluências típicas da gagueira em crianças gagas variou entre 9,6 a 16,9%, enquanto que os controles fluentes apresentaram uma variação entre 1,2 a 3,02% (YAIRI; AMBROSE, 2005).

Fatores qualitativos podem ocorrer antes ou durante essas disfluências e são geralmente descritos como: aumento da tensão física; contorções faciais; movimentos de braços, cabeça ou mandíbula; tensão cervical e da cintura escapular; tremor nos lábios; uso do ar residual durante a fala e anormalidades vocais, caracterizadas como pequenos espasmos na laringe (FINN; CORDES, 1997; JAKUBOVICZ, 1997). Os concomitantes físicos são fatores qualitativos relevantes e considerados na classificação da gravidade do distúrbio (RILEY, 1994).

Boey e colaboradores (2007) descreveram que a frequência e o tipo de disfluências não são as únicas características que diferem entre crianças gagas e não gagas. Duração e tensão física das disfluências da fala foram diferentes entre os grupos (AMBROSE; YAIRI, 1995; PELLOWSKI; CONTURE, 2002; THRONEBURG; YAIRI; PADEN, 1994; ZEBROWSKI, 1995). Em geral, crianças com gagueira mostraram maior duração das

repetições e dos prolongamentos (BOEY et al., 2007). Especificamente, a repetição de três unidades ou mais foi uma característica da gagueira (AMBROSE; YAIRI, 2005). Outra característica qualitativa foi que as unidades repetidas foram produzidas de forma mais rápidas pelas crianças que gaguejam do que as que não gaguejam, e o intervalo de silêncio entre as unidades repetidas foi menor (THRONEBURG; YAIRI; PADEN, 1994).

Portanto, gagueira é considerada um distúrbio complexo e multidimensional, e diferentes teorias tentaram justificar sua etiologia. As teorias psicológicas explicaram a gagueira como resultado de distúrbios de conduta ou de conflitos emocionais (GRÜNSPUN, 1978); as teorias da aprendizagem relataram que o problema não estaria no próprio gago, mas no processo de suas relações com os outros (AINSWORTH; FRASER, 1989), e; as teorias orgânicas, por sua vez acreditaram que gagueira tem origem fisiológica ou hereditária (ANDREWS et al., 1983, 1991; FELSENFELD, 1996; KIDD et al., 1980; YAIRI, 1983).

Outros fatores, como linguísticos, cognitivos, emocionais e ambientais também foram mencionados como causadores ou agravadores deste distúrbio da fluência (SMITH; KELLY, 1999). A origem da gagueira, apesar de ainda não estar esclarecida, pode ser resultado da interação de três fatores predisponentes: emocional, social e biológico (BRITTO-PEREIRA, 2002). O emocional pode facilitar o estabelecimento da gagueira por meio, por exemplo, de fatores pessoais e problemas familiares; o social, decorrente de deficiências na comunicação que gera ansiedade, incerteza e medo nos portadores de gagueira, predispondo-os ao desenvolvimento de um autoconceito negativo. O biológico é representado pelos fatores orgânicos que podem predispor ou não ao desenvolvimento da gagueira.

Apesar de não haver ainda uma conclusão definitiva sobre a causa da gagueira (CURLEE, 1993; DOMINGUES et al., 2014; FELSENFELD et al., 2000; OLIVEIRA, C.M.C. et al., 2012; PACKMAN; ATTANASIO, 2010; PERKINS; KENT; CURLEE, 1991; PETERS; GUITAR, 1991), há um consenso entre vários estudiosos de que gagueira é um distúrbio multidimensional, ou seja, possivelmente deve existir mais de uma causa que a explique (AINSWORTH; FRASER, 1989; ARCURI et al., 2009; BARBOSA; CHIARI, 2005; COOPER, 1993; OLIVEIRA, B.V. et al., 2012; OLIVEIRA et al., 2011; PERKINS; KENT; CURLEE, 1991; PETERS; GUITAR, 1991; STARKWEATHER, 2002; VAN RIPER, 1972).

No entanto, apesar de sua origem ainda não ser bem compreendida (DOMINGUES et al., 2014), existe um consenso de que grande parte dos indivíduos que gaguejam apresentam familiares afetados evidenciando assim, o papel relevante dos fatores genéticos na transmissão da gagueira do desenvolvimento persistente (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993;

BEITCHMAN, 1992; DOMINGUES et al., 2014; DRAYNA; KILSHAW; KELLY, 1999; DWORZYNSKI et al., 2007; KIDD; HEIMBUCH; RECORDS, 1981; OLIVEIRA, 2004; OLIVEIRA et al., 2011).

Historicamente, a gagueira é considerada uma doença herdável desde a década de 30, uma vez que trabalhos daquela época já apontavam para a sua natureza familiar (BERRY, 1938; BRYNGELSON; RUTHERFORD, 1937). Nos anos 60, Andrews e Harris (1964) iniciaram estudos com heredogramas e encontraram maior risco de gagueira quando havia a presença de recorrência familiar. Em meados dos anos 70, Kidd, Kidd e Records (1978) estudaram a gagueira na tentativa de compreender a relação entre o seu fenótipo e a suscetibilidade transmitida geneticamente, e concluíram que somente uma hipótese de interação gene-ambiente poderia justificar os dados encontrados.

Na década de 80, alguns pesquisadores interessados em compreender melhor os fatores genéticos e a gravidade da gagueira, concluíram que a gravidade é independente da transmissão da suscetibilidade do distúrbio, tendo em vista que em seus estudos indivíduos geneticamente com maiores riscos de gaguejar não exibiram gagueira mais grave (KIDD et al., 1980).

A partir dos anos 90, dois subgrupos de gagos foram identificados, um composto por casos de gagueira familiar cuja etiologia parece ser primariamente de origem genética (BLOODSTEIN, 1995; DRAYNA; KILSHAW; KELLY, 1999; POULOS; WEBSTER, 1991; YAIRI; AMBROSE; COX, 1996), e outro composto por casos esporádicos (histórico familiar negativo) que podem ser advindos de danos cerebrais precoces, traumas ou doenças no nascimento ou no desenvolvimento (FELSENFELD et al., 2000; POULOS; WEBSTER, 1991). Neste sentido gagueira do desenvolvimento persistente familiar é considerada uma afecção com padrão de herança complexa ou multifatorial (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997).

Portanto, vários estudiosos destacaram a importância de analisar as considerações biológicas relacionadas aos aspectos genéticos para definir subtipos do distúrbio por meio da presença ou ausência do histórico familiar positivo para a gagueira (JANSSEN; KRAAIMAAT; BRUTTEN, 1990; KIDD, 1977; OLIVEIRA et al., 2013; POULOS; WEBSTER, 1991; YAIRI, 2007).

Nos casos em que há recorrência na família, ou em que dois ou mais indivíduos são acometidos pela gagueira, esta foi denominada de gagueira do desenvolvimento familiar (YAIRI et al., 1996), propósito deste trabalho. O outro subgrupo de gagueira sem predisposição genética, como casos em que há apenas um indivíduo gago na família, denomina-se de gagueira do desenvolvimento isolada (OLIVEIRA B.V. et al., 2012).

Fatores genéticos também poderiam distinguir os subtipos de gagueira persistente e recuperada (SEIDER; GLADSTEIN; KIDD, 1983). Quanto a estes subgrupos, Yairi e colaboradores (1996) realizaram uma subdivisão da gagueira do desenvolvimento em: persistente – presente durante um período igual ou superior a 36 meses após sua manifestação; recuperação tardia – recuperada entre 18 e 36 meses após seu início; e recuperação precoce – recuperação antes de 18 meses após a instauração do distúrbio.

Aproximadamente metade dos casos de gagueira do desenvolvimento persistente apresenta histórico familiar positivo do distúrbio (BLOODSTEIN, 1995; DRAYNA; KILSHAW; KELLY, 1999). Portanto, este conhecimento reforça a importância da realização da história familiar ou heredograma durante o processo diagnóstico, para determinar o subtipo familiar ou isolado (OLIVEIRA et al., 2013).

Os estudos com filhos adotivos gagos também são de interesse para a genética, pois a maior ocorrência de gagueira entre os pais biológicos reforça a hipótese genética, e a maior ocorrência de gagueira entre os pais adotivos reforça a hipótese ambiental. Os dados da literatura são escassos sobre esta questão. Bloodstein (1995) evidenciou que fatores ambientais poderiam ter algum efeito no distúrbio (de 13 famílias de filhos adotivos gagos, 4 relataram a presença de parentes gagos na família adotiva, porém, informações das famílias biológicas não foram obtidas). No entanto, Felsenfeld e Plomin (1997) indicaram que o grupo de pais biológicos é a melhor forma de prever se o filho poderá ser afetado.

No século XX Felsenfeld e colaboradores (2000) estudaram gêmeos monozigóticos e estimaram que 70% das variações observadas em indivíduos com gagueira foram atribuídas a componentes genéticos e o restante às influências ambientais. Os resultados de investigações realizadas com gêmeos mostraram maior concordância entre gêmeos monozigóticos (62,5% a 90%) em relação a gêmeos dizigóticos (6,6% a 9%) (DWORZYNSKI et al., 2007; FAGNANI et al., 2011; FELSENFELD et al., 2000; HOWIE, 1981; OOKI, 2005; RAUTAKOSKI et al., 2012). O fato de a concordância ser menor do que 100% indicou o papel adicional do ambiente.

Devido à natureza complexa do ato da fala, Starkweather (2002) relatou sobre a influência poligênica da gagueira. O autor destacou que a fluência de um falante é influenciada por várias características fisiológicas, incluindo o tamanho e a forma do trato vocal, a reação e a coordenação dos grupos musculares, a habilidade para relaxar os músculos antagonistas para movimentos específicos, entre outras. Cada uma destas influências é produto de um número de genes agindo conjuntamente. O autor também considerou os fatores

ambientais que podem influenciar a expressão de determinadas características, assim como a genética também influencia o ambiente.

Estudos de mapeamento gênico, associados a análises estatísticas variadas e complexas, como estudos de associação e análise de ligação têm sido exaustivamente utilizados nos processos de localização e identificação dos loci e alelos especificamente envolvidos, e que fornecem uma prova definitiva da contribuição genética para a gagueira (WITTKE-THOMPSON et al., 2007).

Investigações de genética molecular têm focado na constatação da susceptibilidade de genes que podem contribuir na transmissão da gagueira (RAUTAKOSKI et al., 2012). A diversidade dos resultados destas investigações sugeriu que a gagueira é um distúrbio poligênico, no qual vários genes podem aumentar a sua susceptibilidade (HAN et al., 2014; KANG et al., 2010; LEWIS et al., 2004; RAZA et al., 2012; RAZA; RIAZUDDIN; DRAYNA, 2010; SHUGART et al., 2004).

Análises de ligação na população de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar foram realizadas e seus resultados serão apresentados (DOMINGUES et al., 2014; RAZA et al., 2011, 2012; RAZA; RIAZUDDIN; DRAYNA, 2010; RIAZ et al., 2005; SHUGART et al., 2004; SURESH et al., 2006; WITTKE-THOMPSON et al., 2007).

A partir de 68 famílias de gogos (total de 226 indivíduos = 188 gogos) norte americanos ascendentes de europeus, Shugart e colaboradores (2004) realizaram o primeiro estudo de ligação com a gagueira do desenvolvimento persistente familiar. Os resultados sugeriram forte evidência de ligação no cromossomo 18. Também foi apontada possível ligação com os cromossomos 1, 13 e 16.

Outro estudo foi realizado com 56 famílias paquistanesas consanguíneas (144 gogos e 55 fluentes = 199 indivíduos), e os resultados mostraram evidência de ligação nos cromossomos 1, 5, 7 e 12 (RIAZ et al., 2005).

Suresh e colaboradores (2006) realizaram análise de ligação num conjunto de 100 famílias de norte americanos de ascendência européia, suecos e israelenses e obteve-se evidência sugestiva de ligação no cromossomo 9, 7 e 21 na transmissão da gagueira.

A partir de uma família paquistanesa consanguínea (PKST77) com gagueira do desenvolvimento persistente, Raza, Riazuddin e Drayna (2010) identificaram ligação na região 3q13.31. A forte evidência de ligação no cromossomo 3 foi confirmada, a região 3q13.2-3q13.33. Posteriormente, uma nova família paquistanesa consanguínea com gagueira do desenvolvimento persistente (PKST58) foi identificada com ligação para o fenótipo por Raza e colaboradores (2011) na qual dos 26 membros genotipados, 14 foram diagnosticados

com gagueira do desenvolvimento persistente. A análise de ligação sugeriu ligações nos cromossomos 6, 9, 11, 16 e 21. Foi confirmada apenas a região 16q, seguindo evidências obtidas na região cromossômica 16q12.1-16q23.1.

A partir de uma família africana, proveniente da República de Camarões, denominada CAMST01, foi realizado um extenso e complexo trabalho de mapeamento genético envolvendo análises de ligação (RAZA et al., 2012). Uma grande família, rara e sem evidências de consanguinidade, contendo 71 indivíduos, dos quais pelos menos 33 foram diagnosticados como portadores de gagueira do desenvolvimento persistente. As regiões 3q, 15q, 2p, 3p, 14q e 15q apresentaram evidências de ligação.

Um estudo sobre o papel dos genes *FOXP2* e *CNTNAP2* na gagueira do desenvolvimento persistente forneceu uma melhor estimativa da contribuição de mutações nos *GNPTAB*, *GNPTG* e *NAGPA* a gagueira persistente, e sugeriu que variantes em *FOXP2* e *CNTNAP2* não estão envolvidos na gênese da gagueira do desenvolvimento familiar persistente (HAN et al., 2014).

Domingues e colaboradores (2014) realizaram análise de ligação num grupo de 43 famílias de probandos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar. Os autores identificaram ligação em duas famílias com o cromossomo 10q2, que representa um novo locus e um novo modelo de herança para o distúrbio.

Vale destacar que o distúrbio é resultado de interações de fatores predisponentes, como o genótipo em um ou mais loci, além de diversos componentes ambientais capazes de ativar, acelerar ou intensificar a manifestação da gagueira (OLIVEIRA B.V et al., 2012).

O envolvimento de fatores genéticos com a gagueira do desenvolvimento persistente deve ser contabilizado no diagnóstico, no prognóstico, no tratamento e na orientação desses pacientes. O clínico pode ser alertado pelo paciente quando há familiares gogos e como tal, uma história familiar é um bom indicador de um fator genético atuando no desenvolvimento da doença (DOMIGUES, 2013).

Pouco se sabe, porém, se as disfluências são ou não características geneticamente transmissíveis que influenciam a probabilidade de um parente gago desenvolver determinada tipologia da disfluência. Com o intuito de investigar esta questão, Howie (1981) avaliou o grau de semelhança da tipologia da disfluências em gêmeos e mostrou evidências consistentes de um possível controle genético para bloqueios e prolongamentos. A comparação do perfil da tipologia das disfluências entre os membros de uma mesma família com a mãe gaga e doze filhos(as) com gagueira mostrou que nenhum dos(as) filhos(as) apresentava a mesma tipologia de disfluência da mãe (ANDRADE; ZACKIEWICZ, 2000). As autoras descreveram

que como cada indivíduo apresentava sintomatologia diferenciada de gagueira, possivelmente a herança genética predispõe as disfluências, mas cada gagueira se desenvolve diferentemente em cada indivíduo.

Uma investigação realizada com 17 probandos com diagnóstico de gagueira (crianças), com o objetivo de identificar o perfil familiar da fluência da fala, mostrou que existe uma similaridade na tipologia das rupturas da fala em todos os afetados de uma mesma família, mesmo havendo uma tendência a maior gravidade do distúrbio nos probandos (ANDRADE, 2010).

O fato da gravidade da gagueira ser ou não uma característica predisposta geneticamente é outra questão intrigante. Kidd e colaboradores (1980) estudaram a possibilidade de que os gogos geneticamente mais predispostos também eram os gogos mais graves, e concluíram que a medida da gravidade não está relacionada com os fatores genéticos que predispõem a gagueira.

Frequência familiar e sexual da gagueira

Os estudos sobre a frequência familiar mostraram que ocorrem variações em função da idade e do sexo. Há um consenso de que existem mais crianças que gaguejam do que adultos (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997; BLOODSTEIN, 1995; CRAIG et al., 2002; FELSENFELD, 2002), como também mais indivíduos do sexo masculino gogos do que do sexo feminino (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997; ANDREWS; HARRIS, 1964; BLOODSTEIN, 1995; FELSENFELD et al., 2000).

Os valores referentes à frequência familiar mostraram que aproximadamente 5% das crianças gaguejam (CRAIG et al., 2002; FELSENFELD, 2002), sendo que Bloodstein (1995) encontrou uma frequência de 2,4% em pré-escolares e 1% nas crianças em idades escolares. Nos adultos a frequência estimada foi de 1% ou menos (ALPERMANN et al., 2012; BLOODSTEIN, 1995; CRAIG et al., 2002; FELSENFELD, 2002). Portanto, existe uma redução significativa entre o surgimento e a manutenção do quadro da gagueira (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997).

Quanto à distribuição sexual em crianças, a mesma proporção em ambos os sexos na faixa etária de 2 a 3 anos foi descrita (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997; YAIRI, 1983), e a razão de 2,1 meninos:1 menina para crianças de 2 a 6 anos (YAIRI; AMBROSE, 1992). Entre os adultos a proporção foi tipicamente citada como 4 a 5 homens:1 mulher (BLOODSTEIN, 1995; FELSENFELD et al., 2000; JANSSEN et al., 1996; KIDD; HEIMBUCH; RECORDS, 1981).

A razão total do sexo masculino/sexo feminino no estudo de Drayna, Kilshaw e Kelly (1999) que analisaram uma amostra de indivíduos gagos de 10 a 86 anos, foi de 3,8:1. Porém, quando a prevalência sexual foi analisada no subgrupo de gagueira familiar o distúrbio afetou indivíduos de ambos os sexos na mesma proporção, e no subgrupo de gagueira persistente de origem não genética ou isolada a prevalência foi maior no sexo masculino (DRAYNA; KILSHAW; KELLY, 1999).

Portanto, a gagueira ocorre mais frequentemente nos indivíduos do sexo masculino, e esta proporção aumenta com a idade (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997; ANDREWS; HARRIS, 1964; BLOODSTEIN, 1995; FELSENFELD et al., 2000). Algumas justificativas para a maior prevalência do distúrbio no sexo masculino foram elencadas, entre elas: (1) nas décadas passadas enfatizaram o desenvolvimento mais lento e o aumento da cobrança no desempenho dos indivíduos do sexo masculino (SCHUELL, 1974), e; (2) a maior recuperação do distúrbio entre as meninas (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; BLOODSTEIN, 1995; SEIDER; GLADSTEIN; KIDD, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992), que pode ser justificado pela hipótese da gagueira apresentar um traço sexualmente modificável, sendo que as mulheres precisariam de uma carga genética maior para que o distúrbio se manifestasse (KIDD et al., 1980; YAIRI, AMBROSE, 1992).

Outra explicação, relacionada à maior prevalência de indivíduos do sexo masculino com gagueira do desenvolvimento persistente está baseada na teoria hormonal proposta por Geschwind e Galaburda (1985). O hormônio sexual masculino, testosterona, é responsável por promover um atraso no desenvolvimento neural do feto, e o hemisfério cerebral direito tende a se desenvolver naturalmente mais rápido em relação ao hemisfério esquerdo, envolvido com a fala. Assim, o hemisfério cerebral esquerdo de um feto do sexo masculino, estará exposto à ação de elevados níveis de testosterona por mais tempo do que no feto feminino o que proporcionará a princípio um “excessivo” atraso no desenvolvimento do lado esquerdo afetando assim, mais o desenvolvimento da fala em homens do que em mulheres (DOMINGUES, 2013).

Portanto, o sexo é um importante fator de risco para a gagueira, porque a maior prevalência do distúrbio ocorre em homens (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997; FELSENFELD et al., 2000; YAIRI; AMBROSE, 2005). Este risco em meninos aumenta quando ocorre qualquer distúrbio de comunicação, independentemente da história familiar (OLIVEIRA C.M.C et al., 2012).

Risco de recorrência da gagueira

Estudos sobre o risco de recorrência em indivíduos com gagueira mostraram que ele depende de alguns fatores, entre os quais o grau de parentesco com o probando, o sexo do familiar e o sexo do probando (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; ANDREWS; HARRIS, 1964; ANDREWS et al., 1983; KIDD, K.; KIDD, J.; RECORDS, 1978; KIDD, 1980, 1984; SCHIEFER; BARBOSA; PEREIRA, 1999; YAIRI, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992).

Com relação aos resultados encontrados sobre o grau de parentesco com o familiar afetado e o risco de recorrência da gagueira, Andrews e colaboradores (1983) mostraram que para familiares de primeiro grau dos probandos gagos, o risco foi três vezes maior quando comparado com grupo controle.

Informações sobre estudos de prevalência da gagueira nos diferentes familiares revelaram que ocorreu uma maior prevalência em familiares de primeiro grau dos probandos – variou de 15% a 65% (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; ANDREWS; HARRIS, 1964; KIDD, 1984; SCHIEFER; BARBOSA; PEREIRA, 1999; YAIRI, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992). Para familiares de segundo e terceiro grau, o risco de recorrência encontrado foi de 4%-5% (ANDREWS et al., 1983, 1991; COX; SEIDER; KIDD, 1984; COX; KIDD, 1983; GOLDIN et al., 1984; LALOUEL et al., 1983) a 71% (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; SCHIEFER; BARBOSA; PEREIRA, 1999; YAIRI, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992)

Além do grau de parentesco, a prevalência pode variar de acordo com o sexo do familiar, sendo que parentes do sexo masculino mostraram maior risco para gagueira (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993, 1997; ANDREWS; HARRIS, 1964; BLOODSTEIN, 1995; KIDD, K.; KIDD, J.; RECORDS, 1978; FELSENFELD et al., 2000; YAIRI; AMBROSE; COX, 1996).

No que diz respeito ao sexo do probando, alguns estudos mostraram que probandos do sexo feminino apresentaram maior prevalência da gagueira entre os seus familiares quando comparados com probandos do sexo masculino (ANDREWS; HARRIS, 1964; KIDD, 1980; KIDD; HEIMBUCH; RECORDS, 1981; KIDD, K.; KIDD, J.; RECORDS, 1978).

Os achados mostraram que há uma interação entre o sexo do probando com o sexo do familiar afetado na determinação do risco de recorrência, apesar de não haver concordância por parte dos investigadores sobre este tema. Por exemplo, Andrews e colaboradores (1983) encontraram um risco maior para os parentes do sexo masculino de probandos do sexo feminino, que apresentaram uma probabilidade 4 vezes maior do que parentes do sexo feminino de probandos do sexo masculino. O risco de gagueira para os filhos de indivíduos gagos estimado pelos autores foi, no caso do pai gago, de 9% para as filhas e 22% para os

filhos, e no caso de mãe gaga, 36% para os filhos e 17% para as filhas (ANDREWS et al., 1983).

Outras investigações, porém, encontraram para probandos adultos um risco maior da gagueira ocorrer nos familiares do sexo masculino de probandos do sexo masculino (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; JANSSEN et al., 1996; YAIRI; AMBROSE; COX, 1996), sendo que a categoria de maior risco para o desenvolvimento da gagueira foi o probando do sexo masculino com o pai afetado (cerca de 30% - YAIRI; AMBROSE; COX, 1996).

A distribuição da gagueira entre os familiares dos probandos, portanto, não é uniforme (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; ANDREWS et al., 1983; COX; SEIDER; KIDD, 1984; FELSENFELD, 1996; LALOUEL et al., 1983; SEIDER; GLADSTEIN; KIDD, 1983). Na investigação da ocorrência de gagueira em familiares de crianças gagas pré-escolares, a maior frequência para probandos do sexo masculino foi para os pais, e para probandos do sexo feminino, as irmãs (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993). Para probandos adultos, a maior frequência de indivíduos com gagueira (de ambos os sexos, juntos e separadamente) ocorreu para os filhos dos probandos (JANSSEN et al., 1996).

JUSTIFICATIVAS E HIPÓTESES

3.0 JUSTIFICATIVAS E HIPÓTESES

Gagueira do desenvolvimento tem sido objeto de estudo de vários investigadores uma vez que é o principal e mais prevalente distúrbio da fluência. Suas manifestações são complexas e variadas, e frequentemente podem ocasionar prejuízos na qualidade de vida dos portadores do distúrbio. A principal manifestação clínica é a presença de excessivas disfluências típicas da gagueira (BLEEK et al., 2012; CIVIER et al., 2013; COOK; DONLAN; HOWELL, 2013), rupturas essas que podem ocasionar prejuízos na taxa de elocução, no ritmo e na naturalidade da fala.

Existem vários subtipos de gagueira, sendo o mais prevalente o intitulado de Gagueira do Desenvolvimento Persistente Familiar (DRAYNA; KILSHAW; KELLY, 1999), caracterizado pela manifestação de no mínimo de 3% de disfluências típicas da gagueira, que se inicia na infância, persiste por mais de 36 meses e apresenta pelo menos outro familiar afetado com o distúrbio.

A etiologia ainda não é bem compreendida, no entanto, evidências da transmissão genética do distúrbio existem desde a década de 30. Inicialmente os dados eram provenientes do histórico familiar ou heredograma, e com o advento das tecnologias, estudos moleculares mostraram possíveis genes que podem estar ligados com a gagueira em determinadas populações (RAZA; RIAZUDDIN; DRAYNA, 2010). O modelo de transmissão mais aceito pela comunidade científica, intitulado de multifatorial poligênico (KANG et al., 2010; RAZA; RIAZUDDIN; DRAYNA, 2010; YAIRI; AMBROSE, 1992), descreveu a possibilidade de que vários genes atuem em conjunto com fatores ambientais de uma forma dinâmica e complexa, ainda não compreendida adequadamente.

Com relação à frequência familiar os dados podem variar em função da idade cronológica, bem como do sexo do probando. Indivíduos do sexo masculino são mais afetados do que os do sexo feminino, mostrando uma razão sexual de 4 a 5 homens:1 mulher na idade adulta (BLOODSTEIN, 1995; FELSENFELD et al., 2000). O risco de recorrência pode variar a depender da relação de parentesco com o familiar afetado, do sexo do probando, bem como do sexo do familiar afetado (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; ANDREWS; HARRIS, 1964; ANDREWS et al., 1983; KIDD, 1984; KIDD et al., 1980; KIDD, K.; KIDD, J.; RECORDS, 1978; SCHIEFER; BARBOSA; PEREIRA, 1999; YAIRI, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992).

Apesar de muitos estudos realizados, alguns focaram nas descrições genéticas (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997; HAN et al., 2014; KANG et al., 2010; LEWIS et al., 2004; RAUTAKOSKI et al., 2012; RAZA; RIAZUDDIN; DRAYNA, 2010; RIAZ et al., 2005;

SHUGART et al., 2004), enquanto outros nas descrições fonoaudiológicas (ANDRADE et al., 2008; OLIVEIRA C.M.C. et al., 2012), e poucos descreveram os aspectos fonoaudiológicos e genéticos da gagueira (OLIVEIRA, 2004). Dentro deste contexto, a investigação do perfil da fluência da fala de 100 indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar, e da frequência familiar e sexual dos familiares afetados torna-se relevante para melhor compreensão das manifestações fonoaudiológicas deste distúrbio e sua forma de transmissão.

Hipotetizou-se que os fluxos de sílabas e de palavras por minuto estarão reduzidos em relação aos dados da normalidade, tendo em vista que os participantes apresentarão um aumento na quantidade de disfluências.

Provavelmente a maior parte dos participantes apresentará gravidade classificada como leve, pois a literatura mostra que gagueira grave e muito grave são menos frequentes. Quanto à frequência familiar, pode-se supor que em relação ao grau de parentesco, será maior nos familiares de primeiro grau, e com respeito ao sexo, espera-se que o número de familiares com gagueira do sexo masculino seja maior do que do sexo feminino.

Considerando as hipóteses descritas acima, a pesquisa foi desenvolvida por meio da análise dos aspectos da fluência – qualitativos e quantitativos das disfluências, taxa de elocução e gravidade da gagueira – e por meio do histórico familiar para determinar a frequência familiar e sexual do distúrbio.

Os resultados desta dissertação certamente contribuirão para aprimorar o diagnóstico deste subtipo de gagueira, bem como para melhor compreensão da frequência familiar e sexual do distúrbio.

OBJETIVO

4.0 - OBJETIVO

O objetivo principal desta pesquisa foi caracterizar o perfil da fluência de um grupo de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar e a determinar a frequência familiar e sexual do distúrbio nos familiares.

Para responder ao objetivo principal desta pesquisa foram estabelecidos os seguintes objetivos específicos, a saber:

1. Caracterizar o perfil da fluência quanto à tipologia das disfluências, à frequência das disfluências típicas da gagueira, das outras disfluências e do total das disfluências, o fluxo de sílabas e de palavras por minuto; classificar a gravidade da gagueira, e; comparar a frequência das disfluências, a taxa de elocução e a gravidade da gagueira nas diversas classes etárias dos indivíduos, e entre os indivíduos do sexo masculino e do sexo feminino.
2. Determinar a frequência familiar de acordo com o sexo do probando e o grau de parentesco do familiar afetado com o probando, bem como determinar a frequência sexual da gagueira.

MATERIAL E MÉTODO

5.0 - MATERIAL E MÉTODO

5.1 Aspectos Éticos

Este estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa (CEP) da Faculdade de Filosofia e Ciências, registro nº 0724/2013 (ANEXO A).

Ressalta-se que foram respeitados todos os quesitos que regem a resolução do Conselho Nacional de Saúde – CNS/196 – sobre Diretrizes e Normas Regulamentadoras de Pesquisas Envolvendo Seres Humanos e recomendações do Comitê de Ética em Pesquisa da Instituição. Os responsáveis pelos indivíduos, ou os próprios indivíduos quando acima de 18 anos, foram convidados a assinar o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE), (ANEXO B) mediante explicação dos procedimentos do projeto, anteriormente ao início da coleta de dados.

5.2 Casuística

Trata-se de uma pesquisa transversal e de caráter experimental. A amostra para esse estudo foi composta de 100 indivíduos com gagueira provenientes do Laboratório de Estudos da Fluência (LAEF) do Centro de Estudos a Educação e da Saúde (CEES – Marília – UNESP), do Departamento de Fonoaudiologia, residentes na cidade de Marília (Estado de São Paulo) e região. A coleta de dados foi realizada no período de agosto de 2013 a junho de 2014. Parte da amostra foi analisada com os participantes de um projeto de Gagueira e Genética realizado anteriormente pela equipe do Laboratório de Estudos da Fluência e o Serviço de Aconselhamento Genético da UNESP de Botucatu.

5.3 Seleção dos participantes

No total foram contatados 124 indivíduos do Laboratório de Estudos da Fluência – LAEF do Centro de Estudos da Educação e Saúde– CEES – UNESP – Marília que poderiam atender aos critérios de inclusão estabelecidos nesta pesquisa: apresentar o subtipo de gagueira do desenvolvimento persistente familiar e idade cronológica entre 5 e 59 anos e 11 meses. O total de 65 foram indivíduos que tinham participado do projeto de pesquisa anterior da equipe do LAEF realizado juntamente com o Serviço de Aconselhamento Genético da UNESP de Botucatu. Para totalizar os 100 foram recrutados mais 59 indivíduos, pois 24 deles

não atenderam a todos os critérios de inclusão: 13 não apresentaram o mínimo de 3% de disfluências típicas da gagueira na avaliação da fala espontânea, 3 apresentaram queixa auditiva e 8 outros problemas fonoaudiológicos. Os participantes não estavam em terapia fonoaudiológica no momento da coleta.

Foi realizado agendamento, mediante autorização prévia dos responsáveis (no caso de menores de 18 anos) e seguindo os horários de retorno agendados pelo Laboratório de Estudos da Fluência- LAEF – UNESP.

Para a seleção dos indivíduos por meio da aplicação dos critérios de inclusão e de exclusão, os responsáveis (dos indivíduos com menos de 18 anos) ou os próprios indivíduos com gagueira (acima de 18 anos) foram questionados oralmente sobre seus dados de identificação e do histórico familiar. Foram utilizados impressos pré-elaborados, como termo de consentimento livre e esclarecido do participante, ficha de identificação, histórico familiar, protocolos de avaliação da fluência e protocolo do Instrumento de Gravidade da Gagueira (SSI-3, RILEY, 1994).

5.4 Descrições dos indivíduos

O grupo foi composto por 100 indivíduos com idade entre 5 e 59 anos e 11 meses (Média= 16,40 Desvio Padrão= 11,85) com diagnóstico da gagueira do desenvolvimento persistente familiar, sendo 75 do sexo masculino e 25 do sexo feminino.

Os critérios de inclusão estabelecidos para esta pesquisa foram:

- ser falante nativo do português brasileiro de ambos os sexos, e, concordarem, por meio de assinatura do Termo de Consentimento, com a realização dos procedimentos propostos para o estudo;

- apresentar queixa de gagueira: nos casos infantis pelo menos um dos pais deveria ter apresentado queixa de gagueira da criança, e; nos casos de adolescentes e adultos, os próprios indivíduos deveriam apresentar queixa de gagueira;

- o início da gagueira deve ter ocorrido durante a infância;

- duração mínima de 36 meses das disfluências típicas da gagueira sem remissão (persistente);

- apresentar mínimo de 3% de disfluências típicas da gagueira (BLOODSTEIN, 1995; GREGG; YAIRI, 2012; GREGORY; HILL, 1993; TUMANOVA; CONTURE; LAMBERT, 2014; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI et al., 1996) na avaliação da fala espontânea;

- pontuação mínima de 11 pontos (nos casos de crianças na faixa etária de 5 a 16 anos e 11 meses) ou de 18 pontos (adolescentes acima de 17 anos) no Instrumento de Gravidade da Gagueira – SSI-3 – descartando assim os casos de gagueira muito leve (*Stuttering Severity Instrument*, SSI-3, RILEY, 1994).

Foram excluídos desta pesquisa, indivíduos que apresentassem evidência de surdez, sintomas ou condições psiquiátricas; apresentassem alterações de comunicação oral não compatível com a idade; doenças neurológicas; qualquer outro distúrbio de comunicação oral, que não fosse gagueira e de comunicação escrita, e/ou outras condições pertinentes que poderiam gerar erros no diagnóstico.

Para agrupar os indivíduos segundo a classificação etária, foi utilizada como referência a classificação adotada no estudo do perfil da fluência de indivíduos com desenvolvimento típico de linguagem de Martins e Andrade (2008), a saber: Pré-escolares com idade de 2 a 6 anos; Escolares, com idade de 7 a 11 anos, Adolescentes, com idade de 12 a 17 anos, Adultos separados em um grupo com idade entre 18 a 27 anos e outro grupo com idade entre 28 a 59 anos, para análise dos dados da fluência.

Na Tabela 1 é apresentada a distribuição dos indivíduos com gagueira por número e porcentagem nas diferentes classes etárias. Nota-se que o grupo de escolares é o que apresentou maior número de indivíduos, seguido dos adolescentes, de adultos de 28-59 anos, pré-escolares e de adultos de 18-27 anos.

Tabela 1 – Distribuição dos indivíduos com gagueira quanto à classificação etária.

Grupo	Classe Etária	N	%
PE-pré-escolares	3:0 – 6:11	14	14
E-escolares	7:0 – 11:11	34	34
A-adolescentes	12:0 – 17:11	19	19
18-27	18:0 – 27:11	14	14
28-59	28:0 – 59:11	19	19

5.5 Procedimentos:

5.5.1 Assinatura do Termo de consentimento pós-informado:

Conforme resolução do Conselho Nacional de Saúde CNS 196/96, anteriormente ao início das avaliações, os responsáveis legais pelos indivíduos, ou os próprios indivíduos quando apresentaram no mínimo 18 anos, assinaram o termo de consentimento pós-informado

para autorização da realização do estudo.

5.5.2 Histórico familiar:

Os dados dos antecedentes familiares para realizar o heredograma foram coletados no final da história clínica. Os familiares adultos de primeiro grau ou os próprios probandos (nos casos de indivíduos acima de 18 anos) foram questionados sobre o padrão de fluência de seus parentes e sobre a existência de alguém na família que eles soubessem apresentar gagueira, ou que tinha gaguejado na infância. Para possibilitar os probandos a responderem estas questões, a entrevistadora apresentou uma definição padronizada de gagueira oferecendo exemplos que pudessem ilustrá-las. Gagueira foi definida como “interrupção na continuidade do fluxo da fala caracterizada como repetições, prolongamentos, ou bloqueios de sons, de sílabas ou de pequenas palavras” (AMBROSE; YAIRI; COX, 1997). Exemplos de repetições de sons ou de sílabas, prolongamentos de sons, bloqueios e intrusões foram oferecidos.

Com o intuito de obter informações precisas, os familiares e/ou os probandos foram encorajados a checar e a confirmar com seus pais ou com outros parentes, informações e histórias de gagueira. Quando possível, mais que um adulto foi questionado a respeito da gagueira de seus familiares. Informações como idade aproximada do início da gagueira, tempo de duração das disfluências e gravidade da gagueira foram obtidas dos entrevistados. Os dados dos heredogramas foram confirmados novamente. As informações dos heredogramas foram utilizadas para determinar a frequência familiar e sexual da gagueira nos parentes de primeiro, segundo e/ou terceiro graus.

5.5.3 Avaliação da fluência:

Para cada indivíduo foi coletada a amostra de fala espontânea para posterior análise. Foi realizado um registro audiovisual por meio de uma câmera digital Sony (HDR – CX 350) e um tripé. Todas as transcrições da fala foram utilizadas com o auxílio de um computador, que também foi usado para trabalhar nos arquivos necessários para o desenvolvimento do projeto. O computador foi conectado a uma impressora, que fez a impressão de todos os documentos utilizados no projeto.

As amostras de fala coletadas foram transcritas num total de 200 sílabas fluentes para cada amostra conforme proposto por vários estudiosos (AMBROSE; YAIRI, 1999;

ANDRADE, 2011; CAMPBELL; HILL, 1998; GREGORY; HILL, 1993), considerando-se as sílabas fluentes e não fluentes. Posteriormente, foi realizada a análise das amostras de fala e caracterizada a tipologia das disfluências, de acordo com a seguinte descrição (CAMPBELL; HILL, 1998; GREGORY; HILL 1993; PINTO, 2012; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI; AMBROSE, 1999):

- *Disfluências típicas da gagueira*: repetição de palavras- acima de três, repetição de sílaba, repetição de som, bloqueio, prolongamento, pausa e intrusão.

- *Outras disfluências*: interjeição, hesitação, revisão, palavras incompletas, repetição de frase e repetição de palavras- até duas.

Para caracterizar a frequência das rupturas, foram utilizadas as seguintes medidas: porcentagem das disfluências típicas da gagueira, das outras disfluências e do total de disfluências.

A taxa de elocução foi realizada por meio das medidas dos fluxos de sílabas e de palavras por minuto (SPM e PPM). Para estas medidas o tempo total despendido para cada amostra de fala foi cronometrado e assim os cálculos foram realizados para obter os fluxos de sílabas e de palavras por minuto.

Para o diagnóstico de gagueira, adotou-se o critério da presença de no mínimo 3% de disfluências típicas da gagueira. A gravidade foi classificada como no mínimo leve no Instrumento de Gravidade da Gagueira – SSI-3 (RILEY, 1994), dessa forma, foram excluídos os casos de gagueira muito leve.

5.5.4 Instrumento de Gravidade da Gagueira

O Instrumento de Gravidade da Gagueira (SSI-3, RILEY, 1994) foi utilizado para classificar a gagueira em leve, moderada, grave e muito grave. Este teste avaliou a frequência e duração das disfluências típicas da gagueira da fala, assim como a presença de concomitantes físicos associados às disfluências, seguindo protocolo proposto por RILEY (1994).

PROCEDIMIENTOS ESTADÍSTICOS

6.0 PROCEDIMENTOS ESTATÍSTICOS:

A análise estatística de todas as informações coletadas nesta pesquisa foi inicialmente feita de forma descritiva.

Para as variáveis de natureza quantitativa foram calculadas média, mediana, valor mínimo, valor máximo e desvio-padrão. Para as variáveis de natureza qualitativa calcularam-se as frequências absoluta e relativa (BUSSAB; MORETTIN, 2006).

O teste *Jonckheere-Tepstra* foi realizado na comparação das medidas analisadas entre as cinco classes etárias (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte e oito anos a cinquenta e nove anos), nos dois sexos (masculino e feminino), posteriormente, apenas para o sexo masculino, e para o sexo feminino, quando comparadas concomitantemente para as variáveis de interesse (disfluências típicas da gagueira, outras disfluências, total de disfluências, fluxo de sílabas e de palavras por minuto).

O teste *Mann-Whitney*, ajustado pela *Correlação de Bonferroni* foi aplicado com o objetivo de identificar quais classes etárias diferenciariam entre si, quando comparadas par a par, tanto para o grupo total, como para o grupo de indivíduos do sexo masculino e o grupo dos indivíduos do sexo feminino.

O teste *Mann-Whitney* também foi utilizado na comparação entre os sexos masculino e feminino para as variáveis de interesse (disfluências típicas da gagueira, outras disfluências, total de disfluências, fluxo de sílabas e de palavras por minuto).

Para os dados relativos à gravidade foi aplicado o teste *Qui-Quadrado para Proporções*, com o intuito de verificarmos possíveis diferenças entre cada uma das gravidades na comparação entre as diferentes classes etárias, e também na comparação entre o sexo feminino e masculino.

O teste *Qui-Quadrado para Proporções* também foi utilizado na análise da frequência familiar, especificamente para verificar se as proporções de familiares afetados dos probandos do sexo masculino em comparação aos probandos do sexo feminino seriam estatisticamente significantes.

Para todas as conclusões obtidas por meio das análises inferenciais foi utilizado o nível de significância igual a 5%.

Os dados foram digitados em planilha eletrônica Excel 2010, em sua versão do MS-Office 2010, para organização dos dados. As análises estatísticas foram realizadas com o

software Statistical Package for Social Science (SPSS), em sua versão 21.0, para obtenção dos resultados estatísticos.

RESULTADOS

7.0 - RESULTADOS

Neste capítulo serão apresentados os resultados deste estudo que tem o objetivo de caracterizar o perfil da fluência de um grupo de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar e a frequência familiar e sexual do distúrbio nos familiares.

A apresentação dos resultados foi dividida em duas partes: (1) Caracterização do perfil da fluência em relação à tipologia e a frequência das disfluências, a taxa de elocução e a gravidade da gagueira e; (2) Análise da frequência familiar e sexual.

7.1 Caracterização do perfil da fluência em relação à tipologia e frequência das disfluências, a taxa de elocução e a gravidade da gagueira.

Os resultados quanto ao perfil da fluência do grupo de 100 indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar foram apresentados na seguinte ordem: (1) tipologia das disfluências, (2) frequência das disfluências, (3) taxa de elocução, e (4) gravidade da gagueira.

7.1.1 Tipologia das disfluências

Os resultados da tipologia foram separados em disfluências típicas da gagueira (DTG) e outras disfluências (OD), conforme metodologia utilizada (CAMPBELL; HILL, 1998; GREGORY; HILL, 1993; PINTO, 2012; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI; AMBROSE, 1999). Na Tabela 2 são apresentados os valores da estatística descritiva das disfluências típicas da gagueira dos participantes. Nota-se que o tipo de disfluência com maior ocorrência foi repetição de palavras (acima de três), e o tipo menos frequente foi a pausa.

Tabela 2 - Valores dos resultados da porcentagem de disfluências típicas da gagueira dos indivíduos.

Disfluências Típicas da Gagueira	Mín	Média	Máx	DP
Repetição de palavras	1,00	4,38	19,00	3,64
Repetição de sílabas	1,00	2,00	13,00	2,68
Repetição de som	1,00	1,05	8,00	1,61
Bloqueio	1,00	2,27	13,00	2,93
Prolongamento	1,00	2,38	13,00	3,41
Pausa	1,00	0,82	13,00	1,81
Intrusão	1,00	0,94	30,00	3,92

Legenda: DTG= Disfluências típicas da gagueira; **Mín**= Mínimo; **Máx**= Máximo; **DP**= Desvio Padrão.

Na Tabela 3 são apresentados os valores da estatística descritiva das outras disfluências dos indivíduos. Nota-se que o tipo de disfluência com maior prevalência foi a interjeição, e o tipo menos frequente foi a repetição de frase.

Tabela 3 - Valores dos resultados da porcentagem das outras disfluências dos indivíduos.

Outras Disfluências	Mín	Média	Máx	DP
Hesitação	1,00	3,67	20,00	5,29
Interjeição	1,00	4,69	31,00	5,30
Revisão	1,00	1,11	6,00	1,46
Palavra incompleta	1,00	0,57	6,00	1,17
Repetição de frase	1,00	0,30	3,00	1,06
Repetição de palavra	1,00	0,69	5,00	1,12

Legenda: OD= Outras disfluências; **Mín**= Mínimo; **Máx**= Máximo; **DP**= Desvio Padrão.

7.1.2 Frequência das disfluências

Na Tabela 4 são apresentados os valores da distribuição dos indivíduos por classificação etária (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte oito anos a cinquenta e nove anos) mostrando a média e o desvio-padrão da porcentagem das disfluências típicas da gagueira, das outras disfluências, do total das disfluências; do fluxo de sílabas e de palavras por minuto, e; número de indivíduos e porcentagem classificados de acordo com as diferentes gravidades da gagueira. Utilizou-se o teste “*Jonckheere-Terpstra*” para as medidas de frequência de disfluências e taxa de elocução, e o Teste *Qui-Quadrado* para a gravidade da gagueira. Nota-se que houve diferença estatisticamente significativa entre as diferentes classes etárias quanto às disfluências típicas da gagueira, fluxo de sílabas e de palavras por minuto. Quanto à gravidade 45% foram classificados como apresentando gagueira leve.

Tabela 4 – Valores encontrados da frequência de disfluências, da taxa de elocução, número de indivíduos e porcentagem segundo a gravidade da gagueira de acordo com a classificação etária.

	%DTG	%OD	%TD	SPM	PPM	Gravidade			
						L	M	G	MG
						N	N	N	N
	\bar{X}	\bar{X}	\bar{X}	\bar{X}	\bar{X}	(%)	(%)	(%)	(%)
	(DP)	(DP)	(DP)	(DP)	(DP)				
PE	9,82 (6,92)	5,89 (4,05)	15,71 (6,23)	118,59 (55,98)	82,24 (42,47)	5,00 (35,70)	5,00 (35,70)	2,00 (14,30)	2,00 (14,30)
E	7,00 (6,92)	6,16 (3,94)	13,16 (6,07)	145,97 (50,61)	86,33 (43,22)	14,00 (41,20)	11,00 (32,40)	8,00 (23,50)	1,00 (2,90)
A	6,32 (4,50)	6,18 (4,07)	12,50 (7,70)	163,25 (51,08)	101,12 (26,45)	10,00 (52,60)	8,00 (42,10)	1,00 (5,00)	0,00 (0,00)
18-27	6,25 (4,12)	7,25 (5,80)	13,50 (8,70)	190,66 (41,00)	114,51 (27,80)	7,00 (50,00)	6,00 (49,90)	1,00 (7,10)	0,00 (0,00)
28-59	5,74 (3,66)	6,39 (3,09)	12,13 (4,90)	186,03 (40,47)	114,42 (31,93)	9,00 (47,40)	8,00 (41,20)	2,00 (10,50)	0,00 (00,0)
Total	6,92 (4,59)	6,33 (4,08)	13,25 (6,61)	159,29 (53,22)	97,85 (38,05)	45,00 (45,00)	38,00 (38,00)	14,00 (14,00)	3,00 (3,00)
Valor de p	0,003*	0,420	0,104	<0,001*	< 0,001*	0,966	0,988	0,950	0,902

Valor-p referente ao Teste *Jonckheere-Terpstra* para as medidas de frequência de disfluências e taxa de elocução e Teste *Qui-Quadrado* para a gravidade da gagueira – valores significantes estão em negrito e com asterisco. Teste de *Mann-Whitney*, ajustado pela *Correção de Bonferroni* –SPM (PE≠18-27; PE≠28-59).

Legenda: DP= Desvio Padrão; %DTG= Disfluências Típicas da Gagueira; %OD= Outras Disfluências; %TD= Total de Disfluências; N = Número; \bar{X} = Média; L= Leve; M= Moderada; G= Grave; MG= Muito Grave; PE= Pré-Escolares, E= Escolares; A= Adolescentes.

A porcentagem de disfluências típicas da gagueira (DTG) foi analisada tendo em vista a classificação etária dos indivíduos (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte e oito anos a cinquenta e nove anos) divididos de acordo com o sexo masculino e feminino (Tabela 5). Nota-se que a classe etária que apresentou maior média de disfluências típicas da gagueira no grupo masculino foi de 18-27 anos, e no feminino foram os pré-escolares. A menor média de DTG do grupo masculino foi apresentada pelos adolescentes, e pelos adultos de 28 a 59 anos do sexo feminino. O valor de p para os

indivíduos foi obtido por meio do teste “*Jonckheere-Terpstra*” verificando-se que não houve diferença estatisticamente significativa para os indivíduos do grupo masculino, e a diferença foi significativa no grupo feminino.

Tabela 5 – Valores encontrados da porcentagem de disfluências típicas da gagueira no grupo masculino e feminino por classificação etária.

Disfluências Típicas da Gagueira								
Classe Etária	Masculino				Feminino			
	Mín	\bar{X}	MD	Máx	Mín	\bar{X}	MD	Máx
PE	3,00	8,17	10,50	11,00	3,00	10,27	8,00	30,00
E	4,00	6,50	6,25	10,00	3,00	7,11	6,00	19,00
A	4,00	6,00	5,25	10,00	3,00	6,40	4,50	21,00
18-27	4,00	9,13	8,75	15,00	3,00	5,10	3,50	14,00
28-59	4,00	7,19	5,25	15,00	3,00	4,68	4,00	11,00
Valor p	0,716				< 0,001*			

Valor-p referente ao Teste de *Jonckheere-Terpstra* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.
Legenda: Mín= Mínimo; \bar{X} = Média; MD= Mediana; Máx= Máximo; PE= Pré-escolares; E= Escolares; A= Adolescentes.

A porcentagem das outras disfluências (OD) foi analisada tendo em vista a classificação etária dos indivíduos (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte e oito anos a cinquenta e nove anos) divididos de acordo com o sexo masculino e feminino (Tabela 6). Nota-se que a classe etária que apresentou maior média das outras disfluências no grupo masculino foi os adultos de 28 a 59 anos, e no sexo feminino foi os adultos de 18 a 27 anos. A menor média de OD do grupo masculino foi apresentada pelos adolescentes, e pelos pré-escolares do sexo feminino. O valor de p para os indivíduos foi obtido por meio do teste “*Jonckheere-Terpstra*” verificando-se que não houve diferença estatisticamente significativa para os indivíduos tanto do grupo masculino, como do grupo feminino.

Tabela 6 – Valores encontrados da porcentagem das outras disfluências no grupo masculino e feminino por classificação etária.

Outras Disfluências								
Classe Etária	Masculino				Feminino			
	Mín	\bar{X}	MD	Máx	Mín	\bar{X}	MD	Máx
PE	1,00	5,83	6,00	11,00	0,00	5,91	4,50	12,00
E	1,00	5,00	4,00	13,00	1,00	6,41	6,50	17,00
A	1,00	4,75	3,75	11,00	1,00	6,57	5,50	18,00
18-27	3,00	5,50	5,25	9,00	1,00	7,95	7,50	20,00
28-59	2,00	6,25	7,25	11,00	3,00	6,50	6,00	12,00
Valor de p	0,467				0,408			

Valor-p referente ao Teste de *Jonckheere-Terpstra*. – valores significantes estão em negrito e com asterisco

Legenda: **Mín**= Mínimo; **\bar{X}** = Média; **MD**= Mediana; **Máx**= Máximo; **PE**= Pré-escolares; **E**= Escolares; **A**= Adolescentes.

A porcentagem do total das disfluências (TD) foi analisada tendo em vista a classificação etária (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte e oito anos a cinquenta e nove anos) dos indivíduos divididos de acordo com o sexo masculino e feminino (Tabela 7). Nota-se que a classe etária que apresentou maior média do total das disfluências no grupo masculino foi dos adultos de 18 a 27 anos, e do grupo feminino foram os pré-escolares. A menor média de TD do grupo masculino foi apresentada pelos adolescentes, e pelos adultos de 28 a 59 anos do sexo feminino. O valor de p para os indivíduos foi obtido por meio do teste “*Jonckheere-Terpstra*” verificando-se que não houve diferença estatisticamente significativa para os indivíduos do grupo masculino, e a diferença foi significativa no grupo feminino.

Tabela 7 – Valores encontrados da porcentagem total de disfluências no grupo masculino e feminino por classificação etária.

Total de Disfluências								
Classe Etária	Masculino				Feminino			
	Mín	\bar{X}	MD	Máx	Mín	\bar{X}	MD	Máx
PE	12,00	14,00	13,50	17,00	8,00	16,18	17,00	30,00
E	6,00	11,50	11,75	17,00	4,00	13,52	12,50	36,00
A	5,00	10,75	10,25	18,00	5,00	12,97	9,00	39,00
18-27	7,00	14,63	14,00	24,00	4,00	13,05	11,00	32,00
28-59	6,00	13,44	13,75	24,00	6,00	11,18	11,50	19,00
Valor de p	0,923				0,038*			

Valor-p referente ao Teste de *Jonckheere-Terpstra*. – valores significantes estão em negrito e com asterisco

Legenda: **Mín**= Mínimo; \bar{X} = Média; **MD**= Mediana; **Máx**= Máximo; **PE**= Pré-escolares; **E**= Escolares; **A**= Adolescentes.

A análise intergrupos masculino e feminino foi realizada de acordo com as diferentes frequências de disfluências apresentadas, a saber, porcentagem de disfluências típicas da gagueira (%DTG), porcentagem das outras disfluências (%OD) e porcentagem do total das disfluências (%TD) (Tabela 8). O valor de p foi obtido por meio do teste “*Mann-Whitney*”, não sendo encontradas diferenças estatisticamente significantes para as três variáveis analisadas na comparação entre o grupo masculino e grupo feminino.

Tabela 8 – Valores encontrados da frequência das disfluências no grupo masculino e feminino.

Variável	Sexo	Mín.	Média	Mediana	Máx.	DP	Valor p
% DTG	Fem.	3,00	7,26	6,50	15,00	3,75	
	Mas.	3,00	6,81	5,00	30,00	4,00	0,305
% OD	Fem.	1,00	3,78	6,00	13,00	3,78	
	Mas.	0,00	4,17	6,00	20,00	4,17	0,392
% TD	Fem.	5,00	5,34	13,50	24,00	5,34	
	Mas.	4,00	7,01	12,00	39,00	7,01	0,837

Valor-p referente ao Teste do Teste de *Mann-Whitney* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Legenda: **Mín**= Mínimo; **Máx**= Máximo; **DP**= Desvio-padrão; **%DTG**= Porcentagem de Disfluências Típicas da Gagueira; **% OD**= Porcentagem de Outras disfluências; **%TD**= Porcentagem do Total de disfluências; **Fem.**= Feminino; **Mas.**= Masculino.

7.1.3 Taxa de elocução

Na Tabela 9 são apresentados os valores da distribuição dos indivíduos por classificação etária mostrando a média e desvio-padrão do fluxo de sílabas (SPM) e de palavras por minuto (PPM). Nota-se que tanto no grupo masculino como no grupo feminino, os adultos de 18 a 27 anos apresentaram maior fluxo de sílabas por minuto, e os pré-escolares menores fluxos de SPM. O valor de p foi obtido por meio do teste “*Qui-quadrado para Proporções*” verificando-se que houve diferença estatisticamente significativa para o fluxo de sílabas e de palavras por minuto por classificação etária. No fluxo de sílabas por minuto os pré-escolares apresentaram menor taxa de elocução do que os adultos de 18-27 anos e do os adultos de 28-59 anos.

Tabela 9 - Valores encontrados da média e do desvio padrão do fluxo de sílabas e de palavras por minuto, de acordo com a classificação etária.

Variável	Sílabas por minuto	Palavras por minuto
	Média (DP)	Média (DP)
PE	118,59 (55,98)	82,24 (42,47)
E	145,97 (50,61)	86,33 (43,22)
A	163,25 (51,08)	101,12 (26,45)
18-27	190,66 (41,00)	114,51 (27,80)
28-59	186,03 (40,47)	114,42 (31,93)
Valor de p	< 0,001*	< 0,001*

Valor-p referente ao Teste do *Qui-quadrado para Proporções* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Teste de *Mann-Whitney*, ajustado pela *Correção de Bonferroni* – SPM (PE≠18-27; PE≠28-59).

Legenda: DP= Desvio Padrão; PE= Pré-Escolares, E= Escolares; A= Adolescentes.

A análise intragrupo feminino foi realizada quanto ao fluxo de sílabas (SPM) e de palavras por minuto (PPM) tendo em vista a classificação etária (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte e oito anos a cinquenta e nove anos) (Tabela 10). Pode-se observar que, tanto para o fluxo de SPM como para o fluxo de PPM, a maior média do grupo feminino foi apresentada pelos adultos de 18 a 27 anos, e a menor média pelos pré-escolares. O valor de p para os indivíduos foi obtido por meio do teste “*Jonckheere-Terpstra*” verificando-se que no grupo feminino houve diferença estatisticamente significativa quando comparada as diferentes classes etárias para o fluxo de

sílabas por minuto, e não houve diferença estatisticamente significativa para fluxo de palavras por minuto. No fluxo de sílabas por minuto os pré-escolares apresentaram menor taxa de elocução do que os adultos de 18-27 anos.

Tabela 10 – Valores encontrados no fluxo de sílabas e de palavras por minuto por classificação etária do grupo feminino.

C.E	Sílabas por minuto				Palavras por minuto			
	Mín	\bar{X}	MD	Máx	Mín	\bar{X}	MD	Máx
PE	30,00	122,89	134,80	197,00	21,00	85,95	80,20	168,00
E	53,00	147,28	142,25	241,00	13,00	89,15	86,00	212,00
A	71,00	169,71	160,00	241,00	45,00	105,28	106,00	154,00
18-27	123,00	199,22	204,95	244,00	83,00	115,52	117,35	144,00
28-59	120,00	187,42	189,00	239,00	68,00	105,82	108,00	135,00
Valor de p	< 0,001*				0,016			

Valor-p referente ao teste *Jonckheere-Terpstra*, – valores significantes estão em negrito e com asterisco. Teste de *Mann-Whitney*, ajustado pela *Correção de Bonferroni* – SPM (PE≠18-27).

Legenda: SPM= Sílabas por minuto; PPM= Palavras por minuto; C.E= Classe etária; Mín= Mínimo; \bar{X} = Média; MD= Mediana; Máx= Máximo; PE= Pré-escolares; E= Escolares; A= Adolescentes.

A análise intragrupo masculino foi realizada quanto ao fluxo de sílabas (SPM) e de palavras por minuto (PPM) tendo em vista a classificação etária (pré-escolares, escolares, adolescentes, de dezoito anos a vinte e sete anos, e vinte e oito anos a cinquenta e nove anos) (Tabela 11). Pode-se observar que, tanto para o fluxo de SPM como para o fluxo de PPM, a maior média do grupo masculino foi apresentada pelos adultos de 28 a 59 anos, e a menor média pelos pré-escolares. O valor de p para os indivíduos foi obtido por meio do teste “*Jonckheere-Terpstra*” verificando-se que no grupo masculino houve diferença estatisticamente significativa quando comparada as diferentes classes etárias para o fluxo de palavras por minuto, e não houve diferença estatisticamente significativa para fluxo de sílabas por minuto. No fluxo de palavras por minuto os escolares apresentaram menor taxa de elocução do que os adultos de 28-59 anos.

Tabela 11 – Valores encontrados no fluxo de sílabas e de palavras por minuto nas diferentes classes etária do grupo masculino.

C.E	Sílabas por minuto				Palavras por minuto			
	Mín	\bar{X}	MD	Máx	Mín	\bar{X}	MD	Máx
PE	17,00	102,83	98,00	194,00	31,00	68,67	56,00	119,00
E	112,00	139,83	141,50	159,00	23,00	73,17	81,00	93,00
A	70,00	139,00	155,50	175,00	74,00	85,50	87,00	94,00
18-27	85,00	169,25	190,00	212,00	51,00	112,00	114,50	168,00
28-59	117,00	184,13	180,50	256,00	83,00	126,25	109,00	199,00
Valor de p	0,007				0,002*			

Valor-p referente ao teste *Jonckheere-Terpstra*, – valores significantes estão em negrito e com asterisco. Teste de *Mann-Whitney*, ajustado pela *Correção de Bonferroni* – PPM (E≠28-59).

Legenda: SPM= Sílabas por minuto; PPM= Palavras por minuto; C.E= Classe etária; Mín= Mínimo; \bar{X} = média; MD= Mediana; Máx= Máximo; PE= Pré-escolares; E= Escolares; A= Adolescentes.

A análise intergrupos masculino e feminino foi analisada de acordo com os fluxos de sílabas (SPM) e de palavras por minuto (PPM) (Tabela 12). O valor de p foi obtido por meio do teste “*Mann-Whitney*”, não sendo encontradas diferenças estatisticamente significantes para a taxa de elocução (SPM e PPM) na comparação entre o grupo masculino e grupo feminino.

Tabela 12 – Valores encontrados do fluxo de sílabas e de palavras por minuto no grupo masculino e feminino.

Variáveis	Sexo	Mín.	Média	Mediana	Máx.	DP	Valor P
SPM	Fem.	17,00	154,14	157,00	256,00	51,83	0,622
	Mas.	30,00	161,00	158,46	244,00	53,92	
PPM	Fem.	23,00	97,80	93,00	199,00	40,95	0,572
	Mas.	13,00	97,87	101,40	212,00	37,32	

Valor-p referente ao *Teste de Mann-Whitney* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Legenda: Mín= Mínimo; Máx= Máximo; DP= Desvio-padrão; SPM= Sílabas por minuto; PPM= Palavras por minuto; Fem.= Feminino; Mas.= Masculino.

7.1.4 Gravidade da gagueira

Na Tabela 13 são apresentados os valores da distribuição dos indivíduos por classificação etária mostrando o número de indivíduos nas diferentes gravidades da gagueira e sua respectiva porcentagem. O valor de p foi obtido por meio do teste “*Qui-quadrado para Proporções*” verificando-se que não houve diferença estatisticamente significativa para nenhuma das gravidades quando comparada a frequência nas diferentes classes etárias.

Tabela 13 - Valores encontrados sobre o número e a porcentagem das diferentes gravidades da gagueira de acordo com a classificação etária.

	Gravidade			
	Leve	Moderada	Grave	Muito grave
	N (%)	N (%)	N (%)	N (%)
PE	5 (35,70)	5 (35,70)	2 (14,30)	2 (14,30)
E	14 (41,20)	11 (32,40)	8 (42,10)	1 (2,90)
A	10 (52,60)	8 (42,10)	1 (5,30)	0 (0,00)
18-27	7 (50,00)	6 (42,90)	1 (7,10)	0 (0,00)
28-59	9 (47,40)	8 (42,10)	2 (7,10)	0 (0,00)
Valor de p	0,966	0,988	0,902	0,950

Valor-p referente ao Teste do *Qui-quadrado para Proporções* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Legenda: N= Número; %= Porcentagem **PE**= Pré-escolares; **E**= Escolares; **A**= Adolescentes.

Na Tabela 14 são apresentados a média dos escores da frequência, da duração, dos concomitantes físicos e escore total dos indivíduos distribuídos de acordo com a gravidade da gagueira. Pode-se observar que, o grupo de indivíduos leves apresentou maior variabilidade em relação aos indivíduos dos grupos moderados, graves e muito graves.

Tabela 14 - Escore da frequência, da duração e dos concomitantes físicos e escore total dos indivíduos do grupo de adultos com gagueira conforme o Instrumento de Gravidade da Gagueira.

Instrumento de Gravidade da Gagueira				
Média (DP)				
Gravidade	Escore da Frequência	Escore da Duração	Escore dos Concomitantes Físicos	Escore Total
Leve (N=45)	9,11 (2,97)	5,00 (12,94)	2,50 (2,16)	16,63 (31,16)
Moderada (N=38)	10,33 (3,37)	8,00 (3,02)	4,30 (2,55)	22,63 (3,95)
Grave (N=14)	13,73 (2,49)	9,60 (1,72)	6,80 (2,65)	30,13 (1,40)
Muito Grave (N=3)	16,66 (1,15)	10,66 (3,05)	10,66 (3,05)	38,00 (6,24)
Total (N=100)	10,47 (3,38)	6,94 (3,38)	4,04 (3,04)	21,46 (6,50)

Legenda: DP= Desvio Padrão; N= Número.

A análise intergrupos masculino com o feminino em relação à gravidade é apresentada na Tabela 15. O valor de p foi obtido por meio do teste “*Qui-quadrado para Proporções*” para verificar possíveis diferenças entre os grupos masculino e feminino com relação à gravidade da gagueira, e mostrou que não houve diferença estatisticamente significativa para nenhuma das gravidades.

Tabela 15 - Valores encontrados do número e porcentagem das diferentes gravidades da gagueira de acordo com os sexos masculino e feminino.

		N (%)	Valor p
Leve	Fem.	9,00 (36,00)	0,966
	Masc.	36,00 (48,00)	
Moderada	Fem.	10,00 (40,00)	0,988
	Masc.	28,00 (37,30)	
Grave	Fem.	5,00 (20,00)	0,902
	Masc.	9,00 (12,00)	
Muito Grave	Fem.	1,00 (4,00)	0,950
	Masc.	2,00 (2,70)	

Valor-p referente ao Teste do *Qui-quadrado para Proporções* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Legenda: N= Número; %= Porcentagem; **Fem.**= Feminino; **Masc.**= Masculino.

Na Tabela 16 são apresentados os valores dos resultados da estatística da gravidade em relação à classificação etária. Em relação à gravidade da gagueira, a maior parte da amostra apresentou gagueira leve. O valor de p foi obtido por meio do teste “*Qui-quadrado para Proporções*” verificando-se que não houve diferença estatisticamente significativa para nenhuma das gravidades.

Tabela 16 - Valores encontrados das diferentes gravidades da gagueira de acordo com a classificação etária.

Gravidade da gagueira						
	PE	E	A	18-27	28-59	Valor p
Leve	5,00	14,00	10,00	7,00	9,00	0,966
Moderada	5,00	11,00	8,00	6,00	8,00	0,988
Grave	2,00	8,00	1,00	1,00	2,00	0,902
Muito Grave	2,00	1,00	0,00	0,00	0,00	0,950

Valor-p referente ao Teste do *Qui-quadrado para Proporções* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Legenda: PE= Pré-escolares; E= Escolares; A= Adolescentes.

7.2 Análise da frequência familiar e sexual

Os resultados serão apresentados na seguinte ordem: (1) frequência familiar e (2) frequência sexual.

7.2.1 Frequência familiar

A frequência familiar da gagueira nos probandos gagos foi investigada por meio da contagem do número de familiares do sexo masculino e feminino que apresentavam gagueira para cada probando (Tabela 17).

O valor de p foi obtido por meio do teste “*Qui-quadrado para Proporções*”. Na análise do total dos familiares (masculino e feminino) foi possível verificar que os probandos do sexo masculino apresentaram mais familiares afetados do que os probandos do sexo feminino (p= 0,042).

Tabela 17 - Frequência familiar da gagueira em parentes dos probandos, representada pelo número de indivíduos gagos do sexo masculino e feminino divididos pelo número total de parentes do sexo masculino e feminino.

	Probandos do sexo masculino	Probandos do sexo Feminino	Total dos probandos
Familiares gagos do sexo masculino	111/1015= 0,11	42/937= 0,04	153/1952= 0,08
Familiares gagos do sexo feminino	48/282= 0,17	12/254= 0,05	60/536= 0,11
Valor de p	0,269	0,966	0,404
Total dos familiares gagos (masculino e feminino)	159/1297= 0,12	54/1191= 0,04	213/2488= 0,08
Valor de p	0,042*		

Valor-p referente ao Teste do *Teste de Qui-quadrado* – valores significantes estão em negrito e com asterisco.

Na Tabela 18 são apresentados os valores referentes ao número total de familiares separados em primeiro, e segundo e terceiro grau, número de familiares afetados e a frequência de familiares afetados de acordo com o grau de parentesco.

Tabela 18 - Frequência familiar da gagueira distribuída em familiares de primeiro grau, segundo e terceiro grau.

	Todos familiares (afetados e não afetados)	Número de familiares afetados	Frequência de familiares afetados
1° grau	373	72	72/373 = 0,19
2° e 3° grau	2115	141	141/ 2115= 0,07
Total	2488	213	213/2488 = 0,08

Na Tabela 19 são apresentados os valores da frequência da gagueira nos diferentes familiares dos 100 probandos, distribuídos de acordo com o grau de parentesco com o probando.

Tabela 19 - Frequência de gagueira nos familiares dos probandos do sexo masculino e feminino de acordo com o grau de parentesco.

Familiares	Probandos Gagos		Total
	Sexo Masculino	Sexo Feminino	
Núcleo Familiar 1º grau			
Pai	21	7	28
Mãe	10	3	13
Filho	3	4	7
Filha	2	1	3
Irmão	7	5	12
Irmã	9	0	9
Total	52 (72,0%)	20 (28,0%)	72 (100%)
Familiares- 2º e 3º graus			
Tio Mat	13	4	17
Tio Pat	15	8	23
Tia Mat	2	1	3
Tia Pat	5	2	7
Primo Mat	19	2	21
Primo Pat	9	2	11
Prima Mat	6	1	7
Prima Pat	3	2	5
Avô Mat	5	1	6
Avô Pat	2	2	4
Avó Mat	3	0	3
Avó Pat	2	1	3
Sobrinho Mat	1	2	3
Sobrinho Pat	2	2	4
Sobrinha Mat	0	0	0
Sobrinha Pat	0	0	0
Tio avô Mat	5	2	7
Tio avô Pat	5	0	5
Tia avó Mat	4	0	4
Tia avó Pat	1	0	1
Meio irmão Mat	0	0	0
Meio irmão Pat	0	1	1
Meia irmã Mat	0	0	0
Meia irmã Pat	1	1	2
Bisavô Mat	0	0	0
Bisavô Pat	3	0	3
Bisavó Mat	0	0	0
Bisavó Pat	1	0	1
Total	107 (76%)	34 (24%)	141 (100%)
Total de familiares	159 (75%)	54 (25%)	213 (100%)

Legenda: Pat= Paterno; Mat= Materno.

7.2.2 Frequência sexual

Na Tabela 20 são apresentados os valores da distribuição dos familiares afetados de acordo com o sexo e o razão masculino/feminino.

Tabela 20 - Distribuição dos familiares afetados de acordo com o sexo e a razão masculino/feminino.

	Sexo Masculino	Sexo Feminino	Razão M/F
Probandos	75 (75%)	25 (25%)	75/25= 3,00
Familiares afetados	159 (75%)	54 (25%)	159/54= 2,94
Total	234 (75 %)	79 (25%)	234/79= 2,96

Legenda: M/F= Masculino/Feminino

DISCUSSÃO

8.0 - DISCUSSÃO

Nesta parte da dissertação, os resultados encontrados neste estudo serão confrontados com a literatura compilada. A discussão seguirá a divisão proposta nos resultados, ou seja, inicialmente serão discutidos os resultados do perfil da fluência, e posteriormente os resultados da frequência familiar e sexual.

Esta pesquisa teve como objetivo caracterizar o perfil da fluência de um grupo de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar e a frequência do distúrbio nos familiares. Portanto, a hipótese levantada foi a de que os fluxos de sílabas e de palavras por minuto estarão reduzidos em relação aos dados da normalidade, tendo em vista que os participantes apresentarão um aumento na quantidade de disfluências. Com base nos pressupostos teóricos é possível afirmar, a maior parte dos participantes apresentará gravidade classificada como leve, conforme a literatura aponta. Quanto à frequência familiar, pode-se supor que em relação ao grau de parentesco, será maior nos familiares de primeiro grau, e com respeito ao sexo, espera-se que o número de familiares com gagueira do sexo masculino seja maior do que do sexo feminino.

Para realizar esse objetivo foi investigada a história clínica e familiar, e por meio do registro audiovisual da fala espontânea foi calculada a frequência das disfluências incluindo as disfluências típicas da gagueira (DTG), as outras disfluências (OD) e o total das disfluências (TD), bem como a taxa de elocução (sílabas por minuto – SPM, e palavras por minuto - PPM) e classificada a gravidade da gagueira. Os dados relativos à história familiar foram analisados para calcular a frequência familiar e sexual da gagueira.

8.1 Perfil da fluência

Na caracterização do perfil da fluência dos indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar verificou que o tipo de disfluência típica da gagueira com maior prevalência foi repetição de palavras (acima de três), e o tipo menos frequente foi a pausa. Os dados relativos à tipologia mais frequente discordam de diversos autores (ANDERSON; PELLOWSKI; CONTURE, 2005; BOEY et al., 2007; JUSTE; ANDRADE, 2006; PINTO, 2012) que encontraram prolongamentos, bloqueios e repetição de sílabas mais frequentes, e foram semelhantes aos achados de Yairi e colaboradores (1999) que relatou a repetição de palavra monossilábica.

A pausa também foi a disfluência típica da gagueira que menos ocorreu na fala dos adultos do estudo de Pinto (2012). Sabe-se que, a pausa pode ser classificada como típica da gagueira, por exemplo, segundo o instrumento ABFW (ANDRADE, 2011). No entanto, concordamos que a pausa também pode ser utilizada com a mesma função da hesitação, propiciando ao indivíduo mais tempo para concluir a mensagem ou para introduzir uma nova informação (BORTFELD et al., 2001; MONIZ et al., 2007).

A pausa, ou também intitulada de pausa silente, é uma estratégia de ganho de tempo para a formulação do enunciado sem existir a adição de palavras desnecessárias ou de fragmentos delas (GUO; TOMBLIN; SAMELSON, 2008). Também ocorre quando há uma sobrecarga de informações relacionadas ao processamento linguístico e pode ser utilizada na manutenção da estrutura prosódica do enunciado (KRIVOKAPI, 2007; MACGREGOR; CORLEY; DONALDSON, 2010).

A hesitação também foi descrita como utilizada como uma consequência de uma maior demanda ou no processo de planejamento das frases (CORLEY; STEWART, 2008). Tanto a pausa como a hesitação podem ser inseridas nos momentos de dúvida em relação à palavra ou à mensagem que vai ser emitida. Apesar de não ser fácil determinar a razão exata do uso das disfluências pelo falante, especialmente se a investigação é realizada durante uma fala gravada, algumas sugestões foram realizadas: no momento de encontrar a resposta para uma pergunta o falante também pode utilizar uma pausa ou hesitação; para auxiliar a encontrar as próximas palavras, e nos momentos de incertezas e fazer escolhas (CORLEY; STEWART, 2008).

Neste estudo, em conformidade com o que encontramos na literatura (JUSTE; ANDRADE, 2006; PINTO, 2012), a interjeição e a hesitação foram as rupturas, dentre as classificadas como outras disfluências, com maior ocorrência na população de indivíduos com gagueira. Esse achado é semelhante aos indivíduos fluentes, tendo em vista que estudos realizados com adultos fluentes falantes do inglês canadense (ROBERTS; MELTZER; WILDING, 2009) e do português brasileiro (ANDRADE; JUSTE, 2011; JUSTE; ANDRADE, 2006; PINTO, 2012) mostraram semelhantemente a interjeição como a disfluência de maior ocorrência, seguida de revisões e hesitações. Neste sentido, os resultados sugerem que os aspectos qualitativos das outras disfluências foram semelhantes aos indivíduos sem gagueira.

A ocorrência da hesitação, segundo Juste e Andrade (2006) pode ser entendida como um tempo adicional necessário para o ajuste temporal dos eixos paradigmáticos e sintagmáticos. Os achados confirmam descrições que relataram que devido à alta

complexidade do processo da fala todos os falantes apresentam as outras disfluências (BLOODSTEIN, 1995; CORDES; INGHAM, 1995; DEGIOVANI; CHIARI; SCHIEFER, 1999; DUCHIN; MYSAK, 1987; LEEPER; CULATTA, 1995; PERKINS, 1990; THRONEBURG; YAIRI, 1990; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI; AMBROSE; NIERMANN, 1993; ZACKIEWICZ, 1999), inclusive os indivíduos com gagueira.

Os dados obtidos na fala espontânea dos adultos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar permitiram verificar que em média o grupo manifestou 13,25% de rupturas, sendo aproximadamente metade caracterizada como disfluências típicas da gagueira (DTG) e a outra metade como outras disfluências (OD). Este equilíbrio na distribuição da ocorrência de rupturas dos adultos com gagueira entre DTG e OD encontrado neste estudo é similar aos resultados de uma pesquisa realizada com 40 crianças gagas falantes do português brasileiro (JUSTE; ANDRADE, 2006), e semelhante aos resultados de um estudo com 10 adultos com gagueira de diferentes gravidades (10,25% de TD - 5,25% de OD e 5,02% de DTG) (SOUZA et al., 2013).

No entanto, os dados sobre essa distribuição similar das rupturas no grupo de indivíduos com gagueira diferem dos achados sobre as disfluências em pessoas fluentes, pois fluentes falantes do português brasileiro de todas as faixas etárias mostraram que ocorre uma maior quantidade de outras disfluências em relação às disfluências típicas da gagueira (MARTINS; ANDRADE, 2008). Os dados sugerem, portanto, que o perfil da fluência de pessoas com gagueira do desenvolvimento persistente familiar distingue do perfil das pessoas fluentes na distribuição entre as outras disfluências e as disfluências típicas da gagueira.

Esse achado é relevante uma vez que auxilia na realização do diagnóstico fonoaudiológico, tanto com relação às manifestações clínicas, como em relação aos fatores de risco. Os dados reforçam a importância da avaliação da fluência realizada por meio de medidas, que fornecem informações essenciais como indicadores de risco para o desenvolvimento da gagueira do desenvolvimento persistente.

Os resultados concordam que a presença excessiva de disfluências típicas da gagueira é o fator primordial do distúrbio (YARUSS, 2010). Essas disfluências crônicas presentes no quadro de gagueira do desenvolvimento prejudicam a habilidade do falante de produzir emissões suaves, sem esforço e contínuas (ANDRADE; CERVONE; SASSI, 2003).

Vale destacar que, algumas definições de gagueira descreveram a presença de um aumento na quantidade de disfluências típicas da gagueira (BLEEK et al., 2012; CIVIER et al., 2013; COOK; DONLAN; HOWELL, 2013). Os resultados deste estudo concordam com estas descrições, pois a média apresentada pelo grupo foi de 6,92% destas disfluências, e o

critério utilizado pela comunidade científica reconhece o mínimo de 3% (BLOODSTEIN, 1995; GREGG; YAIRI, 2012; GREGORY; HILL, 1993; TUMANOVA; CONTURE; LAMBERT, 2014; YAIRI; AMBROSE, 1992; YAIRI et al., 1996).

Especificamente sobre a frequência de disfluências típicas da gagueira, o resultado obtido neste estudo (6,93%) foi semelhante aos achados de uma pesquisa realizada com 22 adultos falantes do inglês americano com gagueira do desenvolvimento persistente (7,1%) (INGHAM et al., 2013). O valor também foi próximo ao encontrado por Juste e Andrade (2006) (8,10%) no estudo de 40 crianças gagas.

O valor de DTG (6,93%) encontrado foi aumentado quando comparado com os achados de indivíduos fluentes (1,22% - 20 crianças brasileiras, JUSTE; ANDRADE, 2006; 2,46% - 130 adolescentes brasileiros, ANDRADE; MARTINS, 2007; 0,42% - 79 crianças holandesas, BOEY et al., 2007).

Os resultados concordam com a descrição da tipologia das disfluências como um fator de risco importante para o surgimento da gagueira persistente (ANDRADE, 2006a). Como descrito no Protocolo de Risco para a Gagueira do Desenvolvimento (PRGD, ANDRADE, 2006a), a maior quantidade de disfluências gagas ou típicas da gagueira indica um risco para o surgimento da gagueira do desenvolvimento persistente.

Outro estudo que investigou a prevalência dos fatores de risco para a gagueira num grupo de 20 meninos gagos e 20 meninos fluentes mostrou que os meninos gagos manifestaram sete vezes mais disfluências típicas da gagueira em relação aos meninos fluentes (OLIVEIRA; NOGUEIRA, 2014). Os resultados desta pesquisa, portanto, concordam com descrições prévias (ANDRADE, 2006a; OLIVEIRA; NOGUEIRA, 2014) que descreveram a presença de disfluências típicas da gagueira como um importante fator de risco para o desenvolvimento da gagueira do desenvolvimento persistente.

No entanto, destaca-se o fato de que indivíduos com gagueira também manifestam as outras disfluências que fazem parte da comunicação de qualquer falante (SOUZA et al., 2013). Além disso, as disfluências desempenham um papel estrutural na organização discursiva (CLARK; FOZ-TREE, 2002; LEVELT, 1989; SWERTS, 1998). Esses dados sugerem que essa característica ocorre em qualquer idade, tendo em vista que uma investigação realizada com crianças com gagueira, também mostrou a presença de outras disfluências ou nomeadas de disfluências comuns (JUSTE; ANDRADE, 2006).

Quando os dados foram comparados com falantes fluentes do português brasileiro, foi possível observar que os indivíduos com gagueira manifestaram o valor da frequência do total de disfluências aumentado em relação aos fluentes (MARTINS; ANDRADE, 2008). Este

achado era esperado uma vez que a principal manifestação da gagueira é o aumento na frequência de disfluências típicas da gagueira (BLEEK et al., 2012; CIVIER et al., 2013; COOK; DONLAN; HOWELL, 2013), e a soma dessas disfluências com as outras disfluências é o que ocasionou o aumento do total da disfluências.

Com relação à distribuição das frequências das disfluências no decorrer das classes etárias investigadas, a análise mostrou diferença significativa para a quantidade de disfluências típicas da gagueira (DTG). No entanto, não foram comprovadas diferenças significantes entre as classes etárias na comparação par a par. Notou-se apenas uma tendência do grupo de pré-escolares apresentar mais DTG do que os adultos de 18 a 27 anos. Os achados sugerem uma tendência da diminuição na quantidade de DTG e do total das disfluências (TD) ao longo da vida.

A diminuição na porcentagem de ocorrência das disfluências em função da idade tem sido justificada pelo desenvolvimento linguístico, principalmente quanto às representações léxico-sintáticas e semânticas (GUO; TOMBLIN; SAMELSON, 2008) e, também, pela maturidade do sistema neuromotor da fala (MARTINS; ANDRADE, 2008).

Quando a análise das frequências das disfluências ao longo da vida foi realizada separadamente no grupo masculino e feminino, foi possível observar que ocorreram diferenças significantes para DTG e TD no feminino. Porém, a comparação par a par não revelou diferenças específicas entre as diversas classes etárias. Os achados sugerem que, as mulheres que gaguejam apresentam uma maior tendência de diminuir as disfluências quando comparadas com os homens, pois foi possível observar que os valores de DTG e TD foram diminuindo com o passar dos anos. A média de DTG das mulheres de 28 a 59 anos foi 50% menor do que a média das meninas pré-escolares.

Os valores encontrados tanto para os fluxos de sílabas como de palavras por minuto (159,29 SPM e 97,85 PPM) concordam aos encontrados num estudo realizado com 15 indivíduos com gagueira falantes do português brasileiro, com idade entre 17 e 48 anos (166,30 SPM e 95,7 PPM, PINTO, 2012). No entanto, a comparação destes valores com os achados de falantes fluentes mostraram inconsistência, ou seja, para algumas classes etárias estiveram diminuídos e para outras aumentados, ou bem próximos dos valores da normalidade.

Quanto à taxa de elocução observou-se um aumento tanto em sílabas quanto em palavras por minuto, que foi da infância até a fase adulta. Esses achados foram semelhantes aos resultados encontrados no grupo de fluentes falantes do português brasileiro (MARTINS; ANDRADE, 2008), como falantes do inglês (BLOCK; KILLEN, 1996). Sugere-se, portanto,

que esta tendência de aumento da taxa da elocução entre a infância e a fase adulta, ocorre para todos os falantes, fluentes e gagos.

Observou-se que pré-escolares apresentaram diferenças significantes em relação ao fluxo de sílabas por minuto quando comparados com os adultos de 18 a 27 anos e de 28 a 59 anos de idade. Adultos com gagueira apresentaram maiores taxas articulatórias do que os pré-escolares gagos, concordando com a descrição dos achados em fluentes (MARTINS; ANDRADE, 2008).

A análise da taxa de elocução separada nos grupos masculino e feminino mostrou que, as mulheres gagas de 18 a 27 anos apresentaram maior taxa articulatória do que as meninas gagas pré-escolares e, os homens gagos de 28 a 59 anos mostraram maior fluxo de informação do que meninos escolares com gagueira. Esses resultados concordam com a sugestão realizada por Martins e Andrade (2008) de que com o passar dos anos, as variabilidades das trajetórias articulatórias diminuem, e a velocidade dos movimentos de fala aumenta. Portanto, essa tendência parece ocorrer de forma semelhante entre indivíduos com e sem gagueira.

Não houve diferenças significantes tanto em relação às frequências de disfluências, como em relação à taxa de elocução entre os indivíduos do sexo masculino e feminino. Esse achado reafirma os descritos da literatura, tanto com relação aos indivíduos fluentes (ANDRADE; MARTINS, 2007), como em relação à população de indivíduos com gagueira (AMBROSE; YAIRI, 1999; JOHNSON, 1959).

As características da gagueira foram comparadas entre os indivíduos do sexo masculino e do sexo feminino e os resultados mostraram pouca ou nenhuma diferença estatisticamente significativa do sexo, confirmando achados anteriores (AMBROSE; YAIRI, 1999; ANDRADE; MARTINS, 2007; JOHNSON, 1959).

Os achados referentes à gravidade do distúrbio não mostraram consenso na literatura. Nossos resultados discordam dos dados referentes aos probandos de outro estudo realizado com 17 crianças com gagueira, pois 53% foram classificadas como gagueira moderada, 29,4% como gagueira leve e 17,6% grave (ANDRADE, 2010). Na mesma publicação, a autora mostrou que 95% dos familiares afetados (total de 20 pessoas familiares de primeiro grau) apresentou gagueira leve, resultado este similar ao encontrado neste estudo.

Os resultados desta pesquisa foram semelhantes a um estudo realizado com 10 adultos com gagueira, no qual 50% foi classificado com gagueira leve, 10% moderada, 20% grave e 20% muito grave (SOUZA et al., 2013), sugerindo, portanto, que a gagueira leve é a mais prevalente.

Estes achados são importantes para os fonoaudiólogos que realizam o diagnóstico dos distúrbios da comunicação, pois auxiliam na distinção com maior segurança dos distúrbios da fluência, contribuindo também para a classificação da gravidade do distúrbio, e conseqüentemente, a avaliação da eficácia terapêutica.

8.2 Análise da frequência familiar e sexual

Os resultados quanto aos dados da frequência serão apresentados na seguinte ordem: (1) frequência familiar e (2) frequência sexual.

8.2.1 Frequência familiar

Nossos resultados mostraram que a maior frequência da gagueira (17%) ocorreu entre os familiares do sexo feminino de probandos do sexo masculino, discordando de estudos prévios (ANDREWS et al. 1983; KIDD; HEIMBUCH; RECORDS, 1981; YAIRI, 1983) que relataram maior frequência da gagueira nos familiares do sexo masculino provenientes de probandos femininos. No entanto, em nosso estudo, a diferença entre o número de familiares afetados do sexo masculino e feminino provenientes dos probandos do sexo masculino não foi estatisticamente significativa.

Não houve também diferença estatisticamente significativa entre a frequência de familiares afetados do sexo masculino quando comparados ao sexo feminino, nas análises dos familiares provenientes dos probandos do sexo feminino e do total dos probandos. Porém, as frequências entre os familiares afetados de ambos os sexos de probandos masculino foi estatisticamente significativamente maior do que de probandos femininos de familiares afetados de ambos os sexos, provenientes dos probandos do sexo masculino (12%) quando comparados com os familiares afetados de ambos os sexos, provenientes do sexo feminino (4%).

A distribuição da gagueira entre os diversos familiares dos probandos mostrou evidências de que o risco da gagueira não é uniforme para os diferentes graus de parentesco, concordando com estudos anteriores (ANDREWS et al., 1983; AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; COX; SEIDER; KIDD, 1984; FELSENFELD, 1996; LALOUEL et al., 1983; SEIDER; GLADSTEIN; KIDD, 1983). Nossos resultados encontraram a maior prevalência de gagueira nos pais de todos os probandos e para probandos do sexo masculino, esse dado foi semelhante a um estudo realizado com 26 probandos (22 do sexo masculino e 4 do sexo

feminino) na faixa etária de 8 a 42 anos (média de 19,6 anos) (OLIVEIRA, 2004) no qual o mesmo dado foi confirmado. Outro estudo realizado com 69 crianças (48 do sexo masculino e 21 do sexo feminino) com gagueira entre 2 e 6 anos de idade também encontrou maior prevalência de gagueira nos pais para os probandos de sexo masculino (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993).

Os probandos das famílias com gagueira do desenvolvimento persistente mostraram histórico de gagueira em 72 indivíduos dos familiares de primeiro grau (19%), e em 141 indivíduos dos familiares de segundo e terceiro grau (7%). Nossos achados foram próximos dos resultados de Ambrose, Yairi e Cox (1993) que encontraram 17,1% de gagueira na família imediata e Andrews e Harris (1964) e Kidd (1984) que encontraram 15%.

Os achados referentes à maior prevalência da gagueira entre os familiares de primeiro grau quando comparados à frequência de gagueira entre os familiares de segundo e terceiro grau foram concordantes com vários estudos prévios (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; ANDREWS; HARRIS, 1964; KIDD, 1984; SCHIEFER; BARBOSA; PEREIRA, 1999; YAIRI, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992).

A frequência de gagueira de 7% encontrada entre os familiares de segundo e terceiro grau se aproxima dos resultados relatados por vários investigadores de 4-5% (ANDREWS et al., 1983, 1991; COX; SEIDER; KIDD, 1984; COX; KIDD, 1983; GOLDIN et al., 1984; LALOUEL et al., 1983).

8.2.2 Frequência sexual

Para todos os probandos e familiares afetados a razão masculino/feminino foi de 2,96:1, este achado já era esperado tendo em vista que a gagueira ocorre com maior frequência no sexo masculino, conforme descrito previamente (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993, 1997; ANDREWS; HARRIS, 1964; BLOODSTEIN, 1995; FELSENFELD et al., 2000; KIDD; HEIMBUCH; RECORDS 1981; YAIRI; AMBROSE; COX, 1996). Nossa razão foi maior do que a razão 2:1, previamente descrita por Yairi e Ambrose (1992), que analisou uma população de crianças de 2 a 6 anos de idade, e menor à razão de 4:1 ou 5:1 relatado por Bloodstein (1995) e Felsenfeld et al. (2000) (investigaram apenas a população de adultos).

A maior prevalência da gagueira nos indivíduos do sexo masculino pode ser explicada de acordo com alguns pesquisadores (KIDD, K., KIDD, J., RECORDS, 1978; KIDD; HEIMBUCH; RECORDS, 1981; MACFARLANE; HANSON; WALTON, 1991), pela maior penetrância, ao passo que no sexo feminino acredita-se que seja necessário maior carga

genética para que a gagueira se expresse. Outro motivo que também pode contribuir para a diferença na prevalência sexual é a maior taxa de recuperação no sexo feminino (AMBROSE; YAIRI; COX, 1993; BLOODSTEIN, 1995; SEIDER; GLADSTEIN; KIDD, 1983; YAIRI; AMBROSE, 1992).

Os resultados deste estudo podem contribuir como base para novas pesquisas e, apresentam implicações clínicas relevantes, tanto no diagnóstico como no prognóstico do paciente. Neste sentido, o fonoaudiólogo deve incluir em sua rotina diagnóstica o procedimento intitulado de histórico familiar para auxiliar na determinação do risco que essa pessoa apresenta para o desenvolvimento da gagueira persistente, bem como para definir o subtipo de gagueira familiar ou isolada. Além disso, essas informações irão nortear as orientações que o profissional deverá oferecer aos familiares sobre os possíveis riscos que uma pessoa pode apresentar para o surgimento da gagueira.

CONCLUSÃO

9.0 – CONCLUSÃO

A partir desse estudo que teve por objetivo caracterizar o perfil da fluência de um grupo de indivíduos com gagueira do desenvolvimento persistente familiar e determinar a frequência familiar e sexual do distúrbio nos familiares, pode-se concluir que:

- O perfil da fluência de indivíduos gagos apresentou características diferentes do perfil da fluência de indivíduos fluentes tanto com relação aos aspectos quantitativos como em relação aos aspectos qualitativos. Indivíduos com gagueira manifestaram maior quantidade de disfluências típicas da gagueira e do total de disfluências quando comparados com fluentes. No entanto, os achados sobre a taxa de elocução não diferenciou em relação aos fluentes.

- Diferenças na distribuição entre as disfluências típicas da gagueira e as outras disfluências foram observadas, uma vez que indivíduos com gagueira manifestaram uma maior prevalência de disfluências típicas da gagueira em relação às outras disfluências.

- Com relação à gravidade do distúrbio, houve uma tendência do predomínio da gagueira leve.

- A comparação da fluência entre as diferentes classes etárias analisadas mostrou que o grupo comportou-se semelhante aos indivíduos fluentes, ou seja, uma tendência de redução das disfluências e um aumento da taxa de elocução com os passar dos anos. No entanto, vale destacar que, as mulheres mostraram uma tendência de apresentar maior redução das disfluências ao longo da vida do que os homens.

- Os indivíduos do sexo masculino e feminino não apresentaram diferenças quanto às frequências de disfluências, a taxa de elocução e a gravidade da gagueira.

- A frequência da gagueira foi maior nos familiares de primeiro grau em relação aos familiares de segundo e terceiro grau.

- Indivíduos do sexo masculino apresentaram maior frequência da gagueira em relação ao feminino, num razão masculino:feminino de 3:1.

- Baseado nestes achados é possível afirmar que o perfil da fluência de uma grande amostra de falante do português brasileiro com gagueira do desenvolvimento persistente familiar, não diferiu das grandes amostras do inglês americano, demonstrando o caráter biológico (genético) da gagueira do desenvolvimento persistente familiar.

Referências

REFERÊNCIAS

AINSWORTH, S.; FRASER, J. **If your child stutters: A guide for parents** (3rd rev. ed.). Memphis, TN: The Stuttering Foundation of America, 1989.

ALPERMANN, A. et. al. Construct validity of modified time-interval analysis in measuring stuttering and trained speaking patterns. **Journal of Fluency Disorders**, v. 37, p. 42–53, 2012.

AMBROSE, N.G.; YAIRI E. Normative disfluency data for early childhood stuttering. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 42, p. 895-909, 1999.

AMBROSE, N.G.; YAIRI, E. The role of repetition units in the differential diagnosis of early childhood incipiente stuttering. **American Journal of Speech and Language Pathology**, v. 4, p. 82-8, 1995.

AMBROSE, N.G.; YAIRI E.; COX N.J. Genetics aspects of early childhood stuttering. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 36, p. 701-6, 1993.

AMBROSE, N.G.; YAIRI E.; COX N.J. The genetic basis of persistence and recovery in stuttering. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 40, n. 3, p.567-80, 1997.

ANDERSON, A.D; PELLOWSKI, M.W; CONTURE, E.G. Childhood stuttering and dissociations across linguistic domains. **Journal of Fluency Disorders**, v. 30, n. 3, p. 219–53, 2005.

ANDRADE, C.R.F. Abordagem neurolinguística e motora da gagueira. In: FERREIRA L.P.; BÉFI-LOPES D., LIMONGI S.C.O. (Orgs). **Tratado de Fonoaudiologia**. São Paulo: Roca, 2004. p. 1001-16.

ANDRADE, C.R.F. Fluência. In: ANDRADE, C.R.F.; BÉFI-LOPES, D.M.; FERNANDES, F.D.M.; WERTZNER, H.F. (Orgs) **ABFW - Teste de linguagem infantil nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática**, Carapicuíba (SP): Pró-Fono; 2011. p. 51-81.

ANDRADE, C.R.F. **Gagueira infantil: risco, diagnóstico e programas terapêuticos**. Barueri: Pró-Fono, 2006a.

ANDRADE, C.R.F. **Perfil da fluência da fala: parâmetros comparativos diferenciados por idade para crianças, adolescentes, adultos e idosos**. Barueri (SP), Pró-Fono, 2006b. CD-ROM (Série digitais de pesquisas financiadas por agencias de fomento).

ANDRADE, C.R.F. Perfil familiar da fluência da fala - estudo linguístico, acústico e eletromiográfico. **Pró-Fono Revista Atualização Científica**, v. 22, n. 31, p. 69-74, 2010.

ANDRADE, C.R.F.; CERVONE, L.M.; SASSI, F.C. Relationship between the stuttering severity index and speech rate. **São Paulo Medical Journal**. v. 121, n. 2, p. 81-4, 2003.

ANDRADE, C.R.F; JUSTE F.S. Análise sistemática da efetividade do uso da alteração do feedback auditivo para a redução da gagueira. **Jornal da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v. 23, n. 2, p. 187-91, 2011.

ANDRADE, C.R.F.; MARTINS, V.O. Fluency variation in adolescents. **Clinical Linguistics & Phonethics**, v. 21, p. 771-82, 2007.

ANDRADE, C.R.F.; MARTINS, V.O. Variação da fluência da fala em idosos. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 22, n. 1, p. 13-8, 2010.

ANDRADE, C.R.F.; ZACKIEWICZ, D.V.A. Brazilian family: profile of stuttering. Abstracts of the Third World Congress on Fluency Disorders. **Journal of Fluency Disorders**, v. 23, n. 3, p. 252, 2000.

ANDRADE, N.A. et al. Avaliação comportamental do processamento auditivo em indivíduos gagos. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 20, n. 1, p. 43-8, 2008.

ANDREWS, G.; HARRIS, M. **The syndrome of stuttering**. London: Spastics Society, 1964.

ANDREWS, G. et al. Genetic factors in stuttering confirmed. **Archives General Psychiatry**, v. 48, p. 1034-5, 1991.

ANDREWS, G. et al. Stuttering: a review of research findings and theories circa. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 48, p. 226-46, 1983.

ARCURI, C.F. et al. Taxa de elocução de fala segundo a gravidade da gagueira. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 21, n. 1, p. 45-50, 2009.

ASHA. Terminology pertaining to fluency and fluency disorders. **Fluency and Fluency Disorders**, p. 29-36, 1999.

BAKHTIAR, M. et al. Investigation of the reliability of the SSI-3 for preschool Persian-speaking children who stutter. **Journal of Fluency Disorders**, v. 35, v.2, p. 87-91, 2010.

BARBOSA, L.M.G; CHIARI, B.M. **Gagueira: etiologia, prevenção e tratamento**. 2. ed. Barueri: Pró-Fono; 2005.

BEITCHMAN, J. H. Familial transmission of speech and language impairment: a preliminary investigation. **Canadian Journal Psychiatry**, v. 37, p. 151-6, 1992.

BERRY, M. F. A Common Denominator in Twinning and Stuttering. **Jounar Speech Disorders**, v. 3, n. 1, p. 51-7, 1938.

BLEEK, B. et al. Relationship between personality characteristics of people who stutter and the impact of stuttering on everyday life. **Journal of Fluency Disorders**, v. 37, p. 325-33, 2012.

BLOCK, S.; KILLEN, D. Speech rates of Australian English-speaking children and adults. **Australian Journal of Human Communication Research**. v. 24, n. 1, p. 39-44, 1996.

BLOOD, I.M. Disruptions in auditory and temporal processing in adults who stutter. **Perceptual e Motor Skills**, v. 82, n. 1, p. 272-4, 1996.

BLOODSTEIN, O. **A handbook on stuttering**. Chicago: National Easter Seal Society, 1995.

BLOODSTEIN, O.; GROSSMAN, N. Early stuttering: some aspects of their form and distribution. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 24, p. 298-302, 1981.

BOEY, R.A. et al. Characteristics of stuttering-like disfluencies in Dutch-speaking children. **Journal of Fluency Disorders**, v. 32, p. 310-29, 2007.

BORTFELD, H. et al. Disfluency rates in spontaneous speech: Effects of age, relationship, topic, role, and gender. **Language and Speech**, v. 44, p. 123-47, 2001.

BRABO, N.C.; SCHIEFER, A.M. Habilidade de praxia verbal e não-verbal em indivíduos gagos. **Revista CEFAC**, v. 11, n. 4, p. 554-60, 2009.

BRICKER-KATZ, G.; LINCOLN, M.; MCCABE, P. Older people who stutter: Barriers to communication and perceptions of treatment needs. **International Journal of Language and Communication Disorders**, v. 45, n. 1, p. 15–30, 2010.

BRITTO-PEREIRA, M.M. **Análise Linguística da Gagueira**. São Paulo: AM3 Artes, 2003.

BRITTO-PEREIRA, M.M. A gagueira infantil como resultado da interação dos fatores sociais e emocionais. In: MEIRA, I (Org.). **Tratando gagueira - diferentes abordagens**. 1ed. São Paulo: Cortez Editora, 2002, v. 1, p. 41-52.

BRYNGELSON, B.; RUTHERFORD, B. A Comparative Study of Laterality of Stutterers and Non-Stutterers. **Journal of Speech Disorders**, v. 2, n. 1, p. 15-6, 1937.

BUSSAB, W.O.; MORETTIN, P.A. **Estatística Básica**. 5 ed. São Paulo: Saraiva, 2006.

CAMPBELL, J.; HILL, D. Systematic disfluency analysis. In: Northwestern University and Stuttering Foundation of America. **Stuttering Therapy**. Memphis: Northwestern University and Stuttering Foundation of America, p. 51-75, 1998.

CARLO, E.J.; WATSON, J.B. Disfluencies of 3 – and 5 – years old Spanish-speaking children. **Journal of Fluency Disorders**, v. 28, p.37-53, 2003.

CARRASCO, E.R. **O efeito do *feedback* auditivo atrasado e da alteração da frequência na severidade da gagueira**. 2013. 95p. Dissertação de mestrado (Mestrado em Ciências). Universidade Federal de São Paulo, 2013.

CELESTE, L.C.; RUSSO, L.C.; FONSECA, L.M.S. Influências da mídia sobre o olhar pedagógico da gagueira: Reflexões iniciais. **Revista CEFAC**, v.15, n. 5, p. 1202-13, 2013.

CHANG, S. et al. Similarities in speech and white matter characteristics in idiopathic developmental stuttering and adult-onset stuttering. **Journal of Neurolinguistics**, v. 23, n. 5, p. 455-69, 2009.

CHERRY, C.; SAYERS, B.; MARLAND P.M. Experiments on the complete suppression of stammering. **Nature**, v. 176, p. 874-5, 1995.

CIVIER, O. et. al. Computational modeling of stuttering caused by impairments in a basal ganglia thalamo-cortical circuit involved in syllable selection and initiation. **Brain and Language**, v. 126, p. 263-78, 2013.

CLARK, H.; FOZ-TREE, J. Using uh and um in spontaneous speaking. **Cognition**, v. 84, p. 73-111, 2002.

CONTURE, E. **Stuttering: its nature, diagnosis, and treatment**. Needham Heights, MA: Allyn & Bacon. 2000.

COOK, S.; DONLAN, C.; HOWELL P. Stuttering severity, psychosocial impact and lexical diversity as predictors of outcome for treatment of stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v. 38, p. 124-33, 2013.

COOPER, E.B. Second Opinion. Chronic perseverative stuttering syndrome: a harmful or helpful construct. **American Journal of Speech Language Pathology**, v. 2, p. 11-5, 1993.

CORDES, A.K.; INGHAM, R.J. Stuttering includes both within-word and between-word disfluencies. **Journal of Speech Language and Hearing Disorders**, v. 38, p. 382-6, 1995.

CORLEY, M.; STEWARD, O.W. Hesitation disfluencies in spontaneous speech: The meaning of *um*. **Language and Linguistics Compass**, v. 2, n. 4, p. 586-602, 2008.

COX, N.J.; KIDD, K.K. Can recovery from stuttering be considered a genetically milder subtype of stuttering? **Behavior Genetics**, v. 132, p. 129-39, 1983.

COX, N.J.; SEIDER, R.A.; KIDD, K.K. Some environmental factors and hypotheses for stuttering in families with several stutterers. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 27, p. 543-48, 1984.

CRAIG, A.; BLUMGART, E.; TRAN Y. The impact of stuttering on the quality of life in adults who stutter. **Journal of Fluency Disorders**, v. 34, n. 2, p. 61-71, 2009.

CRAIG, A. et al. Epidemiology of stuttering in the community across the entire life span. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 45, n. 6, p. 1097-05, 2002.

CURLEE, R.F. **Stuttering and related disorders of fluency**. New York: Thieme Medical, 1993.

DAVIS, D.M. The relation of repetitions in the speech of young children to certain measures of language maturity and situational factors: Part II and III. **Journal of Speech Disorders**, v. 5, p. 235-46, 1940.

DEGIOVANI, V.M.; CHIARI, B.M.; SCHIEFER, A.M. Disfluência: caracterização dos tipos e frequências de ocorrência em um grupo de escolares. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 11, p. 32-41, 1999.

DOMINGUES, C.E.F. et al. A genetic linkage study in Brazil identifies a new locus for persistent developmental stuttering on chromosome 10. **Genetics Molecular Research**, v. 49, n. 3, p. 694-8, 2014.

DOMINGUES, C.E.F. **Análise de ligação e associação no genoma com gagueira desenvolvimental persistente em famílias do Estado de São Paulo Brasil**. 2013. 161f. Tese (Doutorado em Genética) Instituto de Biociências, Universidade Estadual Paulista, Botucatu, 2013.

DRAYNA, D.; KILSHAW, J.; KELLY, J. The sex ratio in familial persistent stuttering. **American Journal of Human Genetics**, v. 65, p. 1473-5, 1999.

DUCHIN, S.W.; MYSAK, E.D. Disfluency and rate characteristics of young adult, middle-aged, and older males. **Journal of Communication Disorders**, v. 20, p. 245-57, 1987.

DWORZYNSKI, K. et al. Genetic etiology in cases of recovered and persistent stuttering in an unselected, longitudinal sample of young twins. **American Journal of Speech Language Pathology**, v. 16, n. 2, p. 169-78, 2007.

FAGNANI, C. et al. Heritability and environmental effects for self-reported periods with stuttering: a twin study from Denmark. **Logopedics Phoniatrics Vocology**, v. 36, n. 3, p. 114-20, 2011.

FELSENFELD, S. Progress and needs in the genetics of stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v. 21, p. 77-103, 1996.

FELSENFELD, S. et al. A study of the genetic and environmental etiology of stuttering in a selected twin sample. **Behavior Genetics**, v. 30, n. 5, p. 359-66, 2000.

FELSENFELD, S. Finding susceptibility genes for developmental disorders of speech: the long and winding road. **Journal of Communication Disorders**, v. 35, n. 4, p. 329-45, 2002.

FELSENFELD, S.; PLOMIN, R. Epidemiological and offspring analyses of developmental speech disorders using data from the Colorado Adoption Project. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 40, p.778-91, 1997.

FINN, P.; CORDES, A.K. Multicultural identification and treatment of stuttering: A continuing need for research. **Journal of Fluency Disorders**, v. 22, n. 2, p. 219-36, 1997.

FRANKEN, M.C. et al. Perceptual rating instrument for speech evaluation of stuttering treatment. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 38, p.280-8, 1995.

GESCHWIND, N.; GALABURDA, A.M. Cerebral lateralization. Biological mechanisms, associations, and pathology: III. A hypothesis and a program for research. **Archives Neurology**, v. 42, n. 7, p. 634-54, 1985.

GINSBERG, A.P. Shame, self-consciousness, and locus of control in people who stutter. **The Journal of Genetics Psychology**, v.161, p. 389-99, 2000.

GOLDIN, L. et al. The detection of major loci by segregation and linkage analysis: a simulation study. **Genetic Epidemiology**, v.1, p. 253-85, 1984.

GORDON, P.A.; LUPER, H.L. Speech disfluencies in nonstutterers: syntactic complexity and productions task effects. **Journal of Fluency Disorders**, v. 14, p. 429-45, 1989.

GREGG, A. B.; YAIRI, E. Disfluency patterns and phonological skills near stuttering onset. **Journal of Communication Disorders**, v. 45, p. 426-38, 2012.

GREGORY, H.; HILL, D. **Differential evaluation-differential therapy for stuttering children**. In: Stuttering related disorders of fluency. New York: Thieme Medical Publishers. 1993.

GRÜNSPUN, H. Distúrbios de conduta evolutivos e neurose na criança. In: _____ **Distúrbios neuróticos da criança**. Rio de Janeiro: Achiamé, 1978.

GUO LY, TOMBLIN JB, SAMELSON V. Speech disruptions in the narratives of English-speaking children with specific language impairment. **Journal of Speech Language Hearing Research**, v. 52, n. 3, p. 722-38, 2008.

HAN, T.U. et al. A study of the role of the FOXP2 and CNTNAP2 genes in persistent developmental stuttering. **Neurobiology of Disease**, v. 69, p. 23-31, 2014.

HEALEY, E.C.; TRAUTMAN, L.S.; SUSCA, M. Clinical Applications of a Multidimensional Approach for the Assessment and Treatment of Stuttering - Contemporary Issues in Communication Science and Disorders. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 31, p. 40-8, 2004.

HOOD, S.B. Effect of communicative stress on the frequency and formtypes of disfluent behavior in adult stutterers. **Journal of Fluency Disorders**, v. 1, p. 36-47, 1975.

HOWELL, P. Screening school-aged children for risk of stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v. 38, p. 102-23, 2013.

HOWELL, P.; SACKIN, S.; GLENN, K. Development of a two stage procedure for the automatic recognition of disfluencies in the speech of children who stutter: I. Psychometric procedures appropriate for selection of training material for lexical dysfluency classifiers. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 40, p. 1073-84, 1997.

HOWIE, P.M. Concordance for stuttering in monozygotic and dizygotic twin pairs. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 24, n. 3, p. 317-21, 1981.

INGHAM, R.J. et al. Regional brain activity change predicts responsiveness to treatment for stuttering in adults. **Brain Language**, v. 127, p. 510-9, 2013.

INGHAM, J.C.; RILEY, G. Guidelines for documentation of treatment efficacy for young children who stutter. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 41, p. 753-70, 1998.

JAKUBOVICZ, R. **A gagueira: teoria e tratamento de adultos e crianças**. 5a. ed. Rio de Janeiro: Revinter; 1997.

JANSSEN, P.; KRAAIMAAT, F.; BRUTTEN, G. Relationship between stutterers' genetic history and speech-associated variables. **Journal of Fluency Disorders**, v.15, p.39-48, 1990.

JANSSEN, P. et al. Genetic factors in stuttering: a Replication of Ambrose, Yairi and Cox's study with adult probands. **Journal of Fluency Disorders**, v. 21, p. 105-8, 1996.

JOHNSON, W. A study of onset and development of stuttering. **Journal of Speech Disorders**, v. 7, p. 251-7, 1942.

JOHNSON, W. **The onset of stuttering: Research findings and implications**. Minneapolis, MN: University of Minnesota, 1959.

JUSTE, F.; ANDRADE, C.R.F. Tipologia das rupturas de fala e classes gramaticais em crianças gagas e fluentes. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 18, n. 2, p. 129-40, 2006.

JUSTE, F. et al. Acoustic analyses of diadichokinesis in fluent and stuttering children. **Clinics**, v. 67, n. 5, p. 409-419, 2012.

KANG, C. et. al. Mutations in the lysosomal enzyme-targeting pathway and persistent stuttering. **The New England Journal of Medicine**, v. 362, p. 677-85, 2010.

KARIMI, H. et al. Clinician percent syllables stuttered, clinician severity ratings and speaker severity ratings: are they interchangeable? **International Journal Language Communication & Disorders**, v. 49, n. 3, p. 694-8, 2014.

KIDD, K. K. A genetic perspective on stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v. 2, p. 10, 1977.

KIDD, K.K. Genetic models of stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v.5, p. 187-201, 1980.

KIDD, K.K. Stuttering as a genetic disorder. In: CURLEE, R.; PERKINS, W. (Orgs) **Genetic aspects of speech and language disorders**. San Diego: College-Hill, 1984. p.149-69.

KIDD, K.K. et al. Familial stuttering patterns are not related to one measure of severity. **Journal of Speech Hearing Research**, v. 23, p. 527-38, 1980.

KIDD, K.K.; HEIMBUCH, R.; RECORDS M. Vertical transmission of susceptibility to stuttererres with sex-modified expression. **Proceedings of the National Academy of Science**, v. 78, p. 606-10, 1981.

KIDD, K.K.; KIDD, J.R.; RECORDS, M.A. The possible causes of the sex ratio in stuttering and is implications. **Journal of Fluency Disorders**. v. 3, p. 149-69, 1978.

KRIVOKAPI, J. Prosodic planning: effects of phrasal length and complexity on pause duration. **Journal of Phonetics**, v. 35, n. 2, p. 162-79, 2007.

LALOUEL, J. et al. A unified model for complex segregation analysis. **The American Journal of Human Genetics**, v. 35, p. 816-26, 1983.

LANGEVIN, M.; PACKMAN, A.; ONSLOW, M. Peer responses to stuttering in the preschool setting. **American Journal of Speech Language Pathology**, v. 18, n. 3, p. 264-76. 2009.

LEEPER, L.H.; CULATTA, R. Speech fluency: effect of age, gender and context. **Folia Phoniatri Logopaedic**, v. 47, p. 1-14, 1995.

LEVELT, W. **Speaking**. Cambridge, Massachusetts: MIT Press; 1989.

LEWIS, B. et al. Genetic linkage studies in a large West African kindred. **American Journal of Human Genetics**, v. 75, p. 20–6, 2004.

LIU, J. et al. A Functional imaging study of self-regulatory capacities in persons who stutter. **Plos One**, v. 9, n. 2, p. 898-91, 2014.

LOGAN, K.J.; MULLINS, M.S.; JONES, K.M. The depiction of stuttering in contemporary juvenile fiction: implications for clinical practice. **Psychology in the Schools**, v. 45, n. 7, p. 609-26, 2008.

LOUKO, L. et al. Phonological characterisc of young stutterers and their normally fluent peers. **Journal of Fluency Disorders**, v. 15, p. 191-210, 1990.

MAIORINO, V. **Aplicação do teste de escuta dicótica consoante-vogal em indivíduos apresentando gagueira**. São Paulo: Escola Paulista de Medicina, 1993.

MACFARLANE, W.B; HANSON, M; WALTON, W.. Stuttering in five generations of a single family: A preliminary report including evidence supporting a sex-modified mode of transmission. **Journal of Fluency Disorders**, v. 16, p. 117-123, 1991.

MACGREGOR, L.J.; CORLEY, M.; DONALDSON, D.I. Listening to the sound of silence: disfluent silent pauses in speech have consequences for listeners. **Neuropsychologia**, v. 48, n. 14, p. 3982-92, 2010.

MANNING, W.H.; MONTE K.L. Fluency breaks in older speakers: Implications for a model of stuttering throughout the life cycle. **Journal of Fluency Disorders**, v. 6, p. 35-48, 1981.

MARTINS, V.O.; ANDRADE, C.R.F. Perfil evolutivo da fluência da fala de falantes do Português brasileiro. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 20, n. 1, p. 7-12, 2008.

MAX, L., et al. Unstable or insufficiently activated internal models and feedback-biased motor control as sources of dysfluency: a theoretical model of stuttering. **Contemp. Issues in Communication Science and Disorders**, v. 31, p. 105–22, 2004.

MERLO, S. **Hesitações na fala semi-espontânea: análise por séries temporais**. 2006. 189f. Dissertação (Mestrado em Linguagem) Instituto de Estudos da Linguagem, Universidade Estadual de Campinas – Campinas, 2006.

METRAUX, R.W. Speech profiles of the pre-school child 18 to 54 months. **The Journal of Speech and Hearing Disorders**, v. 15, p. 37-53, 1950.

MONIZ, H. et al. **On filled pauses and prolongations in European Portuguese**. In: *Interspeech*, ISCA, Antuérpia, Bélgica 2007.

MURPHY, W.P.; YARUSS, J.S.; QUESAL, R.W. Enhancing treatment for school-age children who stutter. I. Reducing negative reactions through desensitization and cognitive restructuring. **Journal of Fluency Disorders**, v. 32, p. 121–38, 2007.

NATKE, U. et al. Disfluency data of German preschool children who stuttering and comparison children. **Journal of Fluency Disorders**, v. 31, n.3, p. 165-76, 2006.

OLIVEIRA, B.V. et al. Gagueira desenvolvimental persistente familiar: perspectivas genéticas. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v. 17, n. 4, p. 489-94, 2012.

OLIVEIRA, C.M.C. **Gagueira familiar: Aspectos fonoaudiológicos e genéticos**. 2004. 169f. Tese (Doutorado em Ciências Biológicas - Genética). Instituto de Biociências, Universidade Estadual Paulista, Botucatu, 2004.

OLIVEIRA, C.M.C. Terapia Fonoaudiológica na gagueira infantil. In: GIACHETI C.M.; GIMENIZ-PASCHOAL S.R. (Orgs). **Perspectivas multidisciplinares em Fonoaudiologia: da avaliação à intervenção**. Marília (SP): UNESP, 2013. p. 333-56.

OLIVEIRA, C.M.C. et al. Análise dos fatores de risco para gagueira em crianças disfluentes sem recorrência familiar. **Revista CEFAC**, v. 14, n. 6, p. 1028-35, 2012.

OLIVEIRA, C.M.C. et al. Fatores de risco na gagueira desenvolvimental e isolada. **Revista CEFAC**, v. 13, n. 2, p. 205-13, 2011.

OLIVEIRA, C.M.C. et al. Perfil da fluência: análise comparativa entre gagueira desenvolvimental persistente familiar e isolada. **Revista CEFAC**, v. 15, n. 6, p. 1627-34, 2013.

OLIVEIRA, C.M.C.; NOGUEIRA, P.R. Prevalence of risk factors for stuttering among boys: analytical cross-sectional study. **São Paulo Medical Journal**, v. 132, n. 3, p. 152-7, 2014.

ONSLOW, M; O'BRIAN, M. Management of childhood stuttering. **Journal of Pediatrics and Child Health**, v. 49, p. 112-5, 2013.

OOKI, S. Genetic and environmental influences on stuttering and tics in Japanese twin children. **Twin Research and Human Genetics**, v. 8, n. 1, p. 69-75, 2005.

PACKMAN, A.; ATTANASIO, J.S. A model of the mechanisms underpinning early interventions for stuttering. In: Seminar presentation at the annual convention of the **American Speech-Language and Hearing Association**. Philadelphia, USA: 2010.

PELLOWSKI, M.W.; CONTURE, E.G. Characteristics of speech disfluency and stuttering behaviors in 3- and 4- year-old children. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 45, p. 20-34, 2002.

PERKELL, S.; GUENTER, E. A neural model of speech production and its applications to studies of the role of auditory feedback in speech. **Speech Motor Control in Normal and Disordered Speech**, v.45, p. 29-49, 2003.

PERKINS, W.H.; KENT, R.D.; CURLEE, R.F. A theory of neuropsycholinguistic function in stuttering. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 34, p. 734-52, 1991.

PERKINS, W.H. What is stuttering? **Journal of Speech and Hearing Disorders**, v. 55, p. 370-82, 1990.

PETERS, H.F.M.; HUSTIEN, W. Acoustic and physiological reaction time of stutters and nonstutters. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 32, p. 668-80, 1989.

PETERS, T.J.; GUITAR, B. Stuttering an integrated approach to its nature and treatment. Baltimore: **Willians & Willians**, 1991.

PINTO, J.C.B.R. **Parâmetros temporais da fala de indivíduos gagos em reprodução espontânea e na leitura oral**. 2012. 125f. Tese (Mestrado em Distúrbios da Comunicação Humana - Fonoaudiologia). Universidade Federal de São Paulo, São Paulo, 2012.

PLEXICO, L.W.; MANNING, W.H.; LEVITT, H. Coping responses by adults who stutter: Part I. Protecting the self and others. **Journal Fluency Disorders**, v. 34, p. 87–107, 2009.

POSTMA, A.; KOLK, H. Error monitoring in people who stutter: evidence against auditory feedback defect theories. **Journal of Speech and Hearing Research**, v. 35, p. 1024–32, 1992.

POULOS, M.G; WEBSTER, W.G. Family history as a basis for subgrouping people who stutter. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 34, n.1, p. 5-10, 1991.

RATNER, N.B. Language complexity and stuttering in children. **Topics in Language Disorders**, v. 15, p. 32-47, 1995.

RAUTAKOSKI, P. et al. Genetic and environmental effects on stuttering: a twin study from Finland. **Journal of Fluency Disorders**, v. 37, n. 3, p. 202-10, 2012.

RAZA, M.H. et al. Linkage analysis of a large African family segregating stuttering suggests polygenic inheritance. **Human Genetics**, p. 1-12, 2012.

RAZA, M.H. et al. Studies in a consanguineous family reveal a novel locus for stuttering on chromosome 16q. **Human Genetics**, v. 131, n. 2, p. 311-3, 2011.

RAZA, M.H.; RIAZUDDIN, S.; DRAYNA, D. Identification of an autosomal recessive stuttering locus on chromosome 3q13.2–3q13.33. **Human Genetics**, v. 128, p. 461–3, 2010.

RIAZ, N. et al. Genomewide significant linkage to stuttering on chromosome 12. **American Journal of Human Genetics**, v. 76, p. 647–51, 2005.

RILEY, G.D. **Stuttering Severity Instrument for Children and Adults**. Austin: Pro Ed; 1994.

ROBERTS, P.; MELTZER, A.; WILDING, J. Disfluencies in non-stuttering adults across sample lengths and topics, **Journal of Communication Disorders**, v. 42, p. 414–427. 2009.

SASISEKARAN J. Nonword repetition and nonword reading abilities in adults who do and do not stutter. **Journal of Fluency Disorders**, v. 38, p. 275-89, 2013.

SAWYER J, YAIRI E. The effect of sample size on the assessment of stuttering severity. **American Journal Speech-Language Pathology**, v. 15, p. 36-44, 2006.

SCHIEFER, A.M.; BARBOSA, L.M.G.; PEREIRA, L.D. Considerações preliminares entre uma possível correlação entre gagueira e os aspectos lingüísticos e auditivos. **Pró-Fono: Revista de Atualização Científica**, v. 11, n. 1, p. 31-7, 1999.

SCHUELL H. Sex differences in relation to stuttering. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 12, p. 23-28, 1974.

SCHWARTZ, H.D.; CONTURE, E.G. Subgrouping young stutterers: preliminary behavioral observations. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v.31, p. 62-71, 1988.

SEARL, J.P.; GABEL, R.M.; FULKS, J.S. Speech disfluency in centenarians. **Journal of Communication Disorders**, v. 35, p. 383-92, 2002.

SEIDER, R.A.; GLADSTEIN, K.L.; KIDD, K.K. Recovery and persistence of stuttering among relatives of stutterers. **Journal of Speech and Hearing Disorders**, v. 48, p. 402-9, 1983.

SHUGART, Y.Y. et al. Results of a genome-wide linkage scan for stuttering. **American Journal of Medical Genetics**, v. 124A, p. 133-5, 2004.

SILVA, R.; OLIVEIRA, C.M.C.; CARDOSO, A.C.V. Aplicação dos testes de padrão temporal em crianças com gagueira desenvolvimental persistente. **Revista CEFAC**, v. 13, n. 5, p. 902-8, 2011.

SMITH, A. et al. Increasing phonological complexity reveals heightened instability in inter-articulatory coordination in adults who stutter. **Journal of Fluency Disorders**, v. 35, p. 1-18, 2010.

SMITH, A.; KELLY, E. Stuttering: A dynamic, multifactorial model. In: CURLEE, R.F.; SMITH, A. **Stuttering: A unified approach to a multifactorial, dynamic disorder**. Mahwah, NJ: Lawrence Erlbaum. 1999; p. 27-44.

SOUZA, B.J. et al. Frequência e tipologia das disfluências: Análise comparativa entre taquifemicos e gagos. **Revista CEFAC**, v. 15, n. 4, p. 857-63, 2013.

STARKWEATHER, C.W. **Fluency and stuttering**. Englewood Cliffs: Prentice-Hall, 1987.

STARKWEATHER, C.W. The assessment of fluency. In: National institute on deafness and other communication disorders: assessment of speech and voice production: research and clinical applications. Bethesda: **Proceedings**, v.1, p. 215, 1991.

STARKWEATHER, C.W. The epigenesis of stuttering. **Journal of Fluency Disorder** 27, p. 269-88, 2002.

STEER, M.D. Symptomatology of young stutterers. **Journal of Speech Disorders**, v. 2, p.3-13, 1937.

SURESH R, et al. New complexities in the genetics of stuttering: Significant sex-specific linkage signals. **The American Journal of Human Genetics**, v. 78, p. 554-63, 2006.

SWERTS, M. Filled pauses as markers of discourse structure. **Journal of Pragmatics**, v. 30, p. 485-96, 1998.

THRONEBURG, R.N.; YAIRI, E. Durational, proportionate and absolute frequency characteristics of disfluencies: a longitudinal study regarding persistence and recovery. **Journal of Speech and Hearing Research**, v. 44, p. 38-51, 2001.

THRONEBURG, R.N.; YAIRI, E. Durational, Proportionate, and Absolute Frequency Characteristics of Disfluencies. **Journal of Speech and Hearing Research**, v. 44, n. 1, p.31-51, 1990.

THRONEBURG, R.N.; YAIRI, E.; PADEN, E.P. Relation between phonologic difficulty and occurrence of disfluencies in the early stage of stuttering. **Journal of Speech and Hearing Research**, v. 37, p. 504-9, 1994.

TRAN, Y.; BLUMGART, E.; CRAIG, A. Subjective distress associated with chronic stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v. 36, n. 1, p. 17-26, 2011.

TUMANOVA, V.; CONTURE, E.G.; LAMBERT, E.W. Speech disfluencies of preschool-age children who do and do not stutter. **Journal of Communication Disorder**, v. 49, p. 25-41, 2014.

VAN, B.A.K. et al. Personal narrative skills of school-aged children with Down syndrome. **International Journal of Language & Communication Disorders**, v.47, p. 95–105, 2012.

VAN BORSEL, J.V. et al. Disfluency: it is not always stuttering. **Clinical Genetics**, v. 85, n.3, p. 298-99, 2014.

VAN RIPER, C. **Stuttering: it's nature and causes**. In: VAN RIPER. C. Speech correction: principles and methods. New Jersey: Prentice Hall. 1972.

WALSH, B.; SMITH, A. Articulatory movements in adolescents: evidence for protracted development of speech motor control processes. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 45, n. 6, p. 1119-33, 2002.

WITTKÉ-THOMPSON, J.K. et al. Genetic studies of stuttering in a founder population. **Journal of Fluency Disorders**, v. 32, n. 1, p. 33-50, 2007.

YAIRI, E. Subtyping stuttering I: A review. **Journal of Fluency Disorders**, v. 32, p. 165-96, 2007.

YAIRI, E. The onset of stuttering in two-and-three-year-old children: a preliminary report. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 48, p. 171-7, 1983.

YAIRI, E.; AMBROSE, N.G. A longitudinal study of stuttering in children: a preliminary report. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 35, n. 4, p. 755-60, 1992.

YAIRI, E.; AMBROSE, N.G. Early Childhood Stuttering I. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 42, p. 1097-112, 1999.

YAIRI, E.; AMBROSE, N.G. Early childhood stuttering: For clinicians by clinicians. Austin, TX: Pro-Ed. 2005.

YAIRI, E.; AMBROSE, N.G.; COX, N. Genetics of stuttering: a critical review. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 39, p. 771-84, 1996.

YAIRI, E.; AMBROSE, N.G.; NIERMANN, R. The early months of stuttering: a developmental study. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, v. 36, n. 3, p. 521-8, 1993.

YAIRI, E.; CLIFTON, N.F. Disfluent speech behavior of preschool children, high school seniors, and geriatric persons. **Journal of Speech Language and Hearing Research**, 15, p. 714-9, 1972.

YAIRI, E. et al. Predictive factors of persistence and recovery: pathways of childhood stuttering. **Journal of Fluency Disorders**, v. 29, p. 51-77, 1996.

YAIRI, E. et al. What is stuttering? **Journal of Speech, Language and Hearing Research**. v. 44, p. 585-92. 1999.

YARUSS, J. S. Assessing quality of life in stuttering treatment outcomes research. **Journal of Fluency Disorders**, v. 35, n. 3, p. 190-202, 2010.

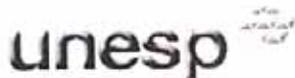
ZACKIEWICZ, D.V. **Avaliação quantitativa e qualitativa das disfluências em indivíduos gagos e fluentes**. 1999. 225f. Dissertação (Mestrado em Linguística). Faculdade de Medicina, Universidade de São Paulo. São Paulo, 1999.

ZEBROWSKI, P.M. Temporal aspects of the conversations between children who stutter and their parents. **Topics Language Disorders**, v. 15, p. 1-17, 1995.

ZIMMERMANN, G. Articulatory dynamics of fluent utterances of stutterers and non-stutterers. **Journal of Speech, Language and Hearing Research**, v. 23, p. 95-107, 1980.

ANEXOS

ANEXO A



UNIVERSIDADE ESTADUAL PAULISTA
CAMPUS DE MARÍLIA
Faculdade de Filosofia e Ciências
Comitê de Ética em Pesquisa

Parecer do Projeto nº. 0724/2013

IDENTIFICAÇÃO
1. Título do Projeto: Perfil da fluência e prevalência da gagueira desenvolvimental persistente familiar
2. PESQUISADOR RESPONSÁVEL:
Autor(a): Paula Roberta Nogueira
Coorientador(a): Cristiane Moço Canhetti de Oliveira
Orientador(a): Danilo Moretti-Ferreira
3. Instituição do Pesquisador: Faculdade de Filosofia e Ciências – UNESP/Marília
4. Apresentação ao CEP: 11/06/2013
5. Apresentar relatório em: Semestralmente durante a realização da pesquisa.

Objetivos

Caracterizar o perfil da fluência de um grupo de pessoas com gagueira desenvolvimental persistente familiar e a prevalência do distúrbio nos familiares.

SUMÁRIO DO PROJETO

Objetivo: Caracterizar o perfil da fluência de um grupo de pessoas com gagueira desenvolvimental persistente familiar e a prevalência do distúrbio nos familiares.
Métodos: Participarão da pesquisa 100 pessoas com gagueira desenvolvimental persistente familiar, de ambos os sexos e na faixa etária de 3 a 59 anos e 11 meses de idade, com os seguintes critérios de inclusão: queixa de gagueira, o início da gagueira deve ter ocorrido durante a infância, duração mínima de 12 meses das disfluências típicas da gagueira sem remissão, apresentar mínimo de 3% de disfluências típicas da gagueira, pontuação mínima de 11 pontos (nos casos de crianças na faixa etária de 3 a 16 anos e 11 meses) ou de 18 pontos (adolescentes acima de 17 anos) no Instrumento de Severidade da Gagueira – SSI-4 – descartando assim os casos de gagueira muito leve de acordo com o Instrumento de Severidade da Gagueira – SSI. Serão utilizados vários procedimentos: histórias clínica e familiar, avaliação da fluência e Instrumento de Severidade da Gagueira. **Análise dos resultados:** será realizada a análise estatística dos dados.

COMENTÁRIO DO RELATOR

O projeto está de acordo com as exigências éticas e científicas fundamentais resguardadas na Resolução 466/2012 do Conselho Nacional de Saúde, atendendo aos itens referentes às implicações da ética em pesquisas que envolvem seres humanos, recomendo a aprovação do mesmo pelo CEP.



UNIVERSIDADE ESTADUAL PAULISTA
CAMPUS DE MARÍLIA
Faculdade de Filosofia e Ciências
Comitê de Ética em Pesquisa

PARECER FINAL

O CEP da FFC da UNESP após acatar o parecer do membro relator previamente aprovado para o presente estudo e atendendo a todos os dispositivos das resoluções 466/2012 e complementares, bem como ter aprovado o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido como também todos os anexos incluídos na pesquisa resolve aprovar o projeto de pesquisa supracitado.

INFORMAÇÕES COMPLEMENTARES**DATA DA REUNIÃO**

Homologado na reunião do CEP da FFC da Unesp em 21/08/2013.


Simone Aparecida Capellini
Presidente do CEP


José Carlos Miguel
Diretor da FFC

ANEXO B

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

Nós estamos convidando vocês a participarem do projeto de pesquisa intitulado “**Perfil da fluência e Prevalência da gagueira desenvolvimental persistente familiar**” será realizado no Laboratório de Estudos da Fluência – LAEF – CEES e na comunidade local. O objetivo desta pesquisa é caracterizar o perfil da fluência de um grupo de pessoas com gagueira desenvolvimental persistente familiar e a prevalência do distúrbio nos familiares, e gostaríamos que vocês soubessem que:

- participar deste projeto é uma opção de vocês.
- vocês podem decidir participar deste projeto ou não.
- se vocês decidirem não participarem ou desistirem de participar a qualquer momento vocês não perderão nenhum benefício ou tratamento que estiverem fazendo conosco.
- se vocês decidirem participar gostaríamos de informar-lhes que:
 - a) Serão realizados os seguintes procedimentos: ficha de identificação, histórico familiar, avaliação da fluência, avaliação da gravidade para gagueira, realizada por meio da filmagem da fala espontânea. Todos os resultados destas avaliações serão disponibilizadas à vocês por meio de relatórios.
 - b) Vocês estarão colaborando para aumentar os nossos conhecimentos sobre o perfil da fluência e a prevalência da gagueira desenvolvimental persistente entre pessoas de 3 a 59 anos e 11 meses.
 - c) Os resultados poderão demorar meses para ficarem prontos;
 - d) Assim que existam resultados estes serão apresentados para vocês em relatórios.
 - e) Os resultados deverão ser publicados em revistas científicas que circulem entre os profissionais de saúde que tenham interesse nesta área;
 - f) Sempre que ocorrerem publicações científicas, a identidade do participante e de seus familiares serão mantidas em absoluto sigilo;
 - g) Todos os resultados desta avaliação estarão disponíveis para a família.

<p>Eu, _____ portador do R.G. nº _____ (responsável por) _____ concordo participar do projeto de pesquisa “Perfil da fluência e prevalência da gagueira desenvolvimental persistente familiar”, a ser realizada no Laboratório de Estudos da Fluência – LAEF e na comunidade local. Declaro haver recebido as devidas explicações sobre o referido projeto, estar ciente sobre os itens acima mencionados e minha participação é voluntária, por opção própria.</p> <p style="text-align: right;">Local: _____ / ____ / _____</p> <p style="text-align: center;">_____</p> <p style="text-align: center;">Assinatura</p>

Nome do participante: _____

Responsáveis pela pesquisa e Assinatura:

Prof. Dr. Danilo Moretti-Ferreira _____

Fone (14) 3815-3131. UNESP – Botucatu, End. Rubião Junior, s/n. Botucatu/SP, e-mail sag@fmb.unesp.br

Prof. Dra. Cristiane Moço Canhetti de Oliveira _____

Fone: (14) 3402-1324 Av. Hygino Muzzi Filho, 737, Caixa Postal 181, Departamento de Fonoaudiologia - Marília/SP - CEP: 17525-900 cmoliveira@marilia.unesp.br

Paula Roberta Nogueira _____

Fone: (15) 97902969 Endereço: Rua Santa Helena,769,apto3 bloco J, Jardim Alvorada
Marília/SP – paulinha.21@hotmail.com

Apêndice

APÊNDICE

Apêndice 1 Artigo científico aprovado para publicação na Revista CEFAC.

GAGUEIRA DESENVOLVIMENTAL PERSISTENTE FAMILIAL: DISFLUÊNCIAS E PREVALÊNCIA

Familial persistent developmental stuttering: disfluencies and prevalence

RESUMO

Objetivo: caracterizar e comparar a frequência das disfluências da fala de adultos com gagueira desenvolvimental persistente familiar do sexo masculino e feminino, a gravidade do distúrbio e determinar a prevalência familiar e a razão entre gêneros da gagueira nos familiares dos probandos. Métodos: participaram 30 adultos com gagueira (18 a 53 anos), divididos em dois grupos, sendo 20 do sexo masculino e 10 do sexo feminino. Os procedimentos realizados foram: história clínica e familiar, avaliação da fluência e Instrumento de Gravidade da Gagueira. Resultados: as porcentagens de disfluências típicas da gagueira ($p=0,352$), de outras disfluências ($p=0,947$) e do total das disfluências ($p=0,522$) foram semelhantes entre os grupos masculino e feminino. A média de disfluências típicas da gagueira foi 5,23% e de outras disfluências 5,50%. O subtipo leve foi manifestado pela maioria dos participantes (83,3%). Os familiares do gênero masculino apresentaram maior risco de apresentar gagueira ($p<0,001$). Do total de 1002 familiares, 85 apresentaram gagueira. No total de familiares afetados ($n=85$), 53 eram do sexo masculino e 32 do feminino. Conclusão: não houve diferenças entre os grupos masculino e feminino nas medidas analisadas. Quanto à frequência das disfluências, aproximadamente metade do total das disfluências foi caracterizada como disfluências típicas da gagueira. O subtipo de gagueira desenvolvimental persistente familiar foi caracterizado principalmente por um distúrbio classificado quanto à gravidade como leve. O risco dos familiares dos probandos afetados foi de 8,5%. A gagueira afetou mais pessoas do gênero masculino em relação ao feminino, numa proporção de 3,72:1.

DESCRITORES: Fonoaudiologia; Fala; Avaliação; Distúrbios da Fala, Gagueira; Genética

ABSTRACT

Purpose: to characterize and to compare the frequency of speech disfluency in adults with familial persistent developmental stuttering in males and females, the stuttering severity and then to determinate the familial prevalence and the sex ratio of stuttering among the families members of probands. Methods: subjects were 30 adults who stutter (ages between 18 and 53 years old), divided in two groups: one with 20 males, and the other with 10 females. Data were gathered by clinical and familial history, fluency assessment and Stuttering Severity Instrument. Results: the percentages of stuttering-like disfluencies (SLD) ($p=0.352$), of other disfluencies (OD) ($p=0.947$) and of total disfluencies (TD) ($p=0.522$) were similar between males and females. A mean of 5.23% of SLD and 5.5% of OD were found among subjects. The mild subgroup was the prevalent one among the participants (83.3%). The members of male's families presented a greater risk to stutter when compared to females ($p<0,001$). From

the 1002 members of the families analyzed, 85 presented stuttering, of which 53 were male and 32 female. Conclusions: there were no differences between males and females concerning the analyzed measures. Regarding the frequency of disfluencies, results around a half of the total disfluencies were characterized as SLD. The subgroup of familial persistent developmental stuttering was characterized mainly as mild. The risk among relatives of affected probands was 8.5%. The familial prevalence data showed that risk that a person has to manifest stuttering when there is some familial affected was 8.5%. The sex ratio of stuttering was 3.72 males to 1 female (3.72:1).

KEYWORDS: Speech Language and Hearing Sciences; Speech; Evaluation; Speech Disorders; Stuttering; Genetic