



UNIVERSIDADE ESTADUAL PAULISTA
“JÚLIO DE MESQUITA FILHO”
Câmpus de Marília

Bárbara Carolina Brandão

**Relação entre Tempo de Trânsito Oral Total e Desempenho
Funcional na Doença do Neurônio Motor**

Marília

2017

Bárbara Carolina Brandão

**Relação entre Tempo de Trânsito Oral Total e Desempenho
Funcional na Doença do Neurônio Motor**

Dissertação apresentada ao Programa de Pós-Graduação em Fonoaudiologia, Área de Concentração Distúrbios da Comunicação Humana, da Faculdade de Filosofia e Ciências-UNESP, para obtenção do título de Mestre em Fonoaudiologia.

Orientador: Dra. Roberta Gonçalves da Silva

Co-Orientador: Dra. Paula Cristina Cola

Colaboradora: Dra. Magali Aparecida Orate Menezes da Silva

Marília

2017

Brandão, Bárbara Carolina.

B817r Relação entre tempo de trânsito oral total e desempenho funcional na doença do neurônio motor / Bárbara Carolina Brandão. – Marília, 2017.
74 f. ; 30 cm.

Orientadora: Roberta Gonçalves da Silva.

Co-orientadora: Paula Cristina Cola

Dissertação (Mestrado em Fonoaudiologia) – Universidade Estadual Paulista (Unesp), Faculdade de Filosofia e Ciências, 2017.

Bibliografia: f. 64-69

1. Distúrbios da deglutição. 2. Esclerose lateral amiotrófica. 3. Fonoaudiologia. I. Título.

CDD 616.32

Bárbara Carolina Brandão

Relação entre Tempo de Trânsito Oral Total e Desempenho Funcional na Doença do Neurônio Motor

Dissertação apresentada ao Programa de Pós-Graduação em Fonoaudiologia, Área de Concentração Distúrbios da Comunicação Humana, da Faculdade de Filosofia e Ciências- UNESP, para obtenção do título de Mestre em Fonoaudiologia.

BANCA EXAMINADORA

Orientador: _____

Dra. Roberta Gonçalves da Silva. Doutora em Fisiopatologia em Clínica Médica. Professor Assistente Doutor da Universidade Estadual Paulista Júlio de Mesquita Filho, UNESP-Marília, SP.

2º Examinador: _____

Dra. Luciana Pinato. Doutora em Ciências Morfofuncionais. Professor Assistente Doutor da Universidade Estadual Paulista Júlio de Mesquita Filho, UNESP-Marília, SP.

3º Examinador: _____

Dra. Katia Flores Genaro. Doutora em Distúrbios da Comunicação Humana. Professor Livre Docente do Departamento de Fonoaudiologia da Faculdade de Odontologia da Universidade de São Paulo-Campus Bauru– USP-Bauru, SP.

Dedicatória

Dedico este trabalho aos pacientes portadores de Doença do Neurônio Motor.

Epígrafe

*“Quem olha para fora, sonha
Quem olha para dentro, desperta.”*

Carl Gustav Jung

Agradecimentos

Agradeço a Deus, em primeiro lugar, pelas infinitas bênçãos e sabedoria. Por ter me dado forças em um momento em que achei que não teria mais, por me auxiliar a superar uma fase difícil da vida, que me trouxe fé, não me deixando desistir em momento algum da realização deste sonho.

Agradeço imensamente ao meu pai, Veidson de Oliveira Brandão, pelo exemplo de garra, perseverança e pelo incentivo de buscar sempre o melhor, mesmo que o melhor pareça impossível.

À minha mãe, Maria Helena Servelli Brandão, pelo exemplo de bondade e dedicação, por toda paciência e compreensão dedicada a mim.

Ao meu irmão Aluísio Brandão por me encorajar e por ter me feito enxergar que tudo é possível. Pelo apoio de todas as maneiras possíveis. Você é meu orgulho.

Ao meu namorado Guilherme Mediani Aureliano, por toda paciência e compreensão nos momentos em que me dediquei exclusivamente ao mestrado. Pela ajuda de todas as formas e por não me fazer desistir nos momentos de fraqueza, por sempre me enxergar melhor do que eu sou.

À Dra. Roberta Gonçalves da Silva pela orientação dessa pesquisa, pela oportunidade, pelos conhecimentos compartilhados, acolhimento e por fazer meus olhos brilharem para a pesquisa.

À Dra. Paula Cola pela co-orientação dessa pesquisa, por toda ajuda, pelo incentivo e conhecimento compartilhado.

À Dra. Magali Orate Menezes da Silva, coordenadora do Serviço de Fonoaudiologia do Hospital de Base de São José do Rio Preto, por ter aceitado minha opção em cursar o mestrado em outra instituição, sempre me encorajando a buscar conhecimento. Por toda a ajuda quando precisei me ausentar do serviço para me dedicar ao mestrado.

À Dra. Katia Flores Genaro e Dra. Luciana Pinato pelas valiosas contribuições durante minha qualificação de Mestrado.

À Direção do Hospital de Base de São José do Rio Preto (HBSJRP), meu trabalho e minha maior escola. Obrigada por me dar a oportunidade de contribuir com o serviço de Fonoaudiologia. Que possamos cada vez mais ser reconhecidos pela excelência no atendimento e também na pesquisa.

Às colegas de trabalho do Serviço de Fonoaudiologia do Hospital de Base de São José do Rio Preto, Isabel Cristina Figueiredo e Lana Bianchi, por sempre terem torcido por mim e me ajudado em todos os momentos em que precisei.

Ao Sandro, técnico de Engenharia do HBSJRP, não tenho palavras que expressem a minha gratidão.

A Dra. Maria da Penha, Chefe do Ambulatório de Doenças Neuromusculares do HBSJRP, minha gratidão por me acolher no ambulatório, reconhecer a importância da Fonoaudiologia e por apreciar a minha pesquisa, e por me dar a oportunidade de estudar.

Aos residentes de Neurologia, em especial ao Gabriel Pina, agora especialista em doenças Neuromusculares, pela sua imensa ajuda, desde o momento da idealização da minha pesquisa. Logo você também será Mestre!

As aprimorandas e residentes do Hospital dos anos 2015 e 2016, que acreditaram em mim e não mediram esforços em me ajudar. Em especial, agradeço à Ana Cláudia, Alline, Thaís, Laís, Isabela, Fernanda, Lia, Nayara, Gabriela, Anália e Arianny.

Aos residentes da Radiologia, que me permitiram realizar os exames até em horários fora da agenda, muitas vezes comprometendo suas rotinas. Minha eterna gratidão!

Às amigas Carla Dias, Isabela Martinelli, Francine Koritiaki, Marília Vieira, por acreditarem junto comigo no meu sonho, por me entenderem em muitos momentos de ausência e ainda assim se fazerem presentes no meu dia-a-dia.

A amiga Franciele Penariol pelo apoio, compreensão e parceria.

A Thaís Alves e Débora Afonso, pela infinita disposição em ajudar em todos os momentos que precisei e estava longe.

A minha terapeuta Márcia Orsi, que me fez enxergar o que eu não via e me mostrou que sou e sempre serei capaz de realizar o que desejo.

A amiga que o mestrado me deu de presente, Andréia Pazzotti, pela companhia, por compartilhar comigo os momentos de alegrias, angústias, inseguranças. Por todas as madrugadas estudando juntas, mesmo há muitos quilômetros de distância.

A todos os pacientes e seus familiares/cuidadores que acreditaram no meu trabalho, não medindo esforços para contribuir pra pesquisa e buscar respostas pra si e para outros como eles.

RESUMO

Introdução: A disfagia orofaríngea é sintoma frequente em indivíduos com Doença do Neurônio Motor (DNM) e um dos parâmetros que mensuram o grau de funcionalidade nessa população, sendo que a alteração na fase oral da deglutição é um dos primeiros sinais da disfagia na DNM. O comprometimento na fase oral da deglutição é ocasionado por fraqueza, fasciculação e atrofia de língua que promovem incoordenação oral gerando aumento no tempo de trânsito oral (TTO), comprometendo assim a alimentação destes indivíduos. **Objetivo:** Esta pesquisa teve por objetivo descrever e relacionar o TTO da deglutição com o desempenho funcional e com penetração e aspiração laringotraqueal na DNM. **Método:** Participaram desse estudo 20 indivíduos com DNM, independente do tipo ou tempo da doença. Foram incluídos 11 indivíduos, sendo nove do gênero masculino e dois do gênero feminino, faixa etária de 31 a 87 anos (média de idade de 57 anos). Foram excluídos nove indivíduos. Aplicado o questionário *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale - revised* (ALSFRS-r/BR) para classificação dos indivíduos de acordo com parâmetros Global, Bulbar e Bulbar/Respiratório. Realizada videofluoroscopia da deglutição com diferentes consistências de alimento no volume de cinco ml, com análise quantitativa temporal por meio de software específico para mensuração do tempo de trânsito oral total (TTOT) e análise qualitativa por meio da escala de Penetração e Aspiração Laringotraqueal proposta por Rosenbek et al (1996). Para relacionar o TTOT com os parâmetros da ALSFRS-r foi aplicado o teste de comparação de médias para dados incompletos (ANOVA), pressupondo nível de significância $\alpha \leq 0,05$, bem como efetuados cálculos de coeficiente de correlação de Pearson para análise bidimensional. A relação entre TTOT e os níveis da escala de penetração e aspiração laringotraqueal foi descritiva. **Resultados:** Verificou-se que houve ampla variação do TTOT dentro da mesma consistência de alimento. Houve correlação entre o TTOT e o desempenho funcional global na consistência líquida espessada ($r = -0,691$) e para o TTOT e o desempenho bulbar na pastosa ($r = -0,859$). O nível da escala de penetração e aspiração laringotraqueal variou de 2 a 4 e o TTOT nesses níveis variou de 1222ms a 2057ms. **Conclusão:** Houve ampla variação do TTOT na mesma consistência de alimento na DNM e quanto maior o TTOT, independente da consistência do alimento, menor foi o desempenho funcional na DNM. **Palavras-chave:** Deglutição. Análise quantitativa. Transtornos de deglutição. Esclerose Amiotrófica Lateral. Fonoaudiologia.

ABSTRACT

Introduction: Oropharyngeal dysphagia is a frequent symptom in individuals with motor neuron disease (MND) and one of the parameters that measure the degree of functionality in this population, and the alteration in the oral phase of swallowing is one of the first signs of dysphagia in DNM. The impairment in the oral phase of swallowing is caused by weakness, fasciculation and tongue atrophy that promote oral incoordination leading to an increase in oral transit time (OTT), thus compromising the feeding of these individuals. **Objective:** This study aimed to describe and correlate oral transit time (OTT) of swallowing with functional performance and with laryngotracheal penetration and aspiration in MDN. **Method:** Participated in this study 20 individuals with DNM, regardless of the type or time of the disease. Eleven individuals were included, nine of whom were male and two were female, ranging from 31 to 87 years old (mean age of 57 years). Were excluded nine individuals. Applied the Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale - revised (ALSFERS-r / BR) to classification of individuals according to Global, Bulbar and Bulbar / Respiratory parameters. A videofluoroscopy of swallowing with different food consistencies was performed in the volume of five ml, with qualitative analysis using the Laryngotracheal Penetration and Aspiration Scale proposed by Rosenbek et al (1996) and temporal quantitative analysis using specific software to measure total oral transit time (TOTT). In order to correlate the TOTT with the parameters of the ALSFRS-r, the test of comparison of averages for incomplete data (ANOVA) was applied, assuming a significance level $\alpha = 0.05$, as well as Pearson's correlation coefficient calculations for two-dimensional analysis. The relationship between TTOT and levels of the laryngotracheal penetration and aspiration scale was descriptive. **Results:** It was verified that there is a wide variation of TOTT within the same food consistency. There was a correlation between the TTOT and the overall functional performance in the thickened liquid consistency ($r = -0.691$) and for the TOTT and the bulbar performance in the pasty ($r = -0.859$). The laryngotracheal penetration and aspiration ranged from 2 to 4 and the TOTT at these levels ranged from 1222ms to 2057ms. **Conclusion:** There is a wide variation of the TOTT in the same food consistency in the MND and higher the TOTT, regardless of the consistency thickened of the food, the lower the functional performance in the MND.

Keywords: Deglutition. Quantitative analysis. Deglutition disorders. Lateral Amyotrophic Sclerosis. Speech therapy.

LISTA DE ILUSTRAÇÕES

- Quadro 1 -** Aspectos demográficos dos indivíduos com DNM
- Quadro 2-** Padronização das consistências de alimento
- Quadro 3-** Valores de concordância entre os julgadores para mensuração do TTOT por consistência de alimento
- Quadro 4-** Escala de Penetração e Aspiração laringotraqueal (Rosenbek et al. 1996)
- Figura 1 -** *Software* durante a análise quantitativa temporal da deglutição
- Figura 2-** Distribuição da média de TTOT por indivíduo em cada consistência de alimento
- Figura 3-** Distribuição dos valores individuais para cada parâmetro da avaliação do desempenho funcional na DNM
- Figura 4-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional global na DNM na consistência pastosa
- Figura 5-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional global na DNM na consistência líquida espessada
- Figura 6-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional global na DNM na consistência líquida rala
- Figura 7-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional Bulbar na DNM na consistência pastosa
- Figura 8-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional Bulbar na DNM na consistência líquida espessada
- Figura 9-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional Bulbar na DNM na consistência líquida rala
- Figura 10-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional Bulbar/Respiratório na DNM na consistência pastosa
- Figura 11-** Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional Bulbar/Respiratório na DNM na consistência líquida espessada

Figura 12 Diagrama de dispersão de TTOT e do desempenho funcional Bulbar/Respiratório na DNM na consistência líquida rala

LISTA DE TABELAS

- Tabela 1 -** Descrição das médias e desvio padrão TTOT (ms) por consistência de alimento e por indivíduo
- Tabela 2-** Média, desvio-padrão e mediana do desempenho funcional nos indivíduos com DNM
- Tabela 3-** Frequência de penetração e/ou aspiração laringotraqueal por consistência de alimento
- Tabela 4-** Descrição do TTOT e PAL nos indivíduos com DNM

LISTA DE ABREVIACOES E SIGLAS

DNM -	Doena do Neurnio Motor
ELA -	Esclerose Lateral Amiotrfica
AMP -	Atrofia Muscular Progressiva
ELP -	Esclerose Lateral Primria
PBP -	Paralisia Bulbar Progressiva
NMS -	Neurnio Motor Superior
NMI -	Neurnio Motor Inferior
TTO -	Tempo de Trnsito Oral
TTOT -	Tempo de Trnsito Oral Total
SNC -	Sistema Nervoso Central
ENMG -	Eletroneuromiografia
RM -	Ressonncia Magntica
ALSFRS -	<i>Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale</i>
TQNE -	Exame neuromuscular quantitativo de Tufts
ALSSS -	Amyotrophic Lateral Sclerosis Severity Scale
Egela -	Escala de Gravidade da Esclerose Lateral Amiotrfica
ALS -	<i>Amyotrophic Lateral Sclerosis</i>
DMD -	Distrofia Muscular de Duchenne
FILS -	<i>Functional Intake Level Scale</i>

VED -	Videoesndoscopia da Deglutição
SWALL-QOL -	<i>Swallowing Quality of Life Questionnaire</i>
AVE -	Acidente Vascular Encefálico
IRF -	Início da Resposta Faríngea
TTF -	Tempo de Trânsito Faríngeo
TTOF -	Tempo de Trânsito Orofaríngeo
ml -	Mililitros
ms -	Milissegundos
Fps -	Frames por segundo
Kcal -	Quilocalorias
g -	Gramas
mg -	Miligramas
IC -	Intervalo de Confiança
et al	Colaboradores
PAL	Penetração e/ou Aspiração Laringotraqueal

SUMÁRIO

1 Introdução	17
2 Objetivo	21
3 Revisão de Literatura	22
3.1 Diagnóstico, sintomas e tipos de DNM	22
3.2 Escalas funcionais para mensurar a progressão da DNM	25
3.3 Disfagia Orofaríngea na DNM.....	28
3.4 Análise quantitativa temporal da deglutição orofaríngea	33
4 Método	41
4.1 Aspectos éticos.....	41
4.2 Casuística	41
4.3 Critérios de exclusão.....	41
4.4 Método.....	42
4.4.1 Análise do desempenho funcional.....	42
4.4.2 Avaliação objetiva da deglutição: protocolo e análise	43
A) Protocolo	43
B) Análise quantitativa temporal da deglutição	44
C) Análise qualitativa da deglutição orofaríngea.	46
4.4.3 Análise estatística	47
5 Resultados	48
6 Discussão	58
7 Conclusão	63
8 Referências Bibliográficas	64
9 Apêndices	70
10 Anexos	72

1 Introdução

A disfagia orofaríngea é uma comorbidade prevalente em distintas doenças de base neurológica. O reconhecimento da relevância clínica e das complicações da disfagia orofaríngea está aumentando entre os profissionais de saúde em muitas áreas. Além disso, o surgimento de novos métodos para detecção e avaliação das disfagias orofaríngeas determinou uma nova era de pesquisa e estratégias terapêuticas para indivíduos disfágicos (CLAVÉ e SHAKER, 2015).

Na doença do neurônio motor (DNM) a prevalência de disfagia orofaríngea é de 60% e se constitui como um dos mais frequentes sintomas desta doença, principalmente nos indivíduos que apresentam acometimento bulbar, devido ao comprometimento inicial dos neurônios motores inferiores (SANT'ANNA, 2002; KAWAI et al., 2003). A DNM é um termo genérico utilizado para incluir quatro síndromes clínicas, dependendo do local de comprometimento primário dos neurônios motores. Pertencem a este grupo a Atrofia Muscular Progressiva (AMP), Esclerose Lateral Primária (ELP), Paralisia Bulbar Progressiva (PBP) e a Esclerose Lateral Amiotrófica (ELA). Na literatura internacional é utilizada a denominação ELA/DNM para todas essas formas de representação clínica e todas as formas de DNM não devem ser classificadas como doenças distintas, mas sim variações de apresentação de apenas uma doença (ROWLAND, 1998; DESAI, 2000; CHIEIA, 2015).

Dentre essas doenças, a ELA é frequentemente encontrada na clínica fonoaudiológica e se caracteriza pela paralisia muscular progressiva com degeneração dos neurônios motores do córtex motor primário, das vias corticoespinais, no tronco encefálico e na medula espinhal, ou seja, acomete tanto o neurônio motor superior (NMS) quanto o neurônio motor inferior (NMI). A incidência da doença é de aproximadamente 1,89 casos a cada 100 mil habitantes/anos, com média de idade para o aparecimento da doença aos 64 anos e com predomínio do gênero masculino, na proporção de 1,5:1. A ELA não é uma doença de causa única, pois existem muitos mecanismos envolvidos no processo de degeneração do neurônio motor.

Estudo recente investigou a epidemiologia da disfagia orofaríngea na ELA e concluiu que esse sintoma ocorre em 85% dos indivíduos (TABOR et al., 2016). Outros estudos também já relataram que as alterações no processo de deglutição na ELA são graves,

progressivas e diferentes em cada etapa de evolução da doença (HIGO et al., 2004; NOH et al., 2010; GOYAL et al., 2014).

Considerando que a disfagia orofaríngea é um dos sintomas críticos nas DNM, levando a desnutrição, desidratação, pneumonia, redução da qualidade de vida e inclusive ao óbito, a deglutição deve ser precocemente avaliada e acompanhada durante a progressão da doença, visando contribuir com condutas que minimizem tais complicações e promovam a qualidade de vida nessa população (HIGO et al., 2004; NOH et al., 2010; GOYAL et al., 2014; KEAGE et al., 2014).

A avaliação da deglutição nas distintas doenças que causam disfagia orofaríngea abrange métodos clínicos e objetivos. A videofluoroscopia da deglutição é considerada o método *Gold Standard* para a avaliação objetiva, pois visualiza objetivamente as fases preparatória oral, oral, faríngea e esofágica da deglutição e pode auxiliar na determinação de condutas terapêuticas. Além disso, seus resultados podem ser analisados após a realização do exame, permitindo mensuração qualitativa e quantitativa por meio de programa computadorizado e com a deglutição de distintos volumes e consistências de alimento. Na DNM a disfagia orofaríngea pode ser diagnosticada por meio de videofluoroscopia da deglutição mesmo antes dos sintomas bulbares aparecerem clinicamente, tornando-se um exame imprescindível no manejo da disfagia nessa população (ERTEKIN et al., 2000, TABOR et al., 2016).

Como a disfagia orofaríngea é citada na literatura como um sintoma frequente na DNM e marcada desde o início por alteração na fase oral da deglutição, a análise do tempo de trânsito oral (TTO), mesmo em indivíduos do tipo espinal, que não apresentem queixas logo no início da doença, poderia auxiliar no diagnóstico e prognóstico da disfagia nessa população (KAWAI et al., 2003; MURONO et al., 2014; TABOR et al., 2016). A alteração na fase oral da deglutição na DNM é ocasionada por fraqueza, fasciculação e atrofia de língua, provocando paralisia de língua com a progressão da doença e determinando incoordenação oral, aumento no tempo de trânsito oral (TTO) e comprometendo a alimentação (KAWAI et al., 2003; FATTORI et al., 2006).

Além da disfagia orofaríngea, com impacto inicial na fase oral da deglutição, o comprometimento do NMS e NMI afeta inúmeras outras atividades de vida diária na DNM prejudicando a funcionalidade do desempenho motor global. Portanto, outra questão bastante

relevante no contexto da DNM, além da disfagia orofaríngea como sintoma freqüente, está centrada no acometimento do desempenho funcional dessa população. Sabe-se que as alterações clínicas na DNM acometem a musculatura voluntária, comprometendo funcionalmente o sistema motor e respiratório, que levam à dificuldade/incapacidade de realização de atividades de vida diária incluindo a alimentação e a deglutição (HIGO et al., 2004; KULNHEIN et al., 2008).

Alguns dos estudos que analisaram a relação entre a disfagia orofaríngea e a DNM se concentraram em fazer análises entre os achados qualitativos da deglutição e a evolução da doença, concluindo que a disfagia orofaríngea pode ser um fator preditivo para identificar a gravidade da doença (ERTEKIN et al., 2000; KAWAI et al., 2003; HIGO et al., 2004; GOELEVELN et al., 2006; RUOPOLLO et al., 2013; MURONO et al., 2015; PLOWMANN et al., 2016).

Considerando ainda que as alterações na deglutição na DNM fazem parte dos parâmetros que avaliam o desempenho funcional nessa doença, e mesmo alguns autores já tendo estudado a deglutição por meio de análise videofluoroscópica como o estudo aqui proposto, essas pesquisas analisaram achados qualitativos. (HIGO et al., 2004; GOELEVELN et al., 2006; BRIANI et al., 2008 ; TABOR et al., 2016). Até a presente data não encontramos estudos com análise quantitativa temporal da fase oral da deglutição na DNM, o que torna esse estudo pioneiro nessa população.

Os estudos que relacionaram o desempenho funcional na DNM com a análise qualitativa da deglutição orofaríngea constataram que quanto mais a DNM se agrava, mais comprometidos estão os parâmetros qualitativos da deglutição, que geram alterações significativas na dinâmica da deglutição com consequentes riscos para penetração ou aspiração laringotraqueal, desidratação e pneumonia aspirativa (KAWAI et al., 2003; PARIS et al., 2012; TABOR et al., 2016).

Portanto, este estudo teve por objetivo descrever e relacionar o tempo de trânsito oral da deglutição com o desempenho funcional e com penetração e aspiração laringotraqueal na DNM.

Hipótese de pesquisa

Há relação entre o aumento do TTO com a diminuição do desempenho funcional e com o grau de comprometimento de penetração e aspiração laringotraqueal na DNM.

Pergunta de pesquisa

O TTO aumenta com a diminuição do desempenho funcional e se relaciona com penetração e aspiração laringotraqueal na DNM?

2 Objetivo

Esta pesquisa teve por objetivo descrever e relacionar o TTO da deglutição com o desempenho funcional e com penetração e aspiração laringotraqueal na DNM.

3 Revisão de Literatura

3.1 Diagnóstico, sintomas e tipos de DNM

Os neurônios motores estão distribuídos na região anterior da medula e tronco cerebral e desempenham papel de integração de impulsos de origem do sistema nervoso central (SNC) e atividade muscular (CHIEIA, 2015).

As doenças que afetam o neurônio motor caracterizam-se por causarem apoptose neuronal, ou seja, morte celular. Este fato pode ser justificado por *stress* funcional, alterações no DNA e também de acordo com a variabilidade do acometimento anatômico (TALBOT, 2002).

Quando a disfunção encontra-se no neurônio motor superior (NMS) são observados sinais como fraqueza, reflexos tendíneos vivos e presença de reflexos anormais. Já na disfunção do neurônio motor inferior (NMI), encontra-se fraqueza, fasciculações, atrofia e atonia. A disfunção dos neurônios motores do tronco encefálico na DNM determina a presença de disfagia orofaríngea e disartria.

Os termos “neuronopatia motora”, “desordens do neurônio motor” e “doenças do neurônio motor” são utilizados para qualquer doença que comprometa a função dos neurônios motores. A DNM apresenta-se em quatro formas clínicas, dependendo do local de comprometimento primário dos neurônios motores, sendo elas: a Esclerose lateral Primária (ELP), a Paralisia Bulbar Progressiva (PBP), a Atrofia Muscular Progressiva (AMP) e a Esclerose Lateral Amiotrófica (ELA) (DESAI, 2000). Na literatura internacional é utilizada a denominação ELA/DNM para todas essas formas de representação clínica (ROWLAND, 1998; DESAI, 2000; CHIEIA, 2015).

Pringle et al. (1992) descreveram a ELP com apresentação de surto insidioso, de evolução lenta, sem sinais e sintomas de envolvimento de qualquer outra parte do sistema nervoso além dos tratos córtico-bulbar e corticoespinal. Não há evidência, pelo menos nas etapas iniciais da doença, de comprometimento clínico ou eletroneuromiográfico do NMI.

Para Chancellor et al. (1993) a PBP caracteriza-se pelo comprometimento predominante da musculatura de inervação bulbar com ou sem envolvimento do NMS. Os

sintomas predominantes são disartria e disfagia, seguidos de fraqueza, atrofia e fasciculações da língua.

Em definição, a AMP é uma doença pura do NMI de causa ainda não identificada e representa cerca de 5 a 20% dos casos de DNM (CHIEIA, 2015).

O diagnóstico da DNM é baseado nos achados clínicos e eletromiográficos (BROOKS, 2000). No momento em que são constatados clinicamente os sinais sugestivos da combinação entre o comprometimento do NMS e o NMI é diagnosticada a ELA (CHIEIA, 2015). Os sintomas e sinais característicos permitem melhor caracterização do sítio topográfico envolvido, o que possibilita diagnósticos clínicos mais precisos.

Higo et al. (2004) referiram que a ELA manifesta-se de duas formas, sendo uma de início bulbar e outra de início espinal. À medida que há progressão da doença, ambos os neurônios motores (NMS e NMI) podem ser afetados e vários sintomas se sobrepõem.

Um dos critérios diagnósticos mais utilizados na literatura é o *El Escorial World Federation of Neurology de Brooks* (1994), que consiste nas seguintes definições:

- ELA clinicamente definitiva: evidência de sinais de disfunção dos NMS e NMI em três regiões;
- ELA clinicamente provável: evidência clínica de disfunção dos NMS e NMI em pelo menos duas regiões, com algum sinal de disfunção de NMS necessariamente em um nível mais cranial do que os sinais de disfunção dos NMI;
- ELA clinicamente provável com apoio laboratorial: sinais clínicos de disfunção de NMS e NMI encontrados em somente uma região e com evidência eletromiográfica de disfunção de NMI em pelo menos dois membros, desde que exames laboratoriais e de neuroimagem excluam outras possíveis causas.

Kulnhein et al. (2008) referiram que o envolvimento do NMS na ELA provoca sintomas supranucleares que também são conhecidos como paralisia pseudobulbar. A degeneração dos NMI com o envolvimento dos núcleos de nervos cranianos no bulbo e ponte que inervam os músculos bulbares resultam em paralisia bulbar com paresias flácidas, atrofia muscular e fasciculações e/ou fibrilação da língua. Além disso, a perda de neurônios motores na medula espinal provoca fraqueza muscular, resultando em disfunção respiratória

progressiva e comunicação de esforço voluntário diminuído, bem como tosse reflexiva, todos os quais podem agravar os sintomas de disfagia orofaríngea.

Turner et al. (2010) relataram que existe algum grau de heterogeneidade entre os subtipos de ELA. Alguns indivíduos com sintomas de início bulbar podem desenvolver rápida disartria e ainda permanecerem ambulantes por um período prolongado, enquanto em outros casos a progressão é rápida, com início generalizado da fraqueza motora nos membros e músculos respiratórios. Os autores relataram que o tempo médio de diagnóstico é de 10 meses, sendo que os indivíduos procuram médicos de outras especialidades até chegar ao neurologista. Os indivíduos que mais procuram os médicos otorrinolaringologistas e neurologistas, são os de sintomas bulbares e a latência de diagnóstico geralmente é menor do que indivíduos com sintomas de início em membros.

Prell et al. (2012) referiram que o espectro clínico inclui diferentes fenótipos de ELA, com início bulbar, ou uma forma de aparecimento em membros. A identificação destes fenótipos específicos na ELA é significativa para o prognóstico e para propostas para indivíduos envolvidos em ensaios clínicos.

Para Chieia (2015) o indivíduo com ELA apresenta base genética e predisposição para seu desenvolvimento, desde que certos genes sejam ativados em situações especiais. A lesão inicial que desencadeia a morte neuronal na ELA ainda não está bem definida, podendo estar localizada no motoneurônio, nas células astrocísticas, nos interneurônios e nos neurônios motores corticais.

Para Azevedo (2015) a eletroneuromiografia (ENMG) tem sido o exame mais importante no diagnóstico de ELA, de suas variantes e de outros diagnósticos diferenciais. A ENMG visa o estudo dos quatro membros (regiões cervicais e lombossacrais) e das regiões torácica e cranial/bulbar. O exame convencional divide-se em duas partes: estudo da condução nervosa (nervos sensitivos e motores) e eletromiografia. Além deste exame, a ressonância Magnética (RM) do encéfalo e da medula cervical é realizada para afastar outras possibilidades causais que envolvam a via motora.

Balendra et al. (2015) citaram quatro estágios de estadiamento da ELA, sendo as três primeiras etapas definidas por envolvimento funcional de regiões equivalente aos utilizados para a classificação escorial: bulbar, membros superiores e membros inferiores, com

comprometimento funcional definido como disfagia, disartria, espasticidade, fraqueza ou definhamento. Assim, o número de regiões envolvidas determina o estágio da doença. Neste estudo os autores constataram que a permanência em cada estágio é de no mínimo três meses e que pode haver diferença entre o estadiamento na ELA com início bulbar e início em membros. Os autores concluíram que, enquanto a escala de funcionalidade *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale* (ALSFRS) é uma medição de incapacidade funcional, o sistema de estadiamento descreve a propagação patológica da doença. Sendo assim, um paciente que esteja no estadiamento dois e outro com estadiamento três, podem ter uma pontuação idêntica na ALSFRS.

Apesar de a DNM ser de caráter degenerativo e progressivo, os sintomas encontrados ao longo da doença são passíveis de tratamento, sendo extremamente necessário o acompanhamento interdisciplinar a fim de melhorar a qualidade de vida dos pacientes (CHIEIA, 2015).

3.2 Escalas funcionais para mensurar a progressão da DNM

Orsini et al. (2007) referiram que o monitoramento da ELA é difícil e que a busca de indicadores de progressão da doença é importante. Nesse sentido, muitos instrumentos de avaliação tem sido propostos com a finalidade de acompanhar os indivíduos durante o percurso de suas vidas. No entanto, as recomendações para a utilização de determinados instrumentos são pouco abordadas na literatura atual. Os mesmos autores realizaram estudo de revisão com essas escalas de desempenho funcional específicas para indivíduos com ELA. Entre elas estão:

Escala de avaliação funcional ALSFRS (STAMBLER, 1996) – desenvolvida para monitorar a progressão da incapacidade em pacientes com ELA. Esta escala avalia os níveis de auto-suficiência dos indivíduos em áreas relativas à alimentação, autocuidado, deambulação e comunicação. É um instrumento útil para avaliação do nível e alterações funcionais em indivíduos com ELA e seus resultados tem estreita concordância com medidas objetivas de força muscular e função pulmonar. Além disso, os escores dessa escala correlacionam-se significativamente com a qualidade de vida nessa população. A escala foi revisada em 1999

por Cederbaum e colaboradores e foram acrescentados parâmetros respiratórios. A escala foi traduzida e validada para o português do Brasil por Guedes et al. (2010) e pode ser aplicada por qualquer profissional de saúde.

Exame neuromuscular quantitativo de Tufts (TONE) (MCGUIRE et al., 1996) - é um instrumento padronizado para medir a força muscular e função pulmonar. Seus escores se relacionam fortemente com a qualidade de vida e a habilidade de execução de atividades básicas e instrumentais da vida diária. Os autores não relataram sobre validação desta escala e a mesma não foi traduzida para o português.

Amyotrophic Lateral Sclerosis Severity Scale (ALSSS) (HILLEL, 1990) – Foi desenvolvida para fornecer sistema de estadiamento e avaliação funcional rápida para pacientes com ELA. Avalia funções de fala, deglutição e habilidades de extremidade superior e inferior. Cada função é graduada de zero a quatro. Esta escala foi traduzida e validada para o português do Brasil, como Escala de Gravidade da Esclerose Lateral Amiotrófica (Egela) por Lima et al. (2009) e não necessita de exame clínico, podendo ser aplicada por qualquer profissional de saúde.

Escala de Appel (APPEL et al., 1987) – É um instrumento que fornece estimativa quantitativa do estado clínico e da progressão da doença na ELA e foi validada pelos autores. Inclui a avaliação da deglutição, da fala e da função respiratória, bem como a força e a função da musculatura das extremidades superiores e inferiores. A aplicação é simples e produz dados reprodutíveis tanto para uma pontuação de escore total quanto para cada grupo de funções testadas. A escala é composta por cinco sub-escalas: bulbar, ventilatória, força muscular e função dos membros superiores e inferiores. É possível avaliar o ritmo da progressão e extensão a todos os territórios. Esta escala não foi traduzida para o português do Brasil.

Escala de Norris (NORRIS et al. 1979) - Esta escala inclui testes clínicos e avaliações subjetivas (mastigação, função dos esfíncteres, alimentação) e compõe déficits e incapacidades. É fácil de ser aplicada e não requer equipamento específico. Porém essa escala enfatiza os membros superiores, sub-avaliando a função respiratória, não sendo um bom meio para avaliar o prognóstico dos pacientes. Os autores não relataram sobre validação desta escala e a mesma não foi traduzida para o português.

Escala modificada de Norris Bulbar - (ORSINI et al., 2007) em seu estudo de revisão verificaram que a mesma explora as alterações da ventilação, da tosse, do comprometimento emocional e das incapacidades de mastigação, deglutição e articulação das palavras.

ALS Health State (RIVIERE et al., 1998) – Nesta escala a classificação é baseada em habilidades de fala, deambulação e de realização de atividades de vida diária. Avalia o nível de independência funcional de forma simples e específica. Os autores não relataram sobre validação desta escala e a mesma não foi traduzida para o português.

Kolewe et al. (2008) avaliaram os potenciais preditores de sobrevida em 479 indivíduos com ELA por meio da escala ALSFRS. A pontuação da escala foi documentada ao longo dos anos, além de informações como introdução de gastrostomia endoscópica percutânea e necessidade de ventilação mecânica não invasiva. Os autores encontraram que o gênero dos indivíduos não tem relação com a sobrevida, que jovens sobrevivem mais tempo do que os mais velhos, que nos casos de início bulbar o tempo de sobrevida é menor, que o comprometimento respiratório é a causa de morte na maioria dos casos, a capacidade vital forçada é o teste respiratório mais estudado e que a escala ALSFRS é um parâmetro útil para prever a progressão da doença.

Wada et al. (2015) propuseram e validaram escala específica de disfagia para Doenças Neuromusculares. Os autores avaliaram 134 indivíduos com Distrofia Muscular de Duchenne (DMD) e 84 pacientes com ELA. Destes, 72 indivíduos com DMD e 34 indivíduos com ELA realizaram avaliação videofluoroscópica da deglutição. Os exames de deglutição foram classificados por meio da escala de penetração e aspiração proposta por Rosenbek et al. (1996) e os dados foram relacionados com a escala proposta bem como com outras escalas já existentes como a *Functional Oral Intake Scale* (FOIS), *Functional Intake Level Scale* (FILS) e ALSFRS-R. Os autores verificaram que houve relação com as demais escalas, além de apresentar confiabilidade e validade satisfatórias, podendo ser utilizada em outras doenças neuromusculares.

3.3 Disfagia orofaríngea na DNM

A disfagia orofaríngea na ELA é caracterizada pela fraqueza ou espasticidade dos músculos inervados pelos nervos trigêmeo, facial, hipoglosso, glossofaríngeo e vago. Durante o percurso da doença todos os músculos da língua, palato, lábios, mandíbula, faringe, laringe e tronco superior são afetados, resultando em deficiência no transporte do bolo alimentar. Os sintomas típicos da disfagia orofaríngea na ELA são aumento do tempo em se alimentar, perda de peso, febre de origem desconhecida e infecções respiratórias recorrentes. A incapacidade de vedar os lábios aumenta a probabilidade de se desenvolver a respiração oral e consequentemente o aumento de secreções. A excursão laríngea é reduzida, com fechamento glótico incompleto, o que aumenta o risco de aspiração. O segmento faringoesofágico pode ser perturbado especialmente em pacientes com paralisia pseudobulbar, devido à hiperreflexia e hipertonia do esfíncter esofágico superior (KUNHLEIN et al., 2008).

Para Strand et al. (1996) a disfagia orofaríngea é um sintoma comum em indivíduos com ELA e é o resultado de perda progressiva da função bulbar e músculos respiratórios. A prevenção de complicações secundárias, tais como deficiência nutricional e desidratação, que aumentam os efeitos da progressão da doença, requer monitoramento cuidadoso de cada indivíduo e do seu *status* funcional em cada fase da mesma. Para os autores, a compreensão da doença e sua relação com as alterações de deglutição, fala e respiração é essencial no momento da intervenção.

Ertekin et al. (2000) investigaram os mecanismos fisiopatológicos da disfagia orofaríngea em 43 indivíduos com ELA e 50 indivíduos controle, por meio de métodos clínicos e eletrofisiológicos - eletromiografia. Nos indivíduos com ELA autores verificaram que o início da deglutição voluntária está atrasado e/ou eventualmente ausente, enquanto o reflexo da deglutição está preservado até a fase pré-terminal da doença. Os autores concluíram que os achados fisiopatológicos encontrados nos indivíduos com ELA permaneceram nos limites normais e que a principal alteração encontrada foi a degeneração progressiva do músculo cricofaríngeo, que ocorre principalmente devido a degeneração progressiva das fibras piramidais corticobulbares excitatórias e inibitórias.

Dotaviano et al. (2002) estudaram a deglutição de 11 indivíduos com ELA por meio da videoendoscopia da deglutição. Os autores verificaram que todos os indivíduos

apresentaram alteração em alguma fase da deglutição estudada, porém, apenas 72,7% tinham queixa de disfagia. Os autores constataram penetração laríngea ou aspiração laringotraqueal para a consistência líquida em 90,9% dos indivíduos. Concluíram que mesmo na ausência de queixa, a disfagia orofaríngea é uma das comorbidades da ELA.

Kawai et al. (2003) estudaram a disfagia, principalmente na fase oral, no primeiro estágio da ELA, por meio de videofluoroscopia da deglutição e manometria esofágica, em 11 pacientes com ELA. Foi utilizada a pontuação referente à deglutição da escala de gravidade ELA (ALSSS). Os resultados mostraram que a fase inicial da disfagia orofaríngea na ELA foi causada principalmente por comprometimento na fase oral e as disfunções orais iniciaram-se em alguns casos com a diminuição do transporte de bolo alimentar na parte anterior da língua, e em outros casos com uma função deteriorada para conter o bolo alimentar na parte posterior da língua. Os autores concluíram que apesar da incoordenação e atrofia da língua ser um fator dominante, a capacidade de manter o bolo alimentar na cavidade oral é um fator decisivo para determinar o grau de comprometimento da disfagia orofaríngea na ELA.

Higo et al. (2004) estudaram prospectivamente a evolução da disfagia orofaríngea em 50 indivíduos com ELA. Foi realizada análise qualitativa da deglutição por meio de videofluoroscopia e utilizada a pontuação referente à deglutição da escala de gravidade da ELA (ALSSS). Os autores encontraram atraso no transporte do alimento da cavidade oral para a faringe, estase em recessos piriformes em metade dos indivíduos sem queixas bulbares e manutenção da abertura do esfíncter esofágico superior com a perda de desempenho funcional pela escala ALSSS. Os autores concluíram que quanto maior o avanço na pontuação referente a deglutição da escala ALSSS, pior foram os parâmetros observados na videofluoroscopia da deglutição.

Goeleven et al. (2006) estudaram as alterações na deglutição de 40 indivíduos com ELA por meio de avaliação videofluoroscópica combinada à avaliação manométrica e relacionaram os achados com o *status* funcional de alimentação. Os resultados do estudo mostraram que quase todos os indivíduos, independente do curso de disfagia, apresentaram anormalidades na fase oral da deglutição e constataram que a aspiração foi achado significativo na deglutição dos mesmos. Além disso, quando a escala ALSSS regrediu abaixo da pontuação seis, a aspiração laringotraqueal esteve presente mesmo sem sinais clínicos ou queixas subjetivas. Desta forma, os autores sugeriram que os pacientes que estejam abaixo da

pontuação seis na escala ALSSS sejam encaminhados à avaliação objetiva da deglutição. Os autores concluíram que o agrupamento de avaliação clínica, videofluoroscopia e manometria pode desempenhar um papel crucial no gerenciamento da disfagia orofaríngea em pacientes com ELA.

Briani et al. (2008) estudaram de 23 indivíduos com DNM, com diferentes graus de disfagia, por meio de videofluoroscopia, videolaringoscopia e manometria esofágica e compararam estes métodos. Os autores relataram que a videofluoroscopia é significativamente mais sensível em relação à videolaringoscopia na identificação de anormalidades na deglutição nessa população. Os resultados demonstraram que a fase oral da deglutição estava mais comprometida, seguida de alteração na fase faríngea. Além disso, os pacientes que não apresentavam queixas ou sinais clínicos de disfagia orofaríngea apresentaram alterações observadas na videofluoroscopia semelhantes às dos indivíduos que apresentavam os sinais clínicos. Os autores concluíram que ainda é grande o número de indivíduos que não apresenta sinais clínicos ou queixas de disfagia orofaríngea, mas que os mesmos deveriam ser encaminhados para avaliação objetiva, devido à presença de alterações na dinâmica da deglutição.

Pontes et al. (2008) em estudo de revisão de literatura apresentaram as principais alterações da fonação e da deglutição na ELA. Os resultados mostraram que a aplicação de diferentes manobras fonoaudiológicas são importantes para a reabilitação de pacientes com ELA e que fonoaudiólogo instrui o paciente como preservar e/ou minimizar os problemas de deglutição e fonação. Os autores concluíram que a detecção precoce desses distúrbios permite aos fonoaudiólogos avaliar objetivamente os prejuízos funcionais e traçar metas realistas de reabilitação.

Queiróz et al. (2009) estudaram a deglutição em 48 adultos com disfagia orofaríngea neurogênica, incluindo indivíduos com paralisia bulbar progressiva (PBP), por meio da videoendoscopia da deglutição (VED). Os autores verificaram estase em valécua após a ingestão da consistência pastosa grossa, atraso na deglutição de alimentos para a deglutição das consistências pastosa grossa e sólida, presença de estase em recessos piriformes após a deglutição da consistência pastosa fina, escape oral posterior da consistência líquida, penetração laríngea e aspiração laringotraqueal de líquidos antes da deglutição. Concluíram

que a VED é um instrumento eficaz para identificação de sinais na disfagia orofaríngea nestes pacientes.

Paris et al. (2013) investigaram o impacto da disfagia orofaríngea na qualidade de vida de 30 indivíduos com ELA, por meio de videofluoroscopia da deglutição e aplicação do questionário *Swallowing Quality of Life Questionnaire* (SWALL-QOL). Além disso, foram aplicadas as escalas ALSFRS e Norris para avaliação do desempenho funcional. Os indivíduos foram divididos em dois grupos, sendo 14 com disfagia orofaríngea e 16 com deglutição normal. Os resultados das escalas foram analisados e comparados com os achados da videofluoroscopia. Os autores concluíram que a disfagia orofaríngea alterou a qualidade de vida dos indivíduos com ELA.

Ruopollo et al. (2013) caracterizaram a disfagia orofaríngea e investigaram o atraso no início da fase faríngea relacionado a outros sintomas em 49 indivíduos com ELA (14 com início bulbar e 35 com início espinal), por meio da avaliação clínica da deglutição e videoendoscopia da deglutição (VED). Além disso, relacionaram a disfagia orofaríngea com a escala ALSFRS. Os resultados mostraram que a disfagia ocorreu mais frequentemente em pacientes com forma de início bulbar, e foi caracterizada pelo prejuízo na musculatura da língua e na mastigação, o que compromete a fase oral da deglutição. Além disso, encontraram redução da sensibilidade laríngea em 10 indivíduos. Os autores concluíram que há relação entre disfagia orofaríngea e a forma início bulbar da ELA, e que a VED é ferramenta útil na detecção das alterações de deglutição.

Murono et al. (2015) investigaram o papel da videofluoroscopia da deglutição na identificação da disfagia, especificamente nas fases oral e faríngea, no diagnóstico inicial da ELA. A avaliação videofluoroscópica foi realizada em 19 indivíduos com ELA, dos quais 14 apresentavam sintomas bulbares. Analisaram 15 parâmetros qualitativos na videofluoroscopia da deglutição e relacionaram com a categoria de deglutição da escala de gravidade da ELA – ALSSS. Os escores foram significativamente piores em três dos seis componentes orais e três dos oito componentes faríngeos em indivíduos com sintomas bulbares. O transporte do bolo alimentar da cavidade oral para a faringe, constrição faríngea, resíduo oral e resíduo faríngeo estavam alterados em indivíduos mesmo sem os sintomas bulbares. Já a abertura do segmento faringoesofágico foi preservada nos indivíduos mesmo com sintomas bulbares. Os autores

propuseram um padrão de avaliação radiográfica para contribuir com a identificação da disfagia orofaríngea no início dessa doença.

Plowmann et al. (2016) estudaram a capacidade determinante de medidas de tosse na presença de penetração laríngea e aspiração silente em 70 indivíduos com ELA. Os pacientes foram avaliados por meio de espirometria e videofluoroscopia da deglutição. Os resultados demonstraram que as medidas de aceleração do volume de tosse e pico de fluxo expiratório reduzido tem capacidade discriminativa para detectar penetração e aspiração laringotraqueal em pacientes com ELA, podendo se tornar uma ferramenta de triagem valiosa e com alta utilidade clínica.

Tabor et al. (2016) relacionaram os achados videofluoroscópicos qualitativos com a escala de funcionalidade ALSFRS-r e o questionário de qualidade de vida SWALL-QOL. Verificaram que a progressão da doença teve relação com pior desempenho na deglutição e qualidade de vida dos indivíduos. Os autores constataram que os parâmetros de fadiga e aumento no tempo das refeições estavam alterados em todos os indivíduos, independente dos perfis de proteção das vias aéreas dos mesmos. Os autores enfatizaram o impacto da disfagia orofaríngea sobre o bem estar psicossocial e qualidade de vida.

Erdem et al. (2016) determinaram a associação entre os padrões de deglutição e respiração em 27 indivíduos com ELA, sendo 14 disfágicos e 13 não disfágicos. Foi utilizada a escala ALSFRS-r, nos seus parâmetros de deglutição e respiração. Para avaliar a deglutição e respiração foram utilizados sensores de movimento submental, laríngeo e torácico, por meio de eletromiografia e testes de função pulmonar. Os resultados mostraram função respiratória normal em 11 indivíduos não disfágicos e em três disfágicos. Todos os indivíduos não disfágicos e apenas seis indivíduos disfágicos foram capazes de deglutir durante a inspiração. Os autores concluíram que a disfagia na ELA está relacionada à deglutição fragmentada e a incoordenação respiração-deglutição, sendo essa uma alteração que pode contribuir para identificação da disfagia.

3.4 Análise quantitativa temporal da deglutição orofaríngea

Na década de 80 surgiram os primeiros estudos sobre análise quantitativa da deglutição. Esses estudos se concentraram em e mensurar distância e os tempos das fases da deglutição de indivíduos saudáveis e disfágicos, a princípio na população com Acidente Vascular Encefálico (AVE) e outras poucas distintas patologias (LOGEMANN, 1983; SONIES et al., 1988). Essa linha de pesquisa se estendeu até a atualidade e embora existam alguns estudos recentes, até o momento não foram encontrados estudos sobre análise quantitativa temporal da deglutição na população com DNM (PARK et al. 2013; GATTO et al. 2013; NASCIMENTO et al. 2015; NAGY et al., 2016).

No início dos estudos com análise quantitativa temporal da deglutição foi priorizada a população saudável para normatização dos valores em alguns parâmetros e posteriormente surgiram estudos para descrever o desempenho dos tempos da deglutição em algumas poucas populações com disfagia orofaríngea (LOGEMANN, 1983; SONIES et al., 1988; DOODS, 1989; DANTAS et al., 1990; LOF e ROBINS, 1990; IM et al., 2012, COLA et al., 2012; LUSTRE, FREIRE e SILVÉRIO ,2013; LEE et al., 2013; NAGY et al., 2016; ZHANG et al.,2016). Porém, foi somente recentemente que a relação entre esses tempos de deglutição e os achados qualitativos da fase oral e faríngea foi estudada e com o objetivo de identificar pela mensuração dos tempos da deglutição os indicadores de riscos para a deglutição, bem como para contribuir com o monitoramento terapêutico para esses indivíduos (POWER et al., 2009; BINGJIE et al., 2010; PARK et al., 2013).

Estudo recente de revisão de literatura sobre análise quantitativa da deglutição identificou os parâmetros mais estudados (MOLFENTER e STEELE, 2012). O TTO se confirma como um dos parâmetros menos estudado e mais controverso devido ao envolvimento de comando voluntário para executar a fase oral da deglutição. Nessa revisão sobre análise quantitativa temporal vamos nos ater somente ao parâmetro TTO.

Logemann (1983) definiu que o TTO se inicia com o primeiro movimento da língua, início do aspecto voluntário da deglutição, e termina com a passagem do bolo sobre a base da língua.

Sonies et al. (1988) estudaram por meio de ultrassom a fase oral e faríngea da deglutição em 47 idosos saudáveis. Os autores uniram as fases da deglutição e estudaram o tempo do trânsito orofaríngeo (TTOF). O TTOF foi determinado a partir da análise *frame-by-frame* do ultrassom dos movimentos da língua, do osso hióide na posição de repouso inicial até a posição de repouso final. Foram avaliadas deglutições “secas” e “úmidas” e comparadas em grupos etários e também por gênero. Os resultados demonstraram que os indivíduos do gênero masculino apresentaram três deglutições completas em 10 segundos e os indivíduos do gênero feminino apresentaram 2,4 deglutições em 10 segundos. Os autores concluíram que a duração do TTOF tende a aumentar com o aumento da idade, além de ter sido mais longa no gênero feminino, apesar dos indivíduos não apresentarem queixa de “demora” para deglutir.

Lof e Robbins (1990) estudaram os aspectos de duração da deglutição no teste e reteste da videofluoroscopia em 16 indivíduos saudáveis. A análise da deglutição foi realizada no estudo *frame-by-frame* com programa acoplado ao vídeo-cassete para obtenção da duração da deglutição. Foram avaliados nove parâmetros, entre eles, a duração do TTO, que foi calculada subtraindo o tempo no momento que o bolo entra na faringe, do tempo que o bolo começou o movimento posterior na cavidade oral. Os resultados mostraram que os indivíduos executaram similarmente o teste e o reteste da videofluoroscopia da deglutição, porém os autores concluíram que pode existir variabilidade significativa, devido a mudanças no comportamento da deglutição ao longo do tempo.

Doods et al. (1990) revisaram a fisiologia da deglutição. Neste estudo os autores descreveram que a sequência de deglutição dura cerca de um a um e meio segundos, sendo que a fase oral dura meio segundo e a fase faríngea 0,7s. Os autores preconizaram 30 *frames* por segundo para análise quantitativa da deglutição.

Dantas et al. (1990) investigaram o efeito do volume e da viscosidade do bolo alimentar sobre as características do TTO, TTF e abertura do esfíncter esofágico superior por meio de videofluoroscopia da deglutição e manometria esofágica em 10 indivíduos saudáveis. As imagens foram gravadas em 30 fps e os tempos da deglutição foram medidos usando o relógio digital acoplado ao equipamento de videofluoroscopia. O TTO foi definido pelo intervalo a partir início do movimento da ponta da língua nos incisivos maxilares. Os autores demonstraram que a viscosidade do bolo alimentar aumenta o TTO e TTF, aumenta as ondas peristálticas da faringe e prolonga a abertura do esfíncter esofágico superior. Já o volume do

bolo alimentar promove o início precoce do movimento base de língua, elevação do palato mole, bem como a abertura do esfíncter esofágico superior. O TTO para consistência líquida no volume de 5ml foi de 0,39 s e para consistência pastosa no volume de 5ml foi de 0,51 s. Os autores concluíram que os tempos de TTO e TTF estão diretamente relacionados com a viscosidade do bolo alimentar.

Robbins et al. (1992) avaliaram o efeito do envelhecimento sobre eventos orofaríngeos de deglutição, em 80 indivíduos voluntários em quatro grupos etários. A deglutição das consistências líquida e semi-sólidas registradas simultaneamente pela videofluoroscopia e pela manometria esofágica. Os autores referenciaram o ramo inferior da mandíbula como marca anatômica para a divisão entre a cavidade oral e a faringe. Desta forma, os autores definiram o início da fase oral como o início do movimento ântero-posterior do bolo alimentar (propulsão) até o momento em que a parte proximal do bolo alimentar atinge a borda inferior do ramo da mandíbula. Os resultados mostraram que a duração da deglutição orofaríngea foi significativamente mais longa no grupo etário mais velho do que em qualquer outro grupo etário. Além disso, o atraso no início da excursão hipolaríngea máxima explicou principalmente as durações mais longas com o aumento da idade. Os autores concluíram que o envelhecimento normal afeta alguns parâmetros de deglutição, enquanto outros são preservados.

Logemann et al. (1995) estudaram por meio de videofluoroscopia os efeitos do bolo alimentar ácido (50% de suco de limão e 50% de bário líquido) nas medidas da deglutição em dois grupos de pacientes com disfagia neurogênica, sendo o grupo 1 - 19 pacientes pós AVE e grupo 2 - 8 pacientes com disfagia relacionada a outras etiologias. O TTO foi definido como o início do movimento do bolo alimentar na boca até que a cabeça do bolo atingisse o ponto em que a borda inferior da mandíbula cruza a base da língua. Foi mensurado o tempo entre o comando para deglutir e início da movimentação do bolo alimentar e foi definido “tempo de latência para iniciar a deglutição faríngea” como a diferença temporal entre a chegada da parte proximal do bolo na parte posterior do ângulo da mandíbula e o início da movimentação do osso hióide. Os resultados mostraram melhora significativa no início da fase oral da deglutição em ambos os grupos e houve redução significativa no atraso da deglutição nos pacientes do grupo 1 e redução na frequência de aspiração com o bolo azedo em comparação com os bolos não azedos para o grupo 2.

McCullough et al. (2001) estudaram a confiabilidade inter e intra-julgadores das medidas temporais da deglutição na videofluoroscopia de 20 indivíduos pós AVE. Utilizaram no método três juízes para analisar os exames *frame by frame*, porém não especificam quantos frames havia na imagem, por meio de um temporizador em milissegundos. Foram avaliadas cinco medidas de duração: a duração do trânsito oral, duração do trânsito faríngeo, duração total da deglutição, tempo de atraso faríngeo e duração da abertura do esfíncter esofágico superior. Encontraram alta confiabilidade intrajulgadores para uma série de medidas, sugerindo que um clínico experiente pode empregar padrões consistentes para classificar determinadas medidas e tempo de deglutição na análise videofluoroscópica.

Han et al. (2001) propuseram escala para quantificar a disfagia orofaríngea em indivíduos pós AVE. Foram avaliados 105 indivíduos por meio de videofluoroscopia da deglutição e analisados os seguintes parâmetros qualitativos e quantitativos: vedamento labial, formação do bolo, resíduo em cavidade oral, TTO, desencadeamento deglutição faríngea, fechamento da epiglote, escape nasal, resíduo em valécula, resíduo faríngeo após deglutição e TTF. O TTO foi medido conforme proposto por Logemann et al. (1995). Os indivíduos apresentaram aumento no TTO com média de 1,70s (variando de 1,18s a 2,44s). Os autores concluíram que a escala possui sensibilidade e especificidade para quantificar a gravidade da disfagia orofaríngea.

Yoshikawa et al. (2005) estudaram a influência do envelhecimento na deglutição de idosos saudáveis. Foi realizada videofluoroscopia da deglutição em 30 idosos e em grupo controle de jovens. Foram oferecidos 5 ml e 10 ml de líquido e pastoso. Para análise quantitativa de TTO, TTF e “depuração faríngea”, as imagens foram gravadas em 30 *frames* por segundo e analisadas em projetor, medidas por relógio digital que indicava o tempo em segundos em cada quadro do vídeo. Os resultados demonstraram que a consistência pastosa exigiu maior tempo de “depuração faríngea” e que o aumento no TTO influenciou o aumento no TTF nos idosos. Os valores de TTO encontrados para o grupo de idosos foi de 1,05s e para o grupo jovens foi de 0,74s. Além disso, os parâmetros qualitativos escape oral anterior e penetração laríngea foram mais frequentes nos idosos dentados do que nos jovens.

Fattori et al. (2006) estudaram TTO, TTF, tempo de trânsito esofágico, índice de retenção em orofaringe, índice de retenção esofágica e índice de esvaziamento esofágico em 28 indivíduos com ELA por meio de cintilografia. Os indivíduos foram divididos em três

grupos de acordo com o nível de classificação na escala de funcionalidade ALSFRS-r e também divididos de acordo com o escore bulbar da mesma escala (pontuação de fala, salivação e deglutição). Para a realização do exame e posterior análise foi oferecido líquido (10 ml) e semi-sólido (10 ml). Os autores não encontraram diferença significativa entre os parâmetros determinados nas três classes de gravidade da ELA para as duas consistências. Por outro lado, os valores de índice de retenção orofaríngea foram significativamente mais elevados em indivíduos com início bulbar do que com início espinal. Concluíram que conforme a ELA se agrava o TTO, TTF e índice de retenção em orofaringe aumentam, enquanto os parâmetros esofágicos não se alteram significativamente, o que confirma a manifestação da disfagia orofaríngea neurogênica nestes pacientes.

Spadotto et al. (2008) compararam a análise quantitativa temporal da deglutição realizada com cronômetro e com *software* elaborado pelo grupo em indivíduos Pós-Acidente Vascular Cerebral (AVC). A videofluoroscopia da deglutição foi realizada em 10 indivíduos pós-AVC e posteriormente as imagens foram digitalizadas e analisadas por meio do cronômetro e do *software*. Os autores obtiveram valores diferentes dos eventos da deglutição em relação ao uso dos dois equipamentos. Os indivíduos do grupo estudado apresentaram média de 4,6 s com o uso do cronômetro e de 2,5 s com o uso do *software*. Os autores concluíram que o uso do *software* permite precisa mensuração, como também, possibilita detalhar e identificar o início e o término dos parâmetros analisados.

Bingjie et al (2010) relacionaram medidas temporais de deglutição com penetração e aspiração em 105 indivíduos Pós-AVC e compararam com 100 indivíduos saudáveis. Aplicaram a escala de penetração e aspiração de Rosenbek et al. (1996) e as imagens foram gravadas em 30fps. O TTO para o grupo controle foi de 0,42s para consistência líquida e 0,38s para consistência pastosa. O TTO para o grupo pós-AVC que não aspirou foi de 0,76s para consistência líquida e 0,74s para consistência pastosa; e o TTO para o grupo pós AVC que aspirou foi de 0,81s para consistência líquida e 0,68s para consistência pastosa. Concluíram que os indivíduos Pós-AVC apresentaram TTO maior que os indivíduos do grupo controle, porém semelhantes quando comparados entre eles.

Weckmueller et al (2011) referiram ausência de estudos sobre análise quantitativa temporal da deglutição em lactentes e crianças. Os autores estudaram o preenchimento da cavidade oral, o TTO, o início do fechamento da laringe, o tempo da resposta faríngea, o

tempo de chegada do bolo alimentar em valécua, o TTF e a abertura esfíncter esofágico superior em 15 crianças com deglutição normal por meio da videofluoroscopia da deglutição. Os autores utilizaram a definição de TTO proposta por Logemann et al. (1995). As crianças foram divididas em três grupos de acordo com a faixa etária e consequente método de alimentação (mamadeira, copo com bico e copo aberto) e as imagens foram analisadas pelo estudo *frame by frame*. Os autores encontraram que a duração dos parâmetros enchimento oral, TTO, tempo de fechamento laríngeo e abertura do esfíncter esofágico superior foi maior com o aumento da faixa etária. Em relação ao método de alimentação não encontraram diferenças significativas entre os grupos etários, o que indicou uma adaptação na biomecânica da deglutição com o desenvolvimento da cavidade oral e da faringe.

Molfenter e Steele (2012) em estudo de revisão sistemática sobre as medidas temporais da deglutição em indivíduos saudáveis estudaram o grau de variabilidade destes parâmetros na literatura. Em 46 estudos que preencheram os critérios de inclusão, foram encontrados 119 parâmetros diferentes. Os três parâmetros relacionados à duração de tempo que ocorreram com mais frequência foram à abertura do esfíncter esofágico superior, o fechamento laríngeo e movimento do osso hióide. Já os três parâmetros relacionados à mensuração do intervalo de tempo que ocorreram mais frequentemente foram a duração do estágio de transição entre a fase oral e faríngea, o TTF e o fechamento laríngeo com a abertura do esfíncter esofágico superior. Além disso, encontraram influência do tamanho do bolo alimentar e idade dos indivíduos em alguns dos parâmetros encontrados.

Kim et al (2014) investigaram a concordância inter-avaliador utilizando Escala Videofluoroscópica de Disfagia, uma versão modificada do protocolo proposto por Logemann (1993). Foram avaliados 100 indivíduos por meio de videofluoroscopia e 10 juízes analisaram os achados nos exames gravados em 30 fps. A confiabilidade inter-avaliadores foi razoável ao se tratar de parâmetros como vedamento labial, TTO, atraso na deglutição faríngea, resíduo em valécua, elevação laríngea, resíduos em recessos piriformes e aspiração laringotraqueal. Os autores concluíram que os parâmetros que apresentaram menor concordância foram os da fase oral da deglutição.

Gatto et al. (2013) estudaram o efeito do sabor azedo e da temperatura fria no tempo de trânsito oral total (TTOT) e no TTO em 52 indivíduos pós-AVE isquêmico, por meio da videofluoroscopia da deglutição a 30fps. Os indivíduos foram avaliados com quatro

estímulos diferentes: natural, frio, azedo e azedo-frio, todos em consistência pastosa. As medidas de TTOT foram obtidas em análise *frame by frame* por meio de software específico para análise quantitativa da deglutição proposto por Spadotto et al (2008). O TTOT foi mensurado a partir do início do movimento do bolo alimentar na boca e o TTO segundo Logemann et al (1995). Verificaram que a associação entre o estímulo azedo e a temperatura fria provocou mudanças significativas no TTOT e no TTO com redução nestes tempos. Os autores concluíram que a associação entre o sabor azedo e a temperatura fria reduziu o TTOT e o TTO nos indivíduos pós-AVE disfágicos.

Park et al. (2013) estudaram as diferenças entre TTO e o TTF em 30 indivíduos Pós-AVE, divididos em dois grupos (15 indivíduos que aspiravam e 15 que não aspiravam), por meio da videofluoroscopia da deglutição acoplada a um temporizador de 100ms. O TTO foi definido segundo proposto por Logemann (1983). Os resultados indicaram que os indivíduos que aspiram tiveram TTO maior do que os que não apresentaram aspiração laringotraqueal. Além disso, o TTO foi mais longo com o aumento da viscosidade do bolo alimentar.

Nascimento et al. (2015) estudaram a influência das consistências e volume bolo alimentar no TTO e TTF sobre a proporção de duração do clearance faríngeo/e duração do movimento do osso hióide em 30 indivíduos saudáveis. Utilizaram como método a videofluoroscopia da deglutição, em análise *frame by frame*, em 60 fps, por meio de *software* acoplado a relógio digital. Os autores analisaram o TTO, o TTF, a duração da abertura do esfíncter esofágico superior, a duração do movimento do osso hióide e o TTOF. Os resultados demonstraram que o aumento do volume do bolo ingerido provocou aumento na duração de abertura do EES e que o aumento de espessura da consistência do bolo de líquida para mel, provocou duração maior no tempo de trânsito faríngeo. Já a proporção entre o *clearance* faríngeo e o movimento do osso hióide não mudou com o volume ou consistência do bolo alimentar.

Soares et al. (2015) em estudo de revisão narrativa documentaram os artigos científicos que abordaram o parâmetro TTO em indivíduos saudáveis. Inicialmente encontraram 90 artigos, porém foram incluídos somente nove. Os autores buscaram informações sobre tipo de estudo realizado, número, gênero e faixa etária dos participantes, objetivos, avaliação instrumental escolhida, definição de TTO, além de volumes e consistências alimentares. Encontraram divergência quanto aos volumes testados, idade e

gênero. Nesta revisão, o TTO variou de 0,35s a 1,54s para a consistência líquida, 0,39 a 1,05s para consistência pastosa e 1s a 12s para consistência sólida. Além disso o TTO foi referido maior em idosos do que em adultos, independente do volume e/ou consistência. Concluíram que não há consenso sobre o TTO e enfatizaram a importância da valorização deste parâmetro devido ao impacto negativo na biomecânica da deglutição.

Cassiani et al. (2015) avaliaram as fases oral e faríngea da deglutição em 18 pacientes com Doença Pulmonar Obstrutiva Crônica (DPOC) e em grupo controle de 15 voluntários saudáveis. Foi realizada avaliação clínica da deglutição e avaliação videofluoroscópica em que foram realizadas duas ofertas de 5 ml e 10ml das consistências líquida, pastosa e sólida. Foi realizada análise *frame by frame*, medidos em *software* a 60 fps, acoplado a relógio digital. Os autores analisaram o TTO, o TTF, a duração da abertura do esfíncter esofágico superior, a duração do movimento do osso hióide e o TTOF. O TTO foi considerado a partir do primeiro movimento da ponta da língua nos incisivos centrais até a passagem da cauda do bolo pelo pilar das fauces. Os resultados demonstraram que o TTO nos indivíduos com DPOC variou de 0,36 s a 0,50 s e no grupo controle de 0,29 s a 0,36 s. Os autores concluíram que os indivíduos com DPOC apresentam diferenças significativas na fase faríngea da deglutição do que na fase oral.

4 Método

4.1 Aspectos éticos

O projeto de pesquisa foi submetido ao Comitê de Ética em Pesquisa da Faculdade de Medicina de Rio Preto (FAMERP) e aprovado sob protocolo 53663516.0.3001.5415 (APÊNDICE A). Os critérios éticos foram seguidos respeitando a Resolução 466/12 que versa sobre a Ética em Pesquisa com seres humanos. Os indivíduos incluídos na pesquisa e/ou seus representantes legais receberam todas as informações pertinentes à pesquisa e a utilização dos dados para fins científicos, e foram convidados a assinar o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (APÊNDICE B) confirmando a anuência.

4.2 Casuística

Participaram desse estudo 20 indivíduos com DNM, independente do tipo ou tempo da doença (média de tempo do diagnóstico da DNM de 3,6 anos), diagnosticados por meio de exames clínicos e objetivos no Ambulatório de Doenças Neuromusculares do Hospital de Base de São José do Rio Preto, no período de fevereiro a dezembro de 2016. Foram incluídos nesse estudo 11 indivíduos, nove indivíduos do gênero masculino e dois do gênero feminino, faixa etária de 31 a 87 anos (média de idade de 57 anos), conforme descrito no Quadro 1. Foram excluídos nove indivíduos.

4.3 Critérios de exclusão

Foram excluídos os indivíduos com patologias associadas à DNM e aqueles em que o exame de videofluoroscopia de deglutição não permitiu a realização da análise quantitativa temporal da deglutição em nenhuma das consistências de alimento por questões técnicas relacionadas à imagem e adversas ao protocolo do exame.

Quadro 1 – Aspectos demográficos dos indivíduos com DNM

	Gênero	Idade	Diagnóstico	Tempo*
1	M	87	ELA/PBP	1,5 anos
2	M	58	ELA	6 meses
3	M	57	ELA	6 meses
4	F	51	ELP	10 anos
5	M	31	ELA	2 anos
6	M	47	ELA Familiar	6 anos
7	M	57	ELP	10 anos
8	M	59	ELA	1 ano
9	M	64	ELA	1 ano
10	M	49	ELA	6 meses
11	F	67	ELA	6 anos

Legenda: *Tempo de diagnóstico da DNM.

4.4 Método

Estudo clínico transversal observacional prospectivo.

4.4.1 Análise do Desempenho Funcional na DNM

Foi aplicado pela pesquisadora o questionário *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale- Revised (ALSFRS-r/BR)* que avalia a funcionalidade dos indivíduos com DNM. Este instrumento foi traduzido e validado para a Língua Portuguesa do Brasil por Guedes et al. (2010). O questionário ALSFRS-r/BR inclui parâmetros de função bulbar (fala, salivação e deglutição), função motora fina (escrita, corte de alimentos/manipulação de utensílios, vestir-se e higiene), função motora grossa (virar-se na cama/ajustar a roupa de cama e subir escadas) e função respiratória (dispnéia, ortopnéia e insuficiência respiratória). O questionário ALSFRS-r/BR (ANEXO 1) consiste de 12 itens com escore de zero a quatro para

cada item e um escore total variando de zero a 48, em que 48 pontos significa funcionalidade normal e zero significa incapacidade. O questionário foi aplicado pela pesquisadora, que leu as opções para o paciente e/ou cuidador e em seguida a pesquisadora anotou a resposta.

4.4.2 Avaliação objetiva da deglutição: protocolo e análise

A-Protocolo

Para a avaliação objetiva da deglutição orofaríngea foi realizada Videofluoroscopia de deglutição no setor de Radiologia do Hospital de Base de São José do Rio Preto. O exame foi realizado por um médico radiologista, uma técnica em radiologia e pela fonoaudióloga pesquisadora, previamente treinada e experiente para realização do procedimento, em sala de raio-x blindada. Os indivíduos permaneceram sentados e as imagens foram feitas na posição lateral, com limite superior e inferior que abrange desde a cavidade oral até o esôfago, sendo o limite anterior marcado pelos lábios, a parede da faringe posteriormente, nasofaringe superiormente e esôfago cervical inferiormente (MARTIN-HARRIS et al., 2008).

Foi utilizado o aparelho de raio-x telecomandado Flexavision, modelo HB da Shimadzu Corporation, acoplado ao conversor de vídeo – High resolution vídeo - VGA Conversion.

Nos exames de videofluoroscopia da deglutição foram utilizadas as consistências pastosa fina, líquida espessada e líquida, no volume de cinco ml cada. Para a preparação das consistências e volumes foram utilizados os seguintes materiais: copo plástico descartável, seringa descartável de 20 ml, colher de plástico descartável de cinco ml, água filtrada, Sulfato de Bário (BaSO₄) – Bariogel 100%, suco dietético de marca disponível no mercado e espessante de alimentos de marca disponível no mercado. O espessante alimentar instantâneo utilizado é composto de amido e contendo a cada 100g, 396 Kcal de calorias, 99g de carboidratos e 0mg de sódio. Para preparar a consistência com o acréscimo do espessante alimentar foi utilizado como medida o medidor padronizado do serviço, conforme apresentado no Quadro 2.

Quadro 2- Padronização das consistências de alimento

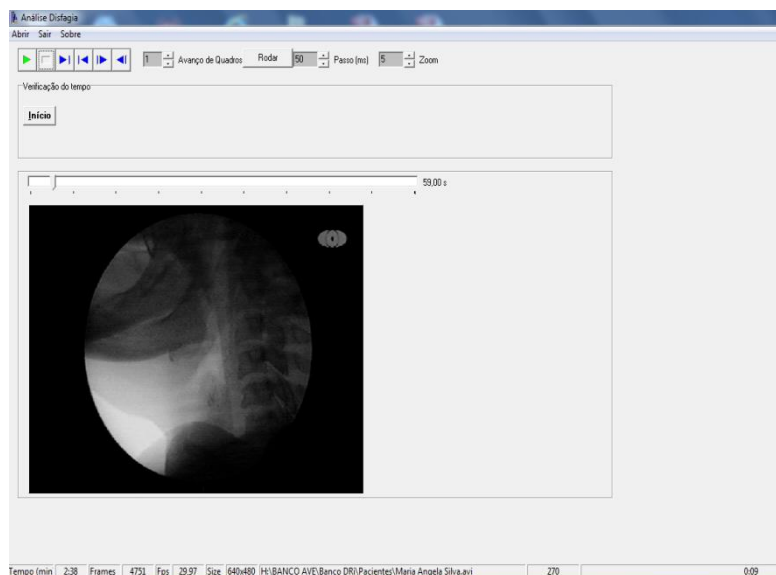
Preparação da Consistência	Água	Sulfato de Bário (BaSO ₄)	Espessante alimentar
Pastosa fina	40 ml	15 ml	1 medida
Líquida espessada	20 ml	20 ml	-
Líquida rala	40 ml	15 ml	-

As consistências pastosa fina, líquida espessada e líquida foram administradas na colher de plástico com volume de cinco ml cada. Foram oferecidas três ofertas de cinco ml de cada consistência, as quais foram interrompidas na presença de aspiração laringotraqueal.

B-Análise quantitativa temporal da deglutição

As imagens foram capturadas com taxa de aquisição de 29.97 quadros por segundo, podendo assim avaliar a posição do bolo alimentar a cada 33 mili-segundos aproximadamente. Os exames foram digitalizados e editados no computador para análise quantitativa da deglutição orofaríngea com software específico elaborado para esse fim. Este software fornece o registro do tempo em milissegundos mediante a análise dos quadros de vídeo e seriação da deglutição (SPADOTTO et al., 2008) e conforme apresentado na Figura 1.

Figura 1. *Software* durante análise quantitativa temporal da deglutição



Fonte: autor

A análise quantitativa de TTO foi proposta por Logemann em 1983 quando definiu esse parâmetro tendo como início para esse trânsito o primeiro movimento da língua. Estudos mais recentes com o TTO em indivíduos saudáveis e outras populações tanto mantiveram essa definição quanto propuseram pequenos ajustes no conceito, considerando tanto a acomodação do bolo alimentar quanto o componente voluntário presente na fase oral da deglutição (HAN et al., 2001; POWER et al., 2009; GATTO et al., 2013; KIM et al., 2014).

Nesse estudo optou-se por medir o TTO conforme proposto por Gatto et al (2013). O tempo de trânsito oral total (TTOT) descrito por Gatto et al (2013) foi baseado no tempo de trânsito oral (TTO) descrito por Logemann et al (1995). O TTOT foi definido em milissegundos com início no primeiro *frame* mostrando o alimento dentro da cavidade oral e o término no primeiro *frame* mostrando a parte proximal do bolo na região final do palato duro e início do palato mole (espinha nasal posterior) fazendo ângulo com o ramo da mandíbula e a base da língua.

Para análise quantitativa temporal de TTOT não foi possível mensurar em todos os indivíduos todas as consistências de alimento por questões técnicas. Dessa forma, o TTOT foi mensurado na consistência pastosa em dez indivíduos (N=10), na líquida espessada em nove indivíduos (N=9) e na líquida rala em oito indivíduos (N=8).

A análise quantitativa temporal da deglutição foi realizada por dois fonoaudiólogos com formação em disfagia e experiência em videofluoroscopia de deglutição. Todos os exames foram analisados por meio do *software* por ambos e em momentos diferentes. Os julgadores analisaram três ofertas do mesmo volume e da mesma consistência de alimento (FROWEN et al., 2008) e foi realizada a média de cada julgador em cada consistência de alimento. Quando não foi possível mensurar três ofertas devido à interrupção do exame por penetração ou aspiração, foi mensurado por cada julgador pelo menos duas ofertas. Foi ainda realizada a análise de concordância entre os julgadores usando a média das três ofertas de cada um, por consistência de alimento, e por meio do coeficiente de correlação de concordância de Lin (LIN, 1989). Além disso, foi calculada a estimativa por intervalo de confiança de 95% - IC(95%). O resultado estatístico de concordância, que antecedeu a análise dos resultados, demonstrou que houve confiabilidade entre os julgadores para a consistência pastosa (valor do $r_c = 0,62$, valor do IC (95%)=(0,30;0,82), para a consistência líquida espessada (valor do $r_c = 0,96$, valor do IC= 0,80;0,99) e para a consistência líquida rala (valor do $r_c = 0,60$, valor do IC -0,08;0,90), conforme apresentado no Quadro 3.

Quadro 3- Valores de concordância entre os julgadores para a mensuração do TTOT por consistência de alimento

Consistência	r_c	IC (95%)
Pastosa	0,62	(0,30; 0,82)
Líquida Espessada	0,96	(0,80; 0,99)
Líquida Rala	0,60	(-0,08; 0,90)

C-Análise qualitativa da deglutição orofaríngea

A análise qualitativa foi realizada pela pesquisadora responsável por meio da classificação de penetração ou aspiração laringotraqueal pela escala de Rosenbek et al. (1996) conforme descrito no Quadro 4.

Quadro 4- Escala de Penetração e Aspiração Laringotraqueal (Rosenbek et al., 1996)

Nível	Definição
1	Contraste não entra em vias aéreas
2	Contraste entra até acima das pregas vocais, sem resíduo
3	Contraste permanece acima das pregas vocais, visível resíduo
4	Contraste atinge pregas vocais, sem resíduo
5	Contraste atinge pregas vocais, resíduo visível
6	Contraste passa o nível glótico, mas não há resíduo no nível subglótico
7	Contraste passa o nível glótico, com resíduo no nível subglótico, apesar do paciente responder
8	Contraste passa o nível glótico com resíduo na subglote, mas o paciente não responde (aspiração silente)

4.4.3 Análise estatística

A análise dos dados envolveu cálculos de distribuição de frequência, percentuais e estatística descritiva sumarizada, em forma de tabela e gráficos de valores individuais. Foi aplicado o teste de comparação de médias para dados incompletos (ANOVA), pressupondo nível de significância $\alpha=0,05$, bem como efetuados cálculos de coeficiente de correlação de Pearson para análise bidimensional. Como suporte computacional utilizou-se o software Minitab v.16.

5 Resultados

A tabela 1 apresenta a descrição da média e desvio padrão do TTOT para cada consistência de alimento por indivíduo.

Tabela 1- Descrição da média e desvio padrão do TTOT (ms) por consistência de alimento e por indivíduo

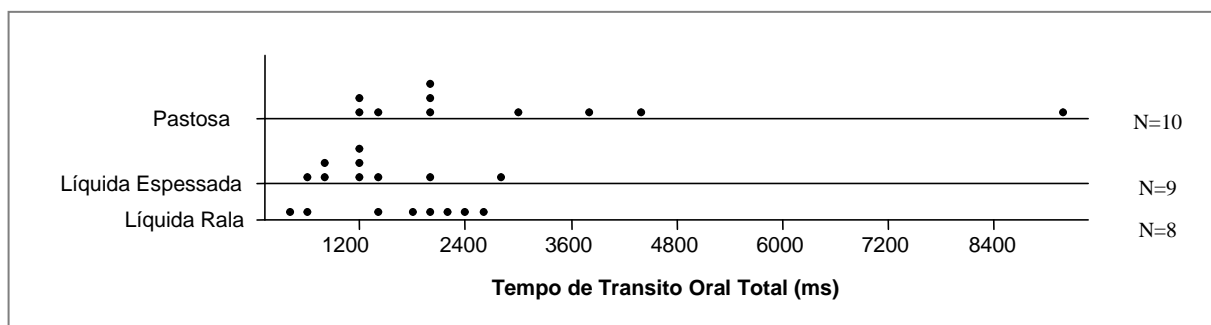
Indivíduo (N=11)	TTOT (ms)		
	Pastosa fina (N= 10)	Líquida espessada (N=9)	Líquida (N=8)
1	9158***	2057	-
2	1457	584**	433**
3	3870	1159	2413
4	2079	1223	1490
5	1943	-	1935
6	-	2729*	2677*
7	1940	767	634
8	2986	-	-
9	1195**	734	-
10	1284	1262	2224
11	4337*	1473	1701
Média	2343	1332	1688
Desvio Padrão	1137	687	809

Legenda: N=número de indivíduos; TTOT=tempo de trânsito oral total; ms= Milissegundos; *Maior TTOT e **Menor TTOT por consistência de alimento;***ponto discrepante; valor P (ANOVA) = 0,012

Na tabela 1 observa-se que houve maior variação no TTOT na consistência pastosa, entre o valor mínimo (1195ms) e o valor máximo (4337ms), do que nas demais consistências de alimento ($p=0,012$). O ponto discrepante (9158 ms) foi retirado da análise.

A figura 2 apresenta a distribuição da média do TTOT por indivíduo em cada consistência de alimento.

Figura 2 - Distribuição da média do TTOT por indivíduo em cada consistência de alimento



Legenda: N= número de indivíduos; Pastosa N=10; Líquida espessada N=9; Líquida rala N=8; ms – milissegundos; • (símbolo) – indivíduos com DNM.

A tabela 2 apresenta média, desvio padrão e mediana referente ao desempenho funcional Global, Bulbar e Bulbar/Respiratório na DNM.

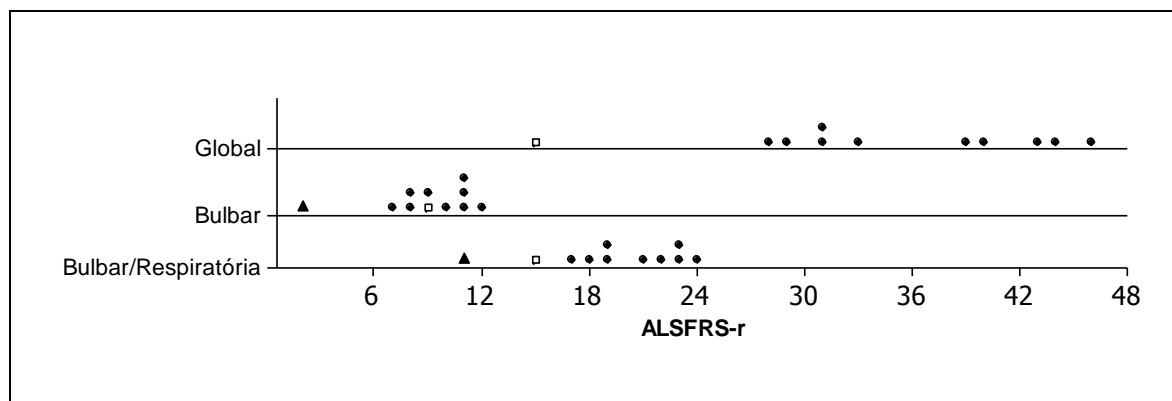
Tabela 2 – Média, Desvio Padrão e Mediana do desempenho funcional nos indivíduos com DNM.

Variável	Média	Desvio padrão	CV (%)	Mínimo	Mediana	Máximo
ALSFRS-r Global (0 – 48)	34,4	9,1	26,4	15	33	46
ALSFRS-r Bulbar (0 – 12)	8,9	2,8	31,1	2	9	12
ALSFRS-r Bulbar/Respiratória (0 – 24)	19,3	3,9	20,4	11	19	24

Legenda: ALSFRS-r - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale- revised*; CV - coeficiente de variação.

A figura 3 apresenta a distribuição dos valores individuais referente às pontuações obtidas na ALSFRS-r.

Figura 3 - Distribuição dos valores individuais para cada nível da avaliação de desempenho funcional.



Legenda: ALSFRS-r - Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale- revised; ● indivíduos com DNM; ▲ indivíduo que apresentou nível de funcionalidade ruim na bulbar e na bulbar-respiratória; □ indivíduo que apresentou nível de funcionalidade global ruim e nível funcionalidade bulbar e bulbar-respiratória bom .

A tabela 3 apresenta a frequência de penetração laríngea e/ou aspiração laringotraqueal por consistência de alimento.

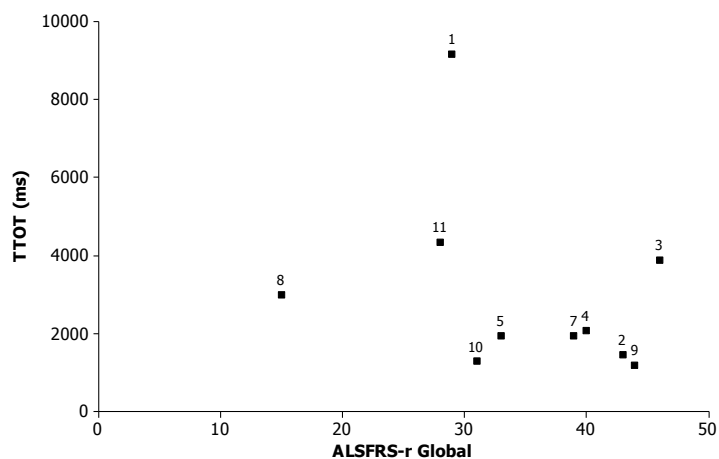
Tabela 3 - Frequência de penetração e/ou aspiração laringotraqueal por consistência de alimento.

Consistência	Presente	Ausente	Não Realizado
Pastosa (N=10)	1 (10,0%)	9 (90,0%)	1
Liq Espessada (N=9)	2 (22,2%)	7 (77,8%)	2
Liq Rala (N=8)	2 (25,0%)	6 (75,0%)	3

Legenda: N= número de indivíduos.

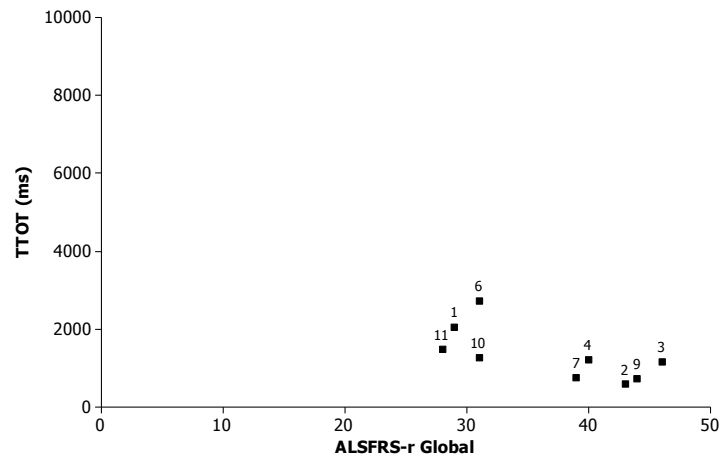
As Figuras 4 a 6 ilustram, respectivamente, a relação entre o TTOT com o desempenho funcional global na DNM por indivíduo e por consistência de alimento.

Figura 4 - Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Global** na DNM na **consistência pastosa** (N=10).



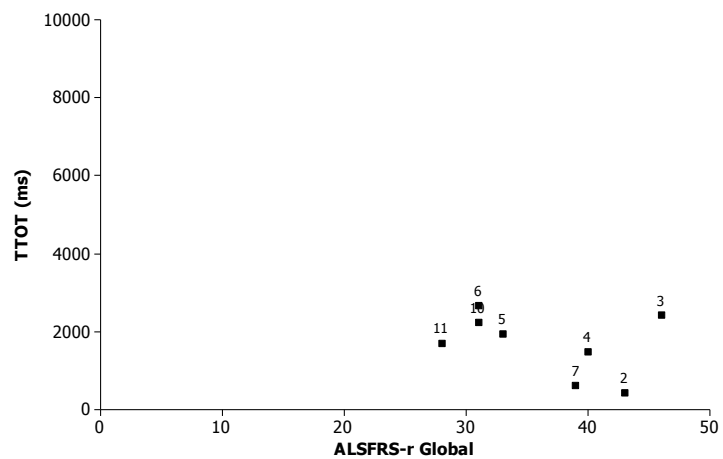
Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Global - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale-revised* – Parâmetro Global; Valor de $r = -0,315$; valor de $p = 0,375$.

Figura 5- Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Global** na DNM na **consistência líquida espessada** (N=9).



Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Global - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale-revised* – Parâmetro Global; Valor de $r = -0,691$; valor de $p = 0,039$

Figura 6 - Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Global** na DNM na **consistência líquida rala** (N=8).

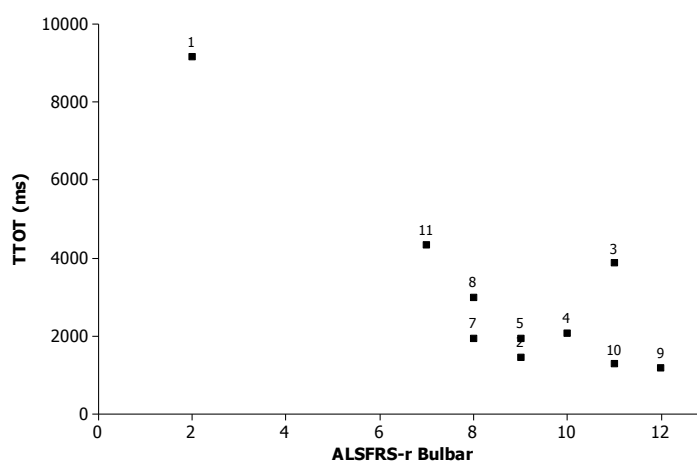


Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Global - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale-revised* – Parâmetro Global; Valor de $r = -0,379$; valor de $p = 0,354$

Os pontos nos diagramas das Figuras 4 a 6 são dispersos constatando-se tanto indivíduos com valores altos quanto baixos de TTOT para a mesma classificação de desempenho funcional. Observou-se relação significativa entre TTOT e desempenho funcional Global somente para a consistência Líquida Espessada ($r=-0,691$), como demonstrou a figura 5.

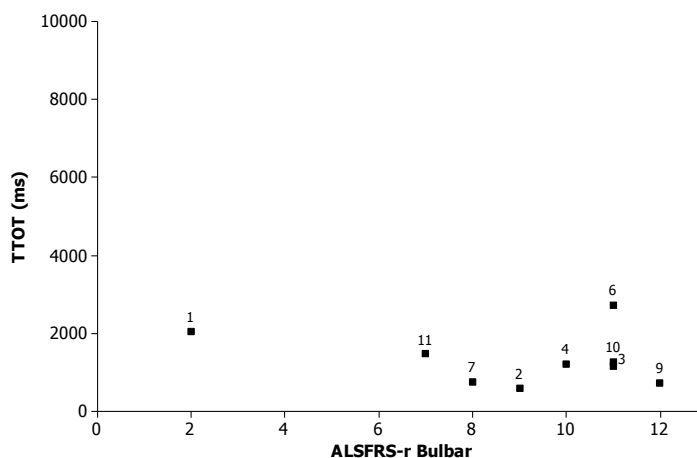
As Figuras 7 a 9 ilustram, respectivamente, a relação entre o TTOT com o desempenho funcional bulbar na DNM por indivíduo e por consistência de alimento.

Figura 7 - Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Bulbar** na DNM na **consistência pastosa** (N=10).



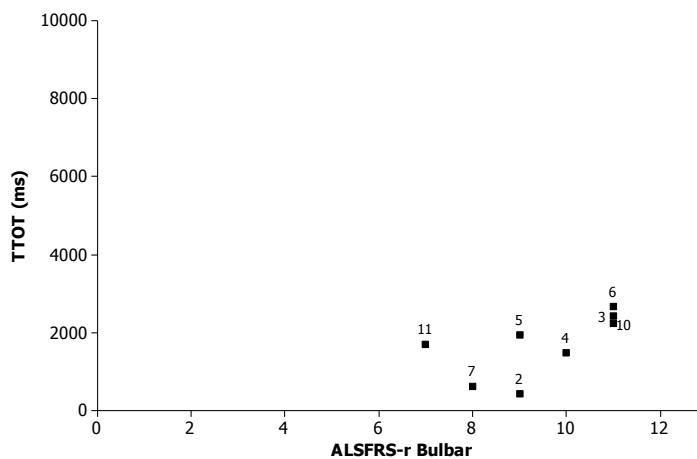
Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Bulbar - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale-revised* – Parâmetro Bulbar; Valor de $r = -0,859$; valor de $p = 0,001$

Figura 8 - Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Bulbar** na DNM na **consistência líquida espessada** (N=9).



Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Bulbar - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale-revised* – Parâmetro Bulbar; Valor de $r = -0,259$; valor de $p=0,501$

Figura 9 – Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Bulbar** na DNM na **consistência líquida rala** (N=8).



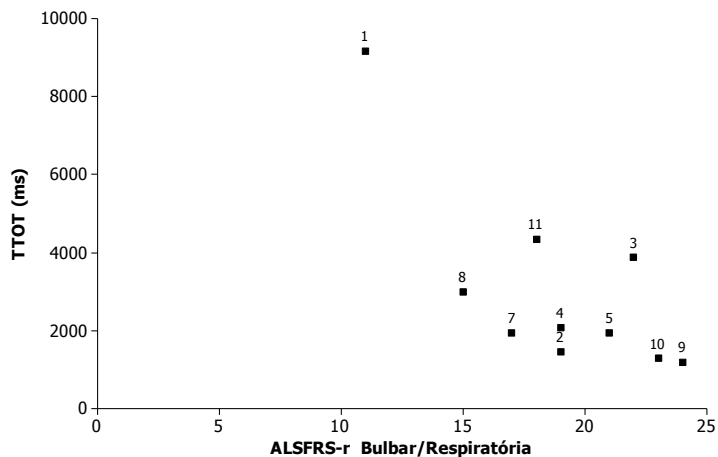
Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Bulbar- *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale-revised* – Parâmetro Bulbar; Valor de $r = -0,623$; valor de $p=0,099$

Nas figuras 7 a 9, observa-se na consistência pastosa que houve tendência linear na disposição dos pontos do diagrama com indicação de relação entre as duas variáveis, com evidências de associação negativa ($r=-0,859$). Houve relação entre o desempenho funcional

Bulbar e o TTOT na consistência pastosa. Indivíduos com melhor desempenho funcional bulbar apresentaram menor TTOT.

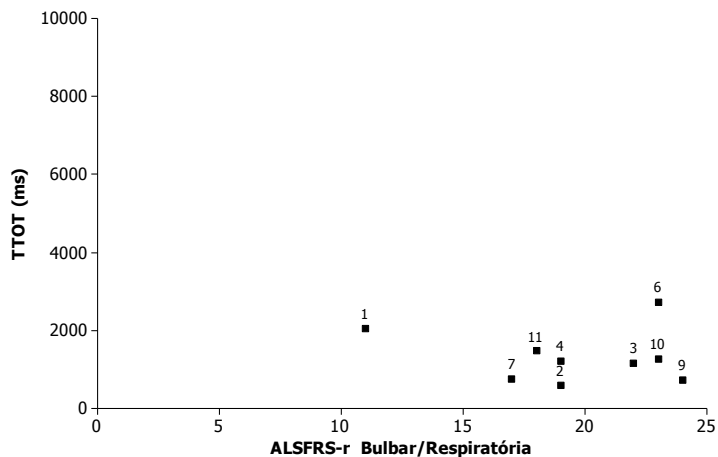
As Figuras 10 a 12 ilustram, respectivamente, a relação entre o TTOT com o desempenho funcional bulbar-respiratório na DNM por indivíduo e por consistência de alimento.

Figura 10- Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Bulbar-respiratório** na DNM na **consistência pastosa** (N=10).



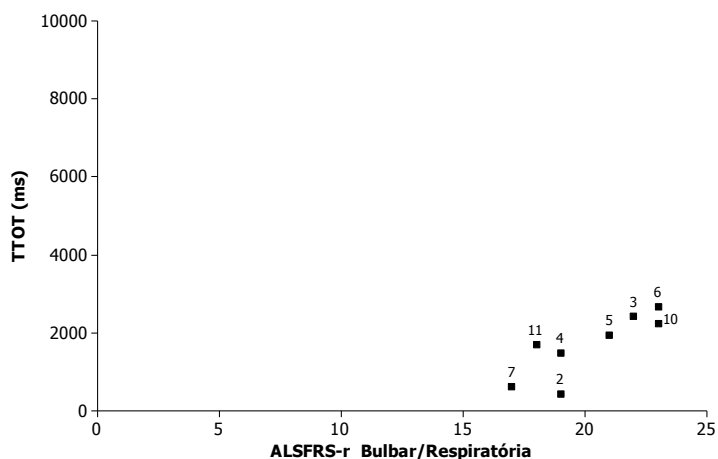
Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Bulbar-respiratório - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale- revised* – Parâmetro Bulbar – respiratório; Valor de $r = -0,750$; valor de $p=0,013$

Figura 11- Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Bulbar-respiratório** na DNM na **consistência líquida espessada** (N=9).



Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Bulbar-respiratório - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale- revised* – Parâmetro Bulbar – respiratório; Valor de $r = -0,135$; valor de $p=0,729$

Figura 12- Diagrama de dispersão de **TTOT** e do **desempenho funcional Bulbar-respiratório** na DNM na **consistência líquida rala** (N=8).



Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; ALSFRS-r Bulbar-respiratório - *Amyotrophic Lateral Sclerosis Functional Rating Scale- revised* – Parâmetro Bulbar – respiratório; Valor de $r = -0,829$; valor de $p=0,011$

Houve relação significativa entre o desempenho funcional Bulbar-Respiratório com o TTOT para a consistência pastosa ($p=0,013$) e líquida rala ($p=0,011$).

A tabela 4 apresenta a relação entre o TTOT (ms) e o nível de penetração laríngea e aspiração laringotraqueal (PAL) nos indivíduos com DNM.

Tabela 4- Descrição do TTOT e PAL nos indivíduos com DNM.

Indivíduo	Pastosa		Líquida Espessada		Líquida Rala	
	TTOT	PAL	TTOT	PAL	TTOT	PAL
1	9158	1	2057	4	-	-
2	1456	1	583	1	433	1
3	3870	1	1159	1	2413	1
4	2079	1	1222	2	1489	2
5	1943	3	-	-	1934	2
6	-	1	2728	1	2677	1
7	1940	1	767	1	633	1
8	2985	1	-	-	-	-
9	1195	1	733	1	-	-
10	1284	1	1262	1	2224	1
11	4337	1	1473	1	1701	1

Legenda: TTOT= tempo de trânsito oral total; PAL= penetração laríngea e aspiração laringotraqueal; 1= contraste não entra nas vias aéreas; 2= contraste entra até acima das pregas vocais, sem resíduo; 3= contraste permanece acima das pregas vocais, visível resíduo; 4=contraste atinge pregas vocais, sem resíduo.

Observa-se na consistência pastosa que o maior nível de PAL (3) não aconteceu nos indivíduos com maior TTOT, porém na consistência líquida espessada o maior nível de PAL (4) esteve presente em um dos indivíduos com maior TTOT.

6 Discussão

A análise quantitativa temporal da deglutição orofaríngea tem sido estudada com o objetivo de compreender as medidas de normalidade dos tempos dos eventos da deglutição, bem como analisar o impacto que a alteração desses tempos pode ocasionar nos indivíduos disfágicos. Para Power et al. (2009) a mensuração desses tempos é de grande importância para a avaliação da deglutição e pode auxiliar na identificação de fatores que levam à aspiração laringotraqueal. Por outro lado, poucos ainda são os estudos que relacionaram essa análise temporal com a patofisiologia da deglutição ou mesmo com outras variáveis pertinentes em cada doença de base na disfagia orofaríngea (BINGJIE et al., 2010; CHOI et al., 2011; ARGOLO et al., 2015).

No Brasil, os poucos estudos com análise quantitativa temporal da deglutição por meio de software específico concentraram-se na população com disfagia Pós-AVE (COLA et al., 2012; GATTO et al., 2013), na doença pulmonar obstrutiva crônica (CASSIANI et al., 2016) e, por meio de cronômetro, no indivíduo disfágico com paralisia cerebral (LUSTRE et al., 2013). Até o presente momento não foram encontrados na literatura nacional ou internacional estudos que descreveram a análise quantitativa temporal da fase oral da deglutição na DNM, por meio de *software*, tornando esse estudo pioneiro no que se refere à análise quantitativa temporal na população estudada.

O TTO é um dos parâmetros menos estudado na linha de pesquisa com análise quantitativa temporal, resultado esse apresentado em estudos recentes de revisão de literatura (MOLFENTER et al, 2012; SOARES et al., 2015). Essa conclusão sobre o estudo do TTO possui muitas considerações e, certamente, inclui a definição sobre início e término da fase oral da deglutição, considerando o componente voluntário presente exclusivamente nessa fase da deglutição. A definição de TTO mais aplicada nos estudos foi descrita inicialmente em 1983 e complementada em 1995 pela mesma autora (LOGEMANN, 1983; LOGEMANN et al., 1995). Para Logemann (1995) o TTO tem início a partir do movimento do bolo alimentar na boca até que a cabeça do bolo atinja o ponto em que a borda inferior da mandíbula cruza a base da língua. Além disso, a literatura mostra ampla variação no TTO na dependência da população estudada, consistência e volume do alimento (DANTAS et al., 1990; DANTAS et al., 2009; BINGJIE et al., 2010; KIM et al., 2014). No estudo aqui apresentado, por considerar

que o TTO deve incluir desde a colocação e acomodação do bolo alimentar na cavidade oral, optamos por mensurar o tempo de trânsito oral total (TTOT) conforme proposto por Gatto et al., 2013.

Essa primeira parte da discussão abordará separadamente a descrição do TTOT na DNM, uma vez que esse é um trabalho pioneiro no tema e população estudada. Conforme demonstrado na tabela 1 e figura 2, os indivíduos estudados apresentaram ampla variação do TTOT dentro da mesma consistência de alimento. Outros autores já descreveram essa variação nos tempos da deglutição entre as consistências de alimento em populações distintas (DANTAS et al., 1990; LOF e ROBINS, 1990; IM et al., 2012, COLA et al., 2012; LUSTRE et al., 2013; LEE et al., 2013; NAGY et al., 2016; ZHANG et al., 2016), porém há vários fatores presentes na DNM que colaboram com essa ampla variação do TTOT. Embora não tenha sido possível comparar nossos resultados com outros estudos que tivessem analisado a mesma população, observa-se que estudos com populações disfágicas distintas e que mensuraram TTO também mostraram essa ampla variação nesse parâmetro, sugerindo que além das consistências de alimento, a patofisiologia de cada doença pode interferir nos tempos da deglutição (DANTAS et al., 1990; LEE et al., 2013).

Esse amplo espectro de TTOT encontrado na DNM, com valores tanto dentro da normalidade quanto maiores às vezes em grande proporção, está possivelmente relacionado ao prejuízo que o comprometimento neuromotor de língua, palato mole, lábios, mandíbula e faringe ocasionam ao transporte do bolo alimentar, principalmente e desde o início a fase oral da deglutição, nos diferentes estágios dessa doença (KULNHEIN et al., 2009; KAWAI et al., 2003; HIGO et al., 2004).

Outro aspecto que discutiremos separadamente, e antecedendo a relação entre essas variáveis, é o desempenho funcional na DNM conforme apresentado na tabela 2 e na figura 3. Foi possível inicialmente constatar que os indivíduos com DNM desse estudo se concentraram em níveis de funcionalidade considerados bons. Do ponto de vista da funcionalidade global esses são indivíduos que ainda caminham ou foram recentemente para a cadeira de rodas, geralmente estão menos debilitados, não são dependentes de via alternativa de alimentação exclusiva e ainda não há necessidade de suporte ventilatório invasivo. A diferença entre o desempenho funcional na população com DNM foi apontada por Turner et al. (2010) que relataram que os indivíduos com DNM com sintomas de início bulbar

desenvolvem rápida disartria, disfagia e ainda permanecem ambulantes por um período prolongado, enquanto os de início espinal podem desenvolver fraqueza em membros superiores e inferiores e não apresentarem sintomas bulbares. Sendo assim, devemos levar em consideração que dependendo do tipo de início da doença, bulbar ou espinal, espera-se que os indivíduos com acometimento bulbar inicial sejam pontuados na ALSFRS-r/BR com nível de funcionalidade menor nos parâmetros bulbares e respiratórios, e sejam mais bem pontuados no parâmetro global. Ao observarmos a distribuição dos indivíduos dessa amostra nos diferentes níveis de desempenho funcional, observou-se maior variação na pontuação referente à funcionalidade global, o que mostra que o nível de desempenho motor funcional foi variável nesses indivíduos assim como o TTOT.

Nessa etapa da discussão será abordada a relação entre desempenho funcional e o TTOT em cada consistência de alimento conforme apresentado nas figuras de 4 a 12. A primeira análise trata da relação entre o desempenho global, o TTOT e as consistências de alimento estudadas (Figuras 4 a 6), constatando-se de forma estatística significativa que para a consistência líquida espessada quanto pior foi a funcionalidade global, maior foi o TTOT para esta consistência de alimento. Embora não seja possível discutir esse resultado frente a outros estudos com análise quantitativa temporal da fase oral da deglutição nessa mesma população, esse achado mostra que o impacto no TTOT na DNM possui relação com a piora do desempenho funcional e não somente em indivíduos com queixas bulbares (KAWAI et al., 2003; MURONO et al., 2014; TABOR et al., 2016). Além disso, esse resultado alerta para o fato de que a disfagia deve ser avaliada e acompanhada em indivíduos com DNM desde a fase inicial da doença, em que o indivíduo encontre-se ainda em bons níveis de funcionalidade (BRIANI et al., 2008; QUEIROZ et al., 2009) uma vez que o TTOT aumentado pode contribuir para aumentar o tempo total de alimentação e acabar por comprometer o aporte nutricional, além de impactar as demais ações biomecânicas da fase faríngea da deglutição.

Quanto ao desempenho funcional bulbar e a relação entre o TTOT para cada consistência de alimento (Figuras 7 a 9), observou-se que para a consistência pastosa houve relação estatística significativa, pois o TTOT foi maior conforme houve redução na pontuação da funcionalidade bulbar. Esse achado se justifica pelo fato de que para os indivíduos com DNM com comprometimento bulbar a disfagia orofaríngea é mais evidente devido a acometimentos dos NMI e do tronco cerebral (DESAI, 2000; TALBOT, 2002; CHIEIA, 2015). Além disso, a viscosidade do alimento já foi apontada na literatura como fator

determinante para influenciar o aumento nos valores de TTO (DANTAS et al, 1990; PARK et al., 2013; KIM et al., 2014; NASCIMENTO et al., 2015). Deve-se ainda considerar que em doenças neurodegenerativas onde a propulsão oral é afetada pela fraqueza muscular, quanto mais pastosa a consistência do alimento maior a necessidade de ejeção oral, o que na DNM está acentuadamente comprometida na forma bulbar.

Para finalizar a discussão sobre os níveis do desempenho funcional e o TTOT resta discutir a relação entre o parâmetro de desempenho funcional bulbar-respiratório e o TTOT de cada consistência avaliada conforme apresentado nas Figuras 10 a 12. Quanto maior foi o TTOT para a consistência pastosa e para consistência líquida rala menor foi funcionalidade bulbar-respiratória. Deve-se levar em consideração o fato de que indivíduos que pontuam em níveis menores de funcionalidade bulbar-respiratória (fala, salivação, deglutição, dispnéia, ortopnéia e insuficiência respiratória) são os mesmos que pontuam em níveis menores de funcionalidade apenas bulbar (fala, salivação, deglutição).

Assim, apesar de ampla variação tanto do TTOT para as distintas consistências de alimento quanto do desempenho funcional em seus diferentes parâmetros, esse estudo constatou relação entre o TTOT na consistência pastosa e líquida espessada com o desempenho funcional nos indivíduos com DNM. Isso sugere que na DNM é de fundamental relevância acompanhar a presença de aumento no TTOT e as orientações para ingestão de alimento pastoso quando o TTOT é aumentado pode impactar o tempo total de alimentação e o quadro nutricional.

O último tópico dessa discussão aborda o TTOT e a presença de penetração e ou aspiração laringotraqueal na DNM conforme descrito na tabela 4. Algumas outras pesquisas em distintas patologias já estudaram a relação entre o aumento nos tempos da deglutição orofaríngea e o risco de penetração laríngea e/ou aspiração laringotraqueal (BINGJIE et al., 2010; CHOI et al., 2011). No presente estudo, nenhum indivíduo apresentou aspiração laringotraqueal e a presença de penetração laríngea variou de 2 a 4 em consistências distintas, sendo essa classificação considerada inclusive por como de baixo risco. A baixa incidência de penetração e aspiração laringotraqueal na amostra estudada (Tabela 3) não nos permitiu relacionar essa variável qualitativa com o TTOT. Por outro lado, em três indivíduos na consistência pastosa, líquida espessada e líquida, o nível de penetração laríngea foi mais alto onde o TTOT também foi maior, sugerindo ser necessário estudar amostras maiores, mais

homogêneas e com maior nível de comprometimento na escala de penetração e aspiração laringotraqueal.

Com os resultados deste estudo constatamos que mesmo com uma pontuação da ALSFRS-r/BR considerada boa houve maior TTOT para parâmetros e consistências específicas de alimento conforme apontado por outros autores para os achados qualitativos da deglutição na DNM (KAWAI et al., 2003; HIGO et al., 2004, RUOPOLLO et al., 2013, MURONO et al., 2015). Sendo assim, sugere-se que todos os pacientes com diagnóstico de DNM, independente do seu desempenho funcional, sejam avaliados quanto à disfagia orofaríngea logo após o diagnóstico, visando monitorar o TTOT e seu impacto na alimentação, no aporte nutricional bem como na qualidade de vida.

7 Conclusão

Houve ampla variação do TTOT na mesma consistência de alimento na DNM e quanto maior o TTOT, independente da consistência do alimento, menor foi o desempenho funcional na DNM.

8 Referências Bibliográficas

- ARGOLO, Natalie et al. Videofluoroscopic Predictors of Penetration–Aspiration in Parkinson’s Disease Patients. **Dysphagia**, v. 30, n. 6, p. 751-758, 2015.
- AZEVEDO, L.A. Eletroneuromiografia nas Doenças Neuromusculares. In: OLIVEIRA, A. S. B. O.; ODA, A. L. Reabilitação nas doenças neuromusculares. Editora Atheneu, p. 27-40, São Paulo: 2015
- APPEL, V. et al. A rating scale for amyotrophic lateral sclerosis: description and preliminary experience. **Annals of neurology**, v. 22, n. 3, p. 328-333, 1987.
- BALENDRA, R. et al. Use of clinical staging in amyotrophic lateral sclerosis for phase 3 clinical trials. **Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry**, London, p. jnnp-2013-306865, 2014.
- BINGJIE, L. et al. Quantitative videofluoroscopic analysis of penetration-aspiration in post-stroke patients. **Neurology India**, Mumbai, v. 58, n. 1, p. 42, 2010.
- BRIANI, C. et al. Radiological evidence of subclinical dysphagia in motor neuron disease. **Journal of neurology**, v. 245, n. 4, p. 211-216, 1998.
- BROOKS, B. R. El Escorial World Federation of Neurology criteria for the diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. **Journal of the neurological sciences**, v. 124, p. 96-107, 1994.
- CHIEIA, M. A. T. Doenças do Neurônio Motor. In OLIVEIRA, Aracy Souza Bulle Oliveira; Oda, Adriana Leico. Reabilitação nas doenças neuromusculares. Editora Atheneu, p 49-77, São Paulo: 2015
- CHOI, Kyoung Hyo et al. Kinematic analysis of dysphagia: significant parameters of aspiration related to bolus viscosity. **Dysphagia**, v. 26, n. 4, p. 392-398, 2011.
- CASSIANI, R. A. et al. Oral and pharyngeal bolus transit in patients with chronic obstructive pulmonary disease. **International journal of chronic obstructive pulmonary disease**, v. 10, p. 489, 2015.
- CEDARBAUM, J. M. et al. The ALSFRS-R: a revised ALS functional rating scale that incorporates assessments of respiratory function. **Journal of the neurological sciences**, v. 169, n. 1, p. 13-21, 1999.
- CHANCELLOR, A. M. et al. Motor neuron disease: a disease of old age. **Scottish medical journal**, v. 38, n. 6, p. 178-182, 1993.
- CLAVÉ, P.; SHAKER, R. Dysphagia: current reality and scope of the problem. **Nature Reviews Gastroenterology & Hepatology**, v. 12, n. 5, p. 259-270, 2015.

COLA, P.C. et al. Taste and temperature in swallowing transit time after stroke. **Cerebrovascular diseases extra**, v. 2, n. 1, p. 45-51, 2012.

COSTA, M. M. B.; MORENO, M. P. R. Videomed. **Software sem registro de patente desenvolvido pelo Núcleo de Computação Eletrônica da Universidade Federal do Rio de Janeiro. Rio de Janeiro: NCE/UFRJ**, 2000.

DANTAS, R. O. et al. Effect of swallowed bolus variables on oral and pharyngeal phases of swallowing. **American Journal of Physiology-Gastrointestinal and Liver Physiology**, v.258, n.5, G675-G681, 1990.

DESAI, Michael Swash, Joy. Motor neuron disease: classification and nomenclature. **Amyotrophic Lateral Sclerosis and other motor neuron disorders**, v. 1, n. 2, p. 105-112, 2000.

DODDS, W. J. The physiology of swallowing. **Dysphagia**, New York, v. 3, n. 4, p. 171-178, 1989.

DODDS, W. J.; STEWART, E. T.; LOGEMANN, J. A. Physiology and radiology of the normal oral and pharyngeal phases of swallowing. **AJR. American Journal of Roentgenology**, Leesburg, v. 154, n. 5, p. 953-963, 1990.

ERDEM, N. S. et al. The interaction between breathing and swallowing in amyotrophic lateral sclerosis. **Acta Neurologica Belgica**, v. 116, n. 4, p. 549-556, 2016.

D'OTTAVIANO, F. G. et al. Fiberoptic endoscopy evaluation of swallowing in patients with amyotrophic lateral sclerosis. **Brazilian journal of otorhinolaryngology**, v. 79, n. 3, p. 349-353, 2013.

ERTEKIN, C. et al. Pathophysiological mechanisms of oropharyngeal dysphagia in amyotrophic lateral sclerosis. **Brain**, v. 123, n. 1, p. 125-140, 2000.

FATTORI, B. et al. Assessment of swallowing by oropharyngoesophageal scintigraphy in patients with amyotrophic lateral sclerosis. **Dysphagia**, v. 21, n. 4, p. 280-286, 2006.

FROWEN, J. J.; COTTON, S. M.; P., Alison R. The stability, reliability, and validity of videofluoroscopy measures for patients with head and neck cancer. **Dysphagia**, v. 23, n. 4, p. 348-363, 2008.

GATTO, A. R. et al. Sour taste and cold temperature in the oral phase of swallowing in patients after stroke. In: **CoDAS. Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, 2013. p. 163-167.

GOELEVELN, A. et al. Manofluorographic evaluation of swallowing in amyotrophic lateral sclerosis and its relationship with clinical evaluation of swallowing. **Amyotrophic Lateral Sclerosis**, v. 7, n. 4, p. 241-246, 2006.

GOYAL, N.A.; MOZAFFAR, T. Respiratory and nutritional support in amyotrophic lateral sclerosis. **Current treatment options in neurology**, v. 16, n. 2, p. 1-12, 2014.

- GUEDES, K. et al. Cross-cultural adaptation and validation of ALS Functional Rating Scale-Revised in Portuguese language. **Arquivos de neuro-psiquiatria**, v. 68, n. 1, p. 44-47, 2010.
- HAN, T. R.; PAIK, N.J.; PARK, J. W. Quantifying swallowing function after stroke: a functional dysphagia scale based on videofluoroscopic studies. **Archives of physical medicine and rehabilitation**, v. 82, n. 5, p. 677-682, 2001.
- HIGO, R.; TAYAMA, N.; NITO, T. Longitudinal analysis of progression of dysphagia in amyotrophic lateral sclerosis. **Auris Nasus Larynx**, v. 31, n. 3, p. 247-254, 2004.
- HILLEL, A. D. et al. Amyotrophic lateral sclerosis severity scale. **Neuroepidemiology**, v. 8, n. 3, p. 142-150, 1989.
- IM, I. et al. The effects of bolus consistency in pharyngeal transit duration during normal swallowing. **Annals of Rehabilitation Medicine**, Seoul, v. 36, n. 2, p. 220-225, 2012.
- KAWAI, S. et al. A study of the early stage of dysphagia in amyotrophic lateral sclerosis. **Dysphagia**, v. 18, n. 1, p. 1-8, 2003.
- KEAGE, M. et al. A systematic review of self-reported swallowing assessments in progressive neurological disorders. **Dysphagia**, v. 30, n. 1, p. 27-46, 2015.
- KIM, S. Y. et al. Differences in videofluoroscopic swallowing study (VFSS) findings according to the vascular territory involved in stroke. **Dysphagia**, v. 29, n. 4, p. 444-449, 2014.
- KOLLEWE, K. et al. ALSFRS-R score and its ratio: a useful predictor for ALS-progression. **Journal of the neurological sciences**, v. 275, n. 1, p. 69-73, 2008.
- KÜHNLEIN, P. et al. Diagnosis and treatment of bulbar symptoms in amyotrophic lateral sclerosis. **Nature Clinical Practice Neurology**, v. 4, n. 7, p. 366-374, 2008.
- LEE, S. I. et al. Changes of timing variables in swallowing of boluses with different viscosities in patients with dysphagia. **Archives of physical medicine and rehabilitation**, v. 94, n. 1, p. 120-126, 2013.
- LIN, L. I-K. A concordance correlation coefficient to evaluate reproducibility. **Biometrics**, v. 45, n. 1, p. 255-268, 1989.
- LOF, G. L.; ROBBINS, J. Test-retest variability in normal swallowing. **Dysphagia**, v. 4, n. 4, p. 236-242, 1990.
- LOGEMANN, J. A. **Evaluation and Treatment of Swallowing Disorders**. San Diego, CA: College-Hill; 1983

LOGEMANN, J. A. et al. Effects of a sour bolus on oropharyngeal swallowing measures in patients with neurogenic dysphagia. **Journal of Speech, Language, and Hearing Research**, v. 38, n. 3, p. 556-563, 1995.

LUSTRE, N. S.; FREIRE, T. R. B.; SILVÉRIO, C. C. Medidas de tempo de trânsito oral em crianças com paralisia cerebral de diferentes níveis motores e sua relação com o grau de severidade para disfagia. **Audiol., Commun. res**, São Paulo, v. 18, n. 3, p. 155-161, 2013.

MARTIN-HARRIS, B.; JONES, B. The Videofluorographic Swallowing Study. **Physical Medicine and Rehabilitation Clinics of North America**. Philadelphia, v.19, n.4, p. 769-785, 2008.

MCGUIRE, D. et al. Relationship of the Tufts Quantitative Neuromuscular Exam (TQNE) and the Sickness Impact Profile (SIP) in measuring progression of ALS. **Neurology**, v. 46, n. 5, p. 1442-1442, 1996.

MCCULLOUGH, G. H. et al. Inter-and intrajudge reliability for videofluoroscopic swallowing evaluation measures. **Dysphagia**, v. 16, n. 2, p. 110-118, 2001.

MOLFENTER, S. M.; STEELE, C. M. Temporal variability in the deglutition literature. **Dysphagia**, New York, v. 27, n. 2, p. 162-177, 2012.

MURONO, S. et al. Evaluation of dysphagia at the initial diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. **Auris Nasus Larynx**, Japan, v. 42, n. 3, p. 213-217, 2015.

NAGY, A. et al. The effect of bolus consistency on hyoid velocity in healthy swallowing. **Dysphagia**, New York, v. 30, n. 4, p. 445-451, 2015.

NASCIMENTO, W.V. et al. Effect of bolus volume and consistency on swallowing events duration in healthy subjects. **Journal of neurogastroenterology and motility**, v. 21, n. 1, p. 78, 2015.

NOH, E.J. et al. A case of amyotrophic lateral sclerosis presented as oropharyngeal Dysphagia. **J Neurogastroenterol Motil**, v. 16, n. 3, p. 319-322, 2010.

NORRIS, F. H. et al. Trial of baclofen in amyotrophic lateral sclerosis. **Archives of neurology**, v. 36, n. 11, p. 715-716, 1979.

ORSINI, M. et al. Medidas de avaliação na esclerose lateral amiotrófica. **Rev Neurociênc**, São Paulo, v. 16, n. 2, p. 144-51, 2008.

PARIS, G. et al. Clinical screening of oropharyngeal dysphagia in patients with ALS. **Annals of physical and rehabilitation medicine**, v. 55, n. 9, p. 601-608, 2012.

PARIS, G. et al. Oropharyngeal dysphagia in amyotrophic lateral sclerosis alters quality of life. **Journal of oral rehabilitation**, v. 40, n. 3, p. 199-204, 2013.

PARK, T.; KIM, Y.; MCCULLOUGH, G.. Oropharyngeal transition of the bolus in post-stroke patients. **American Journal of Physical Medicine & Rehabilitation**, v. 92, n. 4, p. 320-326, 2013.

PRINGLE, C. E. et al. Primary lateral sclerosis: clinical features, neuropathology and diagnostic criteria. **Brain**, v. 115, n. 2, p. 495-520, 1992.

PLOWMAN, E.K. et al. Voluntary Cough Airflow Differentiates Safe Versus Unsafe Swallowing in Amyotrophic Lateral Sclerosis. **Dysphagia**, New York, v. 31, n. 3, p. 383-390, 2016.

PONTES, R. T. et al. Alterações da fonação e deglutição na esclerose lateral amiotrófica: revisão de literatura. **Rev Neurociências**, São Paulo, v. 18, n. 1, p. 69-73, 2010.

POWER, M. L. et al. Predicting aspiration after hemispheric stroke from timing measures of oropharyngeal bolus flow and laryngeal closure. **Dysphagia**, v. 24, n. 3, p. 257-264, 2009.

PRELL, T. et al. Diffusion tensor imaging patterns differ in bulbar and limb onset amyotrophic lateral sclerosis. **Clinical neurology and neurosurgery**, v. 115, n. 8, p. 1281-1287, 2013.

QUEIROZ, M. A.S. et al. Findings of fiberoptic endoscopy of swallowing in adults with neurogenic oropharyngeal dysphagia. **Revista Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, São Paulo, v.14, n. 3, p.454-462. 2009.

RIVIERE, M. et al. An analysis of extended survival in patients with amyotrophic lateral sclerosis treated with riluzole. **Archives of Neurology**, v. 55, n. 4, p. 526-528, 1998.

ROBBINS, Joanne et al. Oropharyngeal swallowing in normal adults of different ages. **Gastroenterology**, v. 103, n. 3, p. 823-829, 1992.

ROSENBEK, J.C. et al. A penetration aspiration scale. **Dysphagia**. EUA , v. 11, 93-8. 1996.

ROWLAND, Lewis P. Diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. **Journal of the neurological sciences**, v. 160, p. S6-S24, 1998.

RUOPPOLO, G. et al. Dysphagia in amyotrophic lateral sclerosis: prevalence and clinical findings. **Acta Neurologica Scandinavica**, v. 128, n. 6, p. 397-401, 2013.

SANT'ANA, R.B. Valuation videofluoroscopic of swallowing in patients with amyotrophic lateral sclerosis. **Revista CEFAC – Speech, Language, Hearing Sciences and Education Journal**, São Paulo, v. 4, n.2, p.127-130, 2002.

SOARES, T. J. et al. Oral transit time: a critical review of the literature. **ABCD. Arquivos Brasileiros de Cirurgia Digestiva (São Paulo)**, v. 28, n. 2, p. 144-147, 2015.

SONIES, B. C. et al. Durational aspects of the oral-pharyngeal phase of swallow in normal adults. **Dysphagia**, v. 3, n. 1, p. 1-10, 1988.

SPADOTTO, A.A. et al. Software para análise quantitativa da deglutição. **Radiol Bras**, v. 41, n. 1, p. 25-8, 2008.

STAMBLER, N. The amyotrophic lateral sclerosis functional rating scale. Assessment of activities of daily living in patients with amyotrophic lateral sclerosis. **Arch Neurol**, v. 53, p. 141-7, 1996.

STRAND, E. A. et al. Management of oral-pharyngeal dysphagia symptoms in amyotrophic lateral sclerosis. **Dysphagia**, v. 11, n. 2, p. 129-139, 1996.

TABOR, L. et al. Defining swallowing-related quality of life profiles in individuals with amyotrophic lateral sclerosis. **Dysphagia**, v. 31, n. 3, p. 376-382, 2016.

TALBOT, K. Motor neurone disease. **Postgraduate medical journal**, v. 78, n. 923, p. 513-519, 2002.

TURNER, Martin R. et al. The diagnostic pathway and prognosis in bulbar-onset amyotrophic lateral sclerosis. **Journal of the neurological sciences**, v. 294, n. 1, p. 81-85, 2010.

WADA, A. et al. Development of a new scale for dysphagia in patients with progressive neuromuscular diseases: the Neuromuscular Disease Swallowing Status Scale (NdSSS). **Journal of neurology**, v. 262, n. 10, p. 2225-2231, 2015.

WECKMUELLER, J.; EASTERLING, C.; ARVEDSON, J. Preliminary temporal measurement analysis of normal oropharyngeal swallowing in infants and young children. **Dysphagia**, New York v. 26, n. 2, p. 135-143, 2011.

YOSHIKAWA, M. et al. Aspects of swallowing in healthy dentate elderly persons older than 80 years. **The Journals of Gerontology Series A: Biological Sciences and Medical Sciences**, v. 60, n. 4, p. 506-509, 2005.

ZHANG, J. et al. Laryngeal Elevation Velocity and Aspiration in Acute Ischemic Stroke Patients. **PloS one**, v. 11, n. 9, p. e0162257, 2016.

APÊNDICE A

Parecer - comitê de ética



Comitê de Ética em
Pesquisa em Seres Humanos
CEP/FAMERP

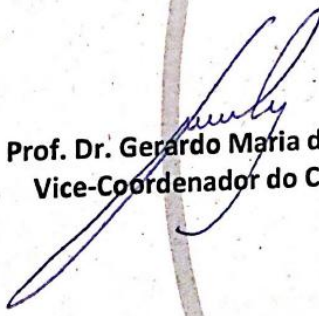
Parecer nº 1.619.385

COMITÊ DE ÉTICA EM PESQUISA

O projeto de pesquisa CAAE 53663516.0.3001.5415 sob a responsabilidade de Bárbara Carolina Brandão com o título "Relação entre Desempenho Motor Global e Disfagia Orofaríngea na Esclerose Lateral Amiotrófica" está de acordo com a resolução do CNS 466/12 e foi **aprovado por esse CEP.**

Lembramos ao senhor(a) pesquisador(a) que, no cumprimento da Resolução 251/97, o Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos (CEP) **deverá receber relatórios semestrais sobre o andamento do Estudo, bem como a qualquer tempo e a critério do pesquisador nos casos de relevância, além do envio dos relatos de eventos adversos e também da notificação da data de inclusão do primeiro participante de pesquisa, para conhecimento deste Comitê. Salientamos ainda, a necessidade de relatório completo ao final do Estudo.**

São José do Rio Preto, 04 de julho de 2016.


Prof. Dr. Gerardo Maria de Araujo Filho
Vice-Coordenador do CEP/FAMERP

Apêndice B

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

(Obrigatório para as pesquisas Científicas em Seres Humanos– Resolução nº 196/96 – CNS)

Dados de identificação do paciente:

Nome:
Sexo: () F () M Data de Nascimento:/...../.....
Endereço:.....Bairro.....
Cidade:..... Telefone: ().....

Estamos realizando uma pesquisa intitulada “**Relação entre Desempenho Motor Global e Disfagia Orofaríngea na Esclerose Lateral Amiotrófica**” e gostaríamos que participasse da mesma. O objetivo dessa pesquisa é a avaliação do ato de engolir dos pacientes que apresentam o diagnóstico de Doença do Neurônio Motor, a fim de observar os quais as dificuldades durante o processo de engolir, os riscos e necessidades de adaptações alimentares para estes pacientes.

Participar desta pesquisa é uma opção e no caso de não aceitar participar ou desistir em qualquer fase da pesquisa fica assegurado que não haverá qualquer tipo de prejuízo. Caso aceite participar deste projeto de pesquisa gostaríamos que soubesse que:

- Será realizado um levantamento de dados no prontuário do paciente, para identificar o momento do diagnóstico e o acometimento da doença.
- Os pacientes serão submetidos a uma avaliação videofluoroscópica da deglutição e serão classificados com uma escala funcional da doença.
- Os dados obtidos nos procedimentos acima serão analisados para posterior divulgação nos meios científicos, como publicação em revista, divulgação em congressos. Ressaltamos que a sua identidade será preservada.

Colocamo-nos à disposição para esclarecimento de dúvidas e outras informações que se fizerem imprescindíveis.

Pesquisadora: Bárbara Carolina Brandão

Inscrição no Conselho Regional de Fonoaudiologia (CRFa 2): nº 17514

Cargo/Função: Fonoaudióloga responsável pelo Serviço de Neurologia e Serviço de Cuidados Paliativos do Hospital de Base de São José do Rio Preto

Instituição: FUNFARME/FAMERP

Endereço: Avenida Brigadeiro Faria Lima, 5416 – Bairro São Pedro – Cep:150900-000

Telefones: (17) 3201-5000 Ramal 1205; Celular (17)991578052

✕

Eu, _____ portador do RG _____, aceito participar da pesquisa intitulada “**Relação entre Desempenho Motor Global e Disfagia Orofaríngea na Esclerose Lateral Amiotrófica**” Declaro ter recebido as devidas explicações sobre a referida pesquisa e concordo que minha desistência poderá ocorrer em qualquer momento sem que ocorram quaisquer prejuízos a minha pessoa. Declaro ainda estar ciente de que a participação é voluntária e que fui devidamente esclarecido, quanto aos objetivos e procedimentos desta pesquisa. Autorizo,

São José do Rio Preto,..... de de 2016.

Assinatura do participante

ANEXO 1

The ALS Functional Rating Scale - Revised (ALSFRS-R/BR)

Fala	
Processo da fala normal	4
Distúrbio da fala detectável	3
Compreensível com repetição	2
Fala combinada com comunicação não-vocal	1
Perda da utilidade da fala	0
Salivação	
Normal	4
Insignificante, mas notável o excesso de saliva na boca podendo ter babas Noturnas	3
Excesso de saliva moderada, podendo ter mínimas babas	2
Excesso acentuado de saliva com alguma baba	1
Baba acentuada exigindo constante uso de babador ou lenço para boca	0
Deglutição	
Normal	4
Problemas precoces para comer, engasgos ocasionais	3
Alteração na consistência da dieta	2
Necessidade de suplemento alimentar pastoso	1
Nada pela boca, exclusivamente parenteral ou enteral	0
Escrita	
Normal	4
Lentificada ou descuidada, todas as palavras são legíveis	3
Nem todas as palavras são legíveis	2
Capaz de segurar a caneta, mas incapaz de escrever	1
Não é capaz de segurar a caneta	0
Manipulação de alimentos e utensílios	
(Indivíduos sem gastrostomia)	
Normal	4
Um pouco lento e desajeitado, mas não necessita de ajuda	3
Pode cortar o alimento embora lento e desajeitado; necessita de alguma ajuda	2
Alimentos cortados por outra pessoa, mas alimenta-se sozinho lentamente	1
Precisa ser alimentado	0
(Indivíduos com gastrostomia)	
Normal	4
Desajeitado, mas capaz de desempenhar todas as manipulações	3
Alguma ajuda necessária com tampas e fechos	2
Oferece assistência mínima ao cuidador	1
Incapaz de executar qualquer aspecto da tarefa	0

Vestuário e Higiene

Normal	4
Independente de auto-cuidado com diminuição do rendimento do esforço	3
Assistência intermitente ou substituição dos métodos	2
Necessita do cuidador para auto-cuidado	1
Dependência total	0

Virar na cama e ajustar a roupa de cama

Normal	4
Um pouco lento ou desajeitado, não necessita de ajuda	3
Pode virar sozinho ou ajustar o lençol com grande dificuldade	2
Tem iniciativa, não consegue virar ou ajustar o lençol sozinho	1
Incapaz	0

Andar

Normal	4
Deambulação precoce dificultada	3
Passeios com assistência	2
Movimento funcional não-deambulatório somente	1
Não apresenta movimentação voluntária das pernas	0

Subir escadas

Normal	4
Lentidão	3
Ligeiro desequilíbrio ou fadiga	2
Necessita de assistência	1
Não realize	0

Dispnéia

Nenhuma	4
Ocorre quando caminha	3
Ocorre quando come, toma banho e se veste	2
Ocorre no repouso, ou sentado ou deitado	1
Dificuldade significativa, considerando suporte mecânico	0

Ortopnéia

Nenhuma	4
Alguma dificuldade de dormir, falta de ar, não se utiliza rotineiramente mais que 2 Travesseiros	3
Necessita de travesseiros extras para dormir (mais que 2)	2
Pode dormir somente sentado	1
Não consegue dormir	0

Insuficiência respiratória

Nenhuma	4
Uso intermitente do BIPAP	3
Uso contínuo do BIPAP à noite	2
Uso contínuo do BIPAP durante o dia e a noite	1
Ventilação mecânica invasiva por intubação	0