



UNIVERSIDADE ESTADUAL PAULISTA
“JÚLIO DE MESQUITA FILHO”
FACULDADE DE MEDICINA

DANIELLE BARRETO E SILVA

**CARACTERIZAÇÃO MIOFUNCIONAL OROFACIAL E
PERFIL POLISSONOGRÁFICO DE CRIANÇAS COM
SÍNDROME DE DOWN**

Tese apresentada à Faculdade de Medicina,
Universidade Estadual Paulista “Júlio de
Mesquita Filho”, Câmpus de Botucatu, para
obtenção do título de Doutor(a) em Cirurgia e
Medicina Translacional

BOTUCATU

2025

DANIELLE BARRETO E SILVA

**CARACTERIZAÇÃO MIOFUNCIONAL OROFACIAL E PERFIL POLISSONOGRÁFICO
DE CRIANÇAS COM SÍNDROME DE DOWN**

Tese apresentada à Faculdade de Medicina,
Universidade Estadual Paulista “Júlio de Mesquita
Filho”, Câmpus de Botucatu, para obtenção do título
de Doutor(a) em Cirurgia e Medicina Translacional

Orientador (a): Dr^a Silke Anna Theresa Weber

Coorientador(a): Dra. Camila de Castro Corrêa

BOTUCATU

2025

FICHA CATALOGRÁFICA

S586c

Silva, Danielle Barreto e

Caracterização miofuncional orofacial e perfil polissonográfico de crianças com síndrome de Down / Danielle Barreto e Silva. -- Botucatu, 2025

76 p.

Tese (doutorado) - Universidade Estadual Paulista (UNESP), Faculdade de Medicina, Botucatu

1. Apneia obstrutiva do sono. 2. Síndrome de Down. 3. Distúrbios do sono em criança. 4. Fonoaudiologia. 5. Sistema estomatognático. I. Título.

Sistema de geração automática de fichas catalográficas da Unesp. Dados fornecidos pelo autor(a).

IMPACTO POTENCIAL DESTA PESQUISA

A tese “Caracterização miofuncional orofacial e perfil polissonográfico de crianças com Síndrome de Down”, estudo prospectivo observacional, buscou investigar as estruturas e funções orofaríngeas de uma população pediátrica com SD como fator preditivo da apneia obstrutiva do sono (AOS), por meio de um protocolo de triagem miofuncional orofacial, o Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol. Nesse estudo foi avaliada a acurácia do ShOM na identificação de risco para AOS moderada e grave, aplicado de forma isolada e combinado aos questionários de investigação do sono PSQ e OSA-18.

O restrito acesso ao exame padronizado para diagnóstico da AOS na criança, polissonografia tipo I, é um fator discutido mundialmente, tendo em vista ser um exame de alto custo que requer tempo, laboratórios com equipamentos específicos e profissionais capacitados para sua realização, além da colaboração do paciente e familiares que acompanham o exame. Tais dificuldades corroboram com um importante prejuízo no diagnóstico precoce e no tratamento individualizado da AOS na criança com SD, contribuindo assim para a justaposição de comorbidades com impacto no desenvolvimento infantil.

Instrumentos de rastreio para a identificação de marcadores clínicos preditivos da AOS na SD tem sido alvo de alguns estudos, porém com resultados controversos e/ou insuficientes na comunidade científica. No entanto, até o momento, este estudo foi o primeiro a avaliar as características anatômicas e funções orofaciais, por meio de um teste rápido e de menor complexidade para aplicação na prática clínica do fonoaudiólogo, o ShOM, com evidências de acurácia na identificação de risco para AOS moderada e grave na criança com SD.

Assim, o resultado deste trabalho evidencia um impacto científico, pela originalidade, incrementando os paradigmas no conhecimento e técnicas na área pediátrica dos distúrbios respiratórios do sono. O benefício social também poderá ser delineado, uma vez que a implementação do ShOM na rotina de investigação do sono auxilia no diagnóstico em tempo para AOS em crianças com SD, de maneira a minimizar os efeitos do distúrbio no desenvolvimento físico, cognitivo e comportamental com melhor qualidade de vida para a criança e familiares.

POTENTIAL SOCIAL IMPACT

The thesis “Orofacial myofunctional characterization and polysomnographic profile of children with Down syndrome”, a prospective observational study, sought to investigate the oropharyngeal structures and functions of a pediatric population with DS as a predictive factor for obstructive sleep apnea (OSA), using an orofacial myofunctional screening protocol, the Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol. This study evaluated the accuracy of the ShOM in identifying the risk of moderate and severe OSA, applied alone and combined with the PSQ and OSA-18 sleep investigation questionnaires.

Restricted access to the standardized test for diagnosing obstructive sleep apnea (OSA) in children, type I polysomnography, is a factor discussed worldwide, given that it is a high-cost test that requires time, laboratories with specific equipment and trained professionals to carry out, as well as the cooperation of the patient and family members who accompany the test. These difficulties corroborate an important loss in the early diagnosis and individualized treatment of OSA in children with DS, thus contributing to the juxtaposition of comorbidities with an impact on child development.

Screening tools to identify anatomical markers predictive of OSA in DS have been the subject of several studies but with controversial and/or insufficient results in the scientific community. However, to date, this study has been the first to evaluate anatomical characteristics and orofacial functions using a rapid and less complex test for application in the clinical practice of speech therapists, the ShOM, with evidence of accuracy in identifying the risk of moderate and severe OSA in children with DS.

Thus, the result of this work shows a scientific impact, due to its originality, increasing the paradigms in knowledge and techniques in the pediatric area of sleep-disordered breathing. The social benefit can also be delineated since the implementation of ShOM in the sleep investigation routine helps in the timely diagnosis of OSA in children with DS to minimize the effects of the disorder on physical, cognitive and behavioral development with a better quality of life for the child and family.

ATA DA DEFESA PÚBLICA DA TESE DE DOUTORADO DE DANIELLE BARRETO E SILVA, DISCENTE DO PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM CIRURGIA E MEDICINA TRANSLACIONAL, DA FACULDADE DE MEDICINA.

Aos 05 dias do mês de maio do ano de 2025, às 9h, por meio de Videoconferência, realizou-se a defesa de TESE DE DOUTORADO de DANIELLE BARRETO E SILVA, intitulada **CARACTERIZAÇÃO MIOFUNCIONAL OROFACIAL E PERFIL POLISSONOGRÁFICO DE CRIANÇAS COM SÍNDROME DE DOWN**. A Comissão Examinadora foi constituída pelos seguintes membros: Profa. Dra. SILKE ANNA THERESA WEBER (Orientador(a) - Participação Virtual) do(a) Depto. de Especialidades Cirúrgicas e Anestesiologia / FM/Botucatu - Unesp, Profa. Dra. VANESSA IETO (Participação Virtual) do(a) Núcleo Interdisciplinar das Ciências do Sono, Prof. Dr. ANDRE PINHEIRO DE MAGALHAES BERTOZ (Participação Virtual) do(a) Depto. de Odontologia Preventiva e Restauradora / FO/Araçatuba - Unesp. Após a exposição pela doutoranda e arguição pelos membros da Comissão Examinadora que participaram do ato, de forma presencial e/ou virtual, a discente recebeu o conceito final: Aprovada. Nada mais havendo, foi lavrada a presente ata, que após lida e aprovada, foi assinada pelo(a) Presidente(a) da Comissão Examinadora

Profa. Dra. SILKE ANNA THERESA WEBER



Assinado de forma
digital por Silke
Anna Theresa Weber
Dados: 2025.05.06
10:05:24 -03'00'

AGRADECIMENTOS

À Deus por me capacitar e me guiar por seus caminhos.

À minha família, em especial meu filho, pela compreensão e paciência nos momentos da minha ausência.

Aos meus orientadores e professores pela oportunidade, incentivo e aprendizado durante toda a trajetória.

RESUMO

A Síndrome de Down (SD) é uma condição genética com alta prevalência e incidência estimada entre 1 a cada 800 nascidos. Há uma grande variedade de fenótipos que influenciam no grau de comprometimento de múltiplos sistemas com impacto na saúde física, cognitiva e comportamental. As características craniofaciais, o padrão muscular hipotônico, hipotireoidismo e tendência à obesidade são fatores de risco importantes para o desenvolvimento da apneia obstrutiva do sono (AOS) em indivíduos com SD. A coexistência de AOS e SD aumenta o risco de doenças cardiovasculares, metabólicas, déficits cognitivos e comportamentais, enfatizando, assim, a importância do diagnóstico precoce e assertividade no tratamento. No entanto, a AOS ainda é subdiagnosticada, especialmente em crianças com SD, em razão do alto custo e dificuldade do acesso à polissonografia (PSG), exame padrão para diagnóstico de distúrbios do sono. **Objetivo:** Investigar as estruturas e funções orofaciais de uma população pediátrica com SD como fator preditivo da AOS e correlacionar com resultados obtidos por meio de instrumentos de investigação do sono e dados polissonográficos, assim como validar o protocolo de triagem fonoaudiológica - ShOM em crianças com SD. **Metodologia:** 39 crianças com SD, entre 2 e 15 anos, foram submetidas à avaliação médica e fonoaudiológica. Foram realizados exames de Polissonografia (PSG) tipo III e aplicados os questionários PSQ e OSA-18 nos pais-responsáveis. A avaliação miofuncional orofacial, por meio do protocolo ShOM e AMIOFE-E, foi realizada por 2 fonoaudiólogas, separadamente e sem conhecimento dos demais resultados. Foi realizada análise de concordância interjuízes por meio do teste Kappa e Cálculo do Coeficiente de Correlação Intraclass. Todos os dados foram analisados e comparados com os resultados da PSG. Também foram determinadas a sensibilidade, especificidade, valor preditivo positivo (VPP), valor preditivo negativo (VPN), acurácia e curva ROC de cada protocolo para identificação de AOS moderada e grave de forma isolada e combinada com o ShOM. **Resultados:** Na Etapa 1, a amostra inicial foi composta de 39 crianças, 16 meninos e 23 meninas, com idades entre 2 e 15 anos, mediana de 7 e quartis (Q25-Q75:4-10) anos. Foi identificada obesidade em 16 crianças (41%); sobrepeso em 5 (12,8%) e peso saudável em 15 crianças (38%). 2 crianças foram excluídas com dados incompletos. 33 crianças completaram a PSG, 12 foram diagnosticadas com apneia grave, 9 com apneia moderada, 11 com apneia leve e 1 estava dentro da normalidade. 35 crianças completaram os questionários do sono, com pontuação mediana e quartis de 9 (Q25-Q75:6-11) no PSQ e 60 (Q25-Q75: 43- 81,5) no OSA-18. Na análise de correlação entre os questionários e as variáveis polissonográficas, foi identificada significância estatística entre a pontuação total do PSQ e Apneias Obstrutivas (AO) ($p=0,04$) e entre o OSA-18, domínio distúrbio do início e manutenção do sono e AO ($p=0,016$). Na Etapa 2, 16 crianças foram submetidas ao protocolo ShOM, sendo avaliadas por 2 fonoaudiólogas separadamente. O resultado demonstrou forte confiabilidade qualitativa e quantitativa interjuízes, sugerindo aplicabilidade do ShOM em crianças com SD. Na Etapa 3, foram analisados os resultados das 20 crianças com SD com PSG tipo III e que completaram os questionários do sono e avaliação fonoaudiológica. A amostra foi composta por 7 crianças do gênero masculino e 13 feminino, com mediana para idade de 10 anos (Q25-Q75:7-11). 7 (35%) crianças tinham peso saudável, 5 (20%) sobrepeso, e 8 (40%) das crianças tinham obesidade. Em relação aos dados polissonográficos, 1 criança apresentou IAH dentro da normalidade, 3 diagnóstico de AOS leve, 7 AOS moderada e 9 AOS grave. A pontuação mediana do PSQ foi 9 (Q25-Q75: 6,75-11) e do OSA-18 foi 63,5 (Q25-Q75: 43,3-88,8). De acordo com o PSQ, 11 crianças apresentaram alto risco para AOS e segundo o OSA-18, 12 crianças foram identificadas com moderado a grande impacto na qualidade de vida. Após o teste de coeficiente de correlação de *Spearman*, foi verificada correlação

entre o ShOM e IAH ($p=0,007$), entre o ShOM e AO ($p=0,14$), entre o ShOM e AM ($p=0,017$). Também foi verificada correlação entre a pontuação no teste de Mastigação (AMIOFE-E) e hipopneias ($p=0,045$), teste de mastigação e SpO2 mínima, SpO2 média e SpO2<90% (respectivamente $p=0,02$, $p=0,001$, $p=0,02$). A pontuação do teste de deglutição (AMIOFE-E) apresentou correlação com número de hipopneias ($p=0,02$). Após determinação da sensibilidade, especificidade, VPP, VPN, acurácia e curva ROC de cada protocolo, o ShOM demonstrou superioridade na identificação de risco para AOS moderada e grave, assim como a associação do ShOM e PSQ aumentou a acurácia do diagnóstico de AOS moderada e grave. **Conclusão:** Toda amostra apresentou alterações nas estruturas e nas funções orofaciais. Escores mais elevados no ShOM se correlacionaram com maior gravidade da AOS. O nível de concordância interjuízes indicou forte confiabilidade nos testes qualitativos e quantitativos de presença ou ausência de alteração, comprovando a exequibilidade da aplicação do ShOM na população pediátrica com SD. Por fim, a associação da avaliação miofuncional orofacial na clínica multidisciplinar do sono pode aumentar a acurácia no diagnóstico de AOS moderada e grave.

Descritores: Apneia do sono; Criança; Síndrome de Down; Questionário, Polissonografia, Fonoaudiologia, Terapia miofuncional.

ABSTRACT

Down syndrome (DS) is a genetic disorder with a high prevalence and an estimated incidence of 1 in 800 births. There are a variety of phenotypes that affect the degree of impairment of multiple systems and impact physical, cognitive and behavioral health. Craniofacial features, a hypotonic muscle pattern, hypothyroidism and a tendency towards obesity are important risk factors for the development of obstructive sleep apnea (OSA) in people with DS. The coexistence of OSA and DS increases the risk of cardiovascular and metabolic disease as well as cognitive and behavioral deficits, underscoring the importance of early diagnosis and thorough treatment. However, OSA is still underdiagnosed, particularly in children with DS, due to the excessive cost and difficulty of accessing polysomnography (PSG), the standard test for diagnosing sleep disorders. Objective: To investigate the orofacial structures and functions of a pediatric population with DS as a predictive factor for OSA and correlate with the results obtained with sleep screening instruments and polysomnographic data, and to validate the ShOM screening protocol for speech and hearing in children with DS and OSA. Methods: 39 children with DS aged between 2 and 15 years were examined by a physician and a speech therapist. Type III polysomnography (PSG) tests were performed and the PSQ and OSA-18 questionnaires were administered to parents and guardians. The orofacial myofunctional assessment using the ShOM and AMIOFE-E protocols was performed by two speech therapists, separately and without knowledge of the other results. Inter-rater agreement was analyzed using the kappa test and the intraclass correlation coefficient. All data were analyzed and compared with the PSG results. In addition, the sensitivity, specificity, positive predictive value (PPV), negative predictive value (NPV), accuracy and ROC curve of each protocol for the detection of moderate and severe OSA were determined in isolation and in combination. Results: In phase 1, the original sample consisted of 39 children, 16 boys and 23 girls, aged between 2 and 15 years, median age 7 (Q25-Q75: 4-10) years. Obesity was found in 16 children (41%), overweight in 5 (12.8%) and healthy weight in 15 children (38%). 2 children were excluded due to incomplete data. 33 children completed PSG, 12 were diagnosed with severe apnea, 9 with moderate apnea, 11 with mild apnea and 1 was in the normal range. 35 children completed the sleep questionnaires, with median and quartile scores of 9 (Q25-Q75: 6-11) on the PSQ and 60 (Q25-Q75: 43-81.5) on the OSA-18. In the correlation analysis between the questionnaires and the polysomnographic variables, statistical significance was found between the PSQ total score and obstructive apnea (OA) ($p=0.04$) and between the OSA-18, sleep onset and maintenance disorder domain and OA ($p=0.016$). In phase 2, of the group of 20 children with DS who underwent the ShOM protocol, 16 were assessed separately by 2 speech therapists. The result showed strong qualitative and quantitative inter-rater reliability, indicating the applicability of ShOM in children with DS. In phase 3, the results of 20 children with DS with PSG type III who completed the sleep and language assessment questionnaires were analyzed. The sample consisted of 7 male and 13 female children, with a mean age of 10 years (Q25-Q75: 7-11). 7 (35%) of the children had a healthy weight, 5 (20%) were overweight and 8 (40%) were obese. Regarding the polysomnographic data, 1 child had a normal AHI, 3 were diagnosed with mild OSA, 7 with moderate OSA and 9 with severe OSA. The median PSQ score was 9 (Q25-Q75: 6.75-11) and the OSA-18 score was 63.5 (Q25-Q75: 43.3-88.8). According to the PSQ, 11 children had a high risk of OSA and according to OSA-18, 12 children were found to have moderate to severe impairment of quality of life. According to the Spearman correlation coefficient test, a correlation was found between ShOM

and AHI ($p=0.007$), between ShOM and OA ($p=0.14$), between ShOM and AM ($p=0.017$). There was also a correlation between the result of the chewing test (AMIOFE-E) and hypopnea ($p=0.045$), the chewing test and minimum SpO₂, average SpO₂ and SpO₂<90% (respectively $p=0.02$, $p=0.001$, $p=0.02$). The result of the swallowing test (AMIOFE-E) correlated with the number of hypopneas ($p=0.02$). After determining the sensitivity, specificity, PPV, NPV, accuracy and ROC curve of each protocol, it was found that ShOM was superior in identifying the risk of moderate and severe OSA, and the combination of ShOM and PSQ increased the accuracy of the diagnosis of moderate and severe OSA. Conclusion: The entire sample showed changes in orofacial structures and functions. Higher ShOM scores correlated with higher OSA severity. The degree of inter-rater agreement indicates high reliability of the qualitative and quantitative tests for the presence or absence of change, demonstrating the feasibility of using the ShOM in the pediatric population with DS. Finally, the inclusion of orofacial myofunctional assessment in the multidisciplinary sleep clinic may increase the accuracy of diagnosis of moderate and severe OSA

Keywords: *Sleep Apnea, Obstructive, Child, Down Syndrome, Polysomnography, Speech, Language and Hearing Sciences Stomatognathic System*

SUMÁRIO

LISTA DE TABELAS E GRÁFICOS

1 INTRODUÇÃO	14
2. HIPÓTESE	21
3. OBJETIVOS DA PESQUISA	22
4. MATERIAIS E METODOLOGIA	23
5. RESULTADOS	32
6. DISCUSSÃO	47
7. CONCLUSÃO	57
8. REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS	58
APÊNDICES	67
ARTIGO I	
ARTIGO II	
ARTIGO III	
ANEXOS	

LISTA DE FIGURAS E TABELAS

Figura 1 – Fluxograma	24
Figura 2 - Valor de Kappa (LANDIS e KOCH, 1977)	29
Tabela 1 – Dados antropométricos grupo (n=39)	32
Tabela 2 – Variáveis polissonográficas (n=39)	33
Tabela 3 – Questionários do Sono – PSQ e subescalas	33
Tabela 4 - Questionário do sono – OSA-18 e seus domínios	34
Tabela 5 – Correlação entre os questionários do sono – PSQ e OSA-18 e PSG	34
Tabela 6 – Tabela de contingência entre o PSQ e o IAH (n=30)	35
Tabela 7 – Tabela de contingência entre o OSA-18 e o IAH (n=30)	35
Tabela 8 – Dados referentes a Curva - ROC PSQ e OSA-18 (n=30)	35
Tabela 9 - Análise de concordância Kappa do protocolo ShOM	37
Tabela 10 - Coeficiente de correlação intraclassa (CCI) do valor real	38
Tabela 11 - Variáveis polissonográficas (n=20)	39
Tabela 12 – Resultados do Questionários do Sono – PSQ (n=20)	39
Tabela 13 – Resultados do Questionários do Sono – OSA-18 (n=20)	39
Tabela 14 – Resultados do ShOM	40
Tabela 15 – Resultados do AMIOFE-E - Mastigação	40
Tabela 16 – Resultados do AMIOFE-E - Deglutição	41
Tabela 17 – Correlação entre os dados miofuncionais orofaciais e PSG	42
Tabela 18 - Correlação entre os dados miofuncionais orofaciais e PSQ	42
Tabela 19- Correlação entre os dados miofuncionais orofaciais e OSA-18	43
Tabela 20 – Tabela de contingência entre os dados do ShOM e o IAH	43
Tabela 21 – Dados comparativos entre os protocolos PSQ, OSA-18 e ShOM	44
Tabela 22 –PSQ isolado e em associação do ShOM	45
Tabela 23 – OSA-18 isolado e em a associação ao ShOM	46
Gráfico 1 – Curva ROC - PSQ e OSA-18 (n=30)	36
Gráfico 2 – Curva ROC - PSQ, OSA-18 e ShOM (n=20)	44
Gráfico 3 - Curva ROC PSQ e associação do ShOM ao PSQ (N=20)	45
Gráfico 4 - Curva ROC do OSA-18 e da associação do ShOM ao OSA-18 (N=20)	46

1. INTRODUÇÃO

A Síndrome de Down (SD) ou T21 (Trissomia do 21) está entre as condições genéticas mais prevalentes na população mundial. Estima-se que a incidência é de 1 em 800 casos de nascidos vivos (GUPTA, N. A. & KABRA, M, 2014; KACZOROWSKA et al., 2019). Indivíduos com SD apresentam características fenotípicas específicas que podem acometer múltiplos sistemas, como o sistema musculoesquelético, neurológico, imunológico e cardiovascular com impacto na saúde física, cognitiva e comportamental (ANTONARAKIS et al., 2021).

Em 1866, John Langdon Down, médico britânico, descreveu as características comumente encontradas em indivíduos com essa condição e deu nome à síndrome. Somente em 1959, o médico francês Jerome Lejeune descobriu que a causa da SD se deve à presença parcial ou completa de um cromossomo a mais no par 21 (HSA21-*Homo sapiens chromosome 21*). A trissomia 21 pode ocorrer por não disjunção meiótica, com a presença de 47 cromossomos; por translocação de um cromossomo 21 adicional para outro cromossomo; por trissomia parcial, duplicação de um segmento do cromossomo 21; ou mosaïcismo da trissomia 21, algumas células têm um cromossomo 21 extra, enquanto outras não (DE GRAAF, BUCKLEY, SKOTKO, 2015; VICENT et al., 2020; BULL, 2022; BLANCO-MONTAÑO, 2023).

Permanecem lacunas nos estudos que buscam identificar os fatores de risco relacionando-os com os tipos de erros/mutações genéticas, entretanto, apesar da heterogeneidade, sabe-se da influência de questões como a idade materna avançada; questões ambientais como uso do tabaco; suplementação com ácido fólico; uso de anticoncepcionais; exposição à materiais solventes, entre outros (COPPEDE, 2016; CHERNUS et al., 2019).

Quanto à caracterização do indivíduo com SD, há registros de mais de 200 genes codificadores de proteínas relacionados ao cromossomo 21, com potencialidade de ação, direta ou indireta, na homeostase celular, nos tecidos, órgãos e sistemas (ANTONARAKIS et al., 2021). Dessa forma, é encontrada uma grande variedade de níveis de comprometimento dos múltiplos sistemas, incluindo o sistema miofuncional orofacial.

O sistema miofuncional orofacial é resultante da complexa interação entre o sistema nervoso central e o sistema muscular. Diversas condições genéticas, como é o caso da SD; alterações congênitas, como as fissuras labiopalatinas; traumas ou hábitos adquiridos podem implicar em desequilíbrios entre esses sistemas, culminando nos distúrbios miofuncionais orofaciais (DMOs).

DMO é "qualquer padrão envolvendo a musculatura oral e/ou orofacial que interfere no crescimento e desenvolvimento, ou funções das estruturas, ou chama a atenção para si" (ASHA, 2004). Podem ser considerados como fatores predisponentes ou perpetuadores de alterações no crescimento e desenvolvimento craniofacial, e de patologias como a apneia obstrutiva do sono (AOS). Assim, o DMO pode estar associado aos demais fenótipos da AOS que incluem a SD, alterações craniofaciais, alterações metabólicas e fatores obstrutivos da via aérea superior (VAS) (GUILLEMINAULT et al., 2013; FELICIO et al., 2016, D'ONOFRIO, 2018).

Características Fenotípicas da Síndrome de Down

A trissomia completa ou parcial do cromossomo 21 influencia na caracterização dos fenótipos e, conseqüentemente, no grau de comprometimento dos sistemas musculoesquelético, cardiovascular, imunológico e neurológico. Em relação ao componente neurológico e cognitivo, indivíduos com SD podem apresentar níveis variáveis de alterações da função intelectual, comprometimento nas funções executivas, atrasos na aquisição da fala, dificuldades e transtornos de aprendizagem, dificuldade no planejamento e na memória, flexibilidade cognitiva limitada, risco aumentado do desenvolvimento de demência e da doença de Alzheimer (NAESS, 2021; GAZA et al., 2022). Lee et al. (2020) cita estudos que descrevem diversas alterações neuro anatômicas na população pediátrica com SD, como: redução da massa total do cérebro, volume reduzido de substância branca e cinzenta e redução na densidade neuronal nas áreas frontal, temporal e cerebelar. Questões comportamentais como ansiedade e depressão são achados frequentes em adultos e idosos com SD, mas também afetam crianças e adolescentes (BULL, 2022; SOARES, 2020).

Um importante fenótipo da SD é a hipotonia da musculatura corporal, incluindo a musculatura facial e cervical, que estão envolvidas no desenvolvimento dos DMOs. As características craniofaciais específicas como hipoplasia mandibular e de terço médio da face também favorecem ao surgimento e manutenção dos desequilíbrios musculares e funcionais nessa população. Ferrario et al. (FERRARIO et al., 2004) analisaram dados antropométricos em 3D de indivíduos italianos com SD, sendo identificado crânio e mandíbula mais estreitos, com menores proporções dos terços faciais em relação ao desenvolvimento típico de indivíduos sem SD. Vicente et al. (2020) acrescentam que indivíduos com SD possuem uma base craniana menor e mais plana, maxila reduzida em sua dimensão sagital e tendência ao prognatismo, em comparação aos indivíduos em geral. As menores proporções faciais quanto à altura e largura podem impactar ainda, na percepção do volume de língua,

que em relação às dimensões craniofaciais pode se apresentar aumentado, configurando uma macroglossia relativa (JAYARATNE et al., 2017; KACZOROWSKA et al., 2019).

A presença de maloclusões como classe III esquelética, mordida cruzada, sobremordida e apinhamentos dentários são achados frequentes nessa população em decorrência das características craniofaciais citadas anteriormente e da posição e função da língua (KACZOROWSKA et al., 2019; ALKAWARI, 2021). Hábitos orais, como onicofagia, sucção digital e interposição lingual anterior estão presentes e podem colaborar no desenvolvimento ou perpetuação das alterações morfológicas e dos desequilíbrios miofuncionais orofaciais (RODRIGUEZ GUERRERO, 2015).

As anormalidades na via aérea de indivíduos com SD são fatores contribuintes para mortalidade, morbidade e o estabelecimento do padrão respiratório por via oral. A via aérea superior (VAS) de indivíduos com SD é pequena, podendo haver atresia de coanas e hipertrofia adenotonsilar. Alterações traqueais são mais frequentes na SD em relação à população típica, de forma que manifestações como estridor, dispneia e chiado requerem investigação mais aprofundada, uma vez que podem ser indicativos de importantes obstruções (FOCKENS, 2021).

A respiração oral (RO) é comumente encontrada em indivíduos com SD, quer seja por questões obstrutivas e estruturais ou devido aos padrões neuromusculares que favorecem à hipofunção da musculatura orofacial. Essa condição muscular orofacial adicionada à alteração da percepção sensitiva contribui para a manutenção da boca entreaberta, ou aberta, com a língua em posição baixa e protraída, alterando toda a dinâmica de estímulo ao crescimento craniofacial, incluindo a via respiratória, bem como desequilíbrio em outras funções orais e faríngeas (CARVALHO, CAMPOS e CRUSOÉ-REBELLO, 2010; KACZOROWSKA et al., 2019).

Em relação aos aspectos funcionais do sistema motor oral, crianças com SD podem apresentar além da RO, dificuldades alimentares decorrentes de alterações estruturais esqueléticas e oclusais, dos padrões neuromusculares e de fatores cognitivos e intelectuais interferindo, assim, nas demais funções do sistema estomatognático como sucção, mastigação, deglutição e fala (CLAVÈ e SHAKER, 2015; USMAN et al., 2023). Tais alterações ocorrem em razão do reduzido controle motor da língua, da postura de lábios entreabertos, da hipotonia de bochechas e lábios e da alteração da sensibilidade intraoral. A mastigação ineficiente, ou seja, sem a devida trituração dos alimentos é um importante fator de risco para distúrbios na deglutição, presença de engasgos, doença do refluxo e possíveis aspirações traqueais (MIZUKAMI et al., 2019).

Dessa forma, os DMOs estão presentes em menor ou maior grau em indivíduos com SD. A identificação das alterações na sensibilidade, postura, mobilidade e tônus da musculatura orofacial,

assim como nas funções de respiração, sucção, deglutição, mastigação e fala é relevante, pois são fatores envolvidos diretamente nos processos de desenvolvimento craniofacial e na fisiopatologia dos transtornos respiratórios obstrutivos do sono, como a apneia obstrutiva do sono (AOS) (FELÍCIO et al., 2018).

Apneia do sono e Síndrome de Down

Em relação à morfologia e dinâmica funcional da via respiratória, a SD é considerada um importante fator de risco para AOS, um transtorno respiratório do sono crônico, progressivo, caracterizado por pausas respiratórias intermitentes e recorrentes durante o período de sono. As pausas respiratórias são acompanhadas de quedas na saturação de oxihemoglobina com breves despertares eletroencefalográficos que fragmentam o sono, promovendo alterações metabólicas, hormonais, cardiovasculares, cognitivas e comportamentais (AASM, 2015; GULOTTA, 2019).

Em crianças, entre 2 e 8 anos, é estimada uma prevalência de AOS entre 1 e 4% (LUMENG E CHERVIN, 2008), associada a fatores obstrutivos em VAS e obesidade (ARENS et al., 2011). Em crianças obesas esse número pode aumentar para 13% a 59%, devido à hipertrofia adenotonsilar e acúmulo de gordura na VAS (TAVASOLI, JALILOLGHADR, LOFTII, 2016). Em crianças com SD a prevalência varia entre 31% e 79% (STORES e STORES, 2013; GOFFINSKI et al., 2015; LEE et al., 2018; BULL, 2022), evidenciando assim, um aumento significativo da AOS em indivíduos com SD em relação à população sem a condição genética.

A maior prevalência da AOS na SD se dá em razão da configuração da VAS e das características craniofaciais e musculares inerentes à SD (LEE et al., 2018). Alterações na condição muscular e funcional orofacial, como tônus da musculatura orofacial rebaixado, reduzida coordenação dos músculos mastigatórios e RO são achados frequentes na população em geral com AOS, incluindo crianças típicas e crianças com SD (FELÍCIO et al., 2018; CORRÊA et al., 2020; GIANNASSI et al., 2019).

Há maior frequência de questões metabólicas e endócrinas como o hipotireoidismo, reduzida massa óssea e uma maior tendência à obesidade na SD, que pode ocorrer em 25% das crianças e em 50% ou mais nos adultos (BULL, 2022). As causas do sobrepeso e obesidade na SD estão relacionadas ao tônus muscular reduzido, maior suscetibilidade à inflamação sistêmica, disfunções metabólicas, maus hábitos alimentares e baixa atividade física (MARTÍNEZ-ESPINOZA et al., 2020). A obesidade, isoladamente, mesmo que o indivíduo não tenha SD, é considerada um

importante fator predisponente ao desenvolvimento da AOS (ARENS et al., 2011; LENNON et al., 2017).

Assim, deve ser considerado como um pior curso da AOS, a associação entre a SD e outras condições cujo potencial de risco nessa população é mais alto, como: disfagia, doenças cardíacas congênitas, doenças gastrointestinais e do refluxo, hipotireoidismo, malformações orofaríngeas e prematuridade (STORES e STORES, 2013; GOFFINSKI et al., 2015; LEE et al., 2018).

Diagnóstico da AOS

A Academia Americana de Pediatria recomenda a investigação da AOS na SD precocemente aos 6 meses, quando há sintomas como respiração “pesada”, roncos, posição incomum ao dormir, sonolência diurna, paradas respiratórias e problemas comportamentais (BULL, 2022). Na ausência dos sintomas acima relacionados durante as visitas pediátricas de rotina, é sugerido que entre 3 e 4 anos de idade todas as crianças com SD devem realizar a polissonografia (PSG) – exame padrão-ouro para diagnóstico de distúrbios do sono. A recomendação é pautada na alta prevalência de AOS e consequentemente, nas disfunções e comorbidades que afetam o crescimento e o desenvolvimento infantil (LAL et al., 2015; GOFFINSKI et al., 2015; FRIEDMANN et al., 2017; BULL, 2022).

A frequente associação entre as duas condições, SD e AOS, e a elevada presença de comorbidades corroboram a importância do diagnóstico e assertividade no tratamento. Entretanto, a identificação da AOS em indivíduos com SD, especialmente na infância, é prejudicada em razão do alto custo e dificuldade do acesso à PSG. Outra limitação é a subnotificação de questões relacionadas ao sono quando são aplicados métodos complementares e de rastreio – os *screening tests* (questionários, escalas e protocolos) (OCEJA et al., 2021; VELOSO et al., 2021). Dessa maneira, a análise/busca por instrumentos de rastreio com maior sensibilidade e especificidade poderá auxiliar na identificação de risco para AOS e comorbidades, de maneira complementar ou na impossibilidade do exame padrão ouro, abreviando o tempo para o diagnóstico e tratamento efetivo.

Testes diagnósticos na AOS

Testes diagnósticos requerem validação a partir de análises quanto à confiabilidade, sensibilidade, especificidade, valores preditivos (positivo e negativo) e acurácia, dentre outros; de

forma que seja comprovada a sua capacidade de diagnosticar uma doença ou condição clínica (DEEKS, 2004).

A validação dos questionários do sono na criança é limitada, uma vez que somente 13% a 27% dos pais/responsáveis reconhecem a existência de problemas relacionados ao sono das suas crianças (CAVALHEIRO et al., 2017). No entanto, são ferramentas importantes na impossibilidade da realização da PSG, teste padrão para o diagnóstico da AOS.

Instrumentos de rastreio relacionados ao sono da criança como o *Pediatric Sleep Questionnaire* (PSQ) (MARTINS et al., 2022) e *Obstructive Sleep Apnea-18* (OSA-18) (FERNANDES E TELES, 2013; BITNERS and ARENS, 2020) fazem parte da rotina de investigação de indivíduos com transtornos do sono, auxiliando na identificação de risco para o diagnóstico assertivo. São considerados de fácil e rápida aplicação e buscam analisar a presença de sintomas, frequência, repercussões físicas e comportamentais.

O PSQ investiga diferentes aspectos da qualidade do sono, roncos e questões comportamentais como a hiperatividade. Possui sensibilidade e especificidade avaliada em 78% e 72%, respectivamente (CHERVIN, 2000). Em sua versão para o português, PSQ-Brasil, apresentou alta acurácia, sensibilidade de 92%, especificidade de 100%, demonstrando, assim que a avaliação da qualidade de sono pode ser um importante parâmetro na identificação de crianças típicas com potencial de risco para AOS (PANZARELLA et al., 2021).

O OSA-18 objetiva avaliar a qualidade do sono das crianças, a partir de cinco domínios: distúrbio do sono, sofrimento físico, sofrimento emocional, problemas diurnos e preocupação dos pais. O resultado reflete o impacto na qualidade de vida das crianças. No entanto, foi avaliado com baixa sensibilidade e especificidade pelos *guidelines* do *European Respiratory Society Task Force* (BORGSTRÖM, NERFELDT, FRIBERG, 2013; PANZARELLA et al., 2021) evidenciando sua fragilidade no diagnóstico da AOS.

Avaliação Miofuncional Orofacial

Para triagem e avaliação dos aspectos de mobilidade, tônus e funções orofaciais e faríngeas de indivíduos com AOS, podem ser utilizados os protocolos **AMIOFE-E - Protocolo de Avaliação Miofuncional com Escores Expandido** (FOLHA, VALERA e FELÍCIO, 2015) e o protocolo ShOM - *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol* (VILLA et al., 2013; VILLA et al., 2016a; VILLA et al., 2016b).

O protocolo AMIOFE-E possui validação e confiabilidade na identificação de DMOs em indivíduos adultos com AOS, tendo sido demonstrada boa sensibilidade (67%), especificidade (91%), valor preditivo positivo (77%) e valor preditivo negativo (86%) (FOLHA, VALERA E FELÍCIO, 2015).

No estudo multicêntrico de Corrêa et al. (2020), crianças brasileiras e italianas com AOS foram avaliadas a partir do exame padrão, PSG, e submetidas aos protocolos OSA-18, *Sleep Clinical Record* e ShOM. Foi demonstrada uma correlação entre alteração na posição da língua em repouso e na deglutição com maior índice de apneia e hipopneia (IAH), que é considerado um critério de severidade da AOS. Ressalta-se que este protocolo possibilita avaliar as alterações miofuncionais orofaciais frequentes na população pediátrica com alterações respiratórias obstrutivas do sono de forma rápida e padronizada. Entretanto, até o momento deste estudo não havia sido realizada sua validação, bem como não foi estabelecida uma pontuação de corte como parâmetro de identificação de AOS.

Assim, a proposta deste estudo é investigar as estruturas e funções miofuncionais orofaciais de crianças com SD e correlacionar com a presença e gravidade da AOS, tendo em vista que as características craniofaciais e musculares são condições preditivas dos distúrbios obstrutivos respiratórios do sono. Outro objetivo do estudo é verificar a aplicabilidade do protocolo ShOM em crianças com SD, de maneira a promover sua validação nesta população específica.

2. HIPÓTESE

A identificação das condições craniofaciais e musculares de crianças com SD poderiam auxiliar na identificação de risco e gravidade da AOS. A proposta deste estudo é investigar as estruturas e funções orofaciais de crianças com SD correlacionando-as com a presença e gravidade da AOS e com os resultados dos questionários do sono, PSQ e OSA-18. Dessa forma, a análise da condição miofuncional orofacial poderia contribuir para a assertividade no diagnóstico precoce com vistas a minimizar as possíveis consequências da AOS nessa população.

3. OBJETIVOS DA PESQUISA

3.1 Objetivos Gerais

Investigar as estruturas e as funções orofaciais em crianças com Síndrome de Down e AOS e correlacionar os resultados da avaliação miofuncional orofacial e questionários do sono com as variáveis polissonográficas.

3.2 Objetivos específicos

1. Analisar os resultados dos questionários PSQ e OSA-18 de crianças com SD correlacionando com a identificação da AOS e a sua gravidade.
2. Avaliar as estruturas e funções miofuncionais orofaciais de uma amostra de crianças com SD, entre 4 e 15 anos, a partir da aplicação do protocolo *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol – ShOM* e do Protocolo de Avaliação miofuncional orofacial com escores expandidos – AMIOFE-E (adaptado), testes de mastigação e deglutição.
3. Avaliar o nível de confiabilidade do protocolo ShOM por meio da análise da avaliação de concordância interjuízes.
4. Analisar a correlação entre os aspectos miofuncionais orofaciais de crianças com SD e AOS, obtidos por meio do ShOM e AMIOFE-E, variáveis respiratórias polissonográficas e resultados dos questionários PSQ e OSA-18.
5. Avaliar a acurácia diagnóstica do protocolo ShOM aplicado isoladamente e associado ao PSQ e ao OSA -18 na identificação de AOS moderada e AOS grave.

4. MATERIAIS E METODOLOGIA

Projeto submetido e aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Faculdade de Medicina de Botucatu da Universidade Estadual Paulista Júlio de Mesquita Filho, sob o número do protocolo CAAE: 47939721.8.0000.5411.

Casuística

A amostra selecionada é considerada uma amostra de conveniência composta por pacientes do ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB -UNESP/Botucatu. O grupo recrutado foi submetido à consulta e avaliação médica, em que dados antropométricos e os questionários PSQ e OSA-18, relacionados à investigação do sono, foram coletados como parte da rotina do serviço. A avaliação fonoaudiológica das condições miofuncionais orofaciais se deu por meio do protocolo de triagem ShOM e protocolo de avaliação AMIOFE-E, após assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido. As crianças realizaram polissonografia (PSG) tipo III, equipamento Polígrafo tipo III, marca Philips, componentes: cânula e termistor de fluxo aéreo, cinta tórax e abdômen, oximetria de pulso e sensor de posição.

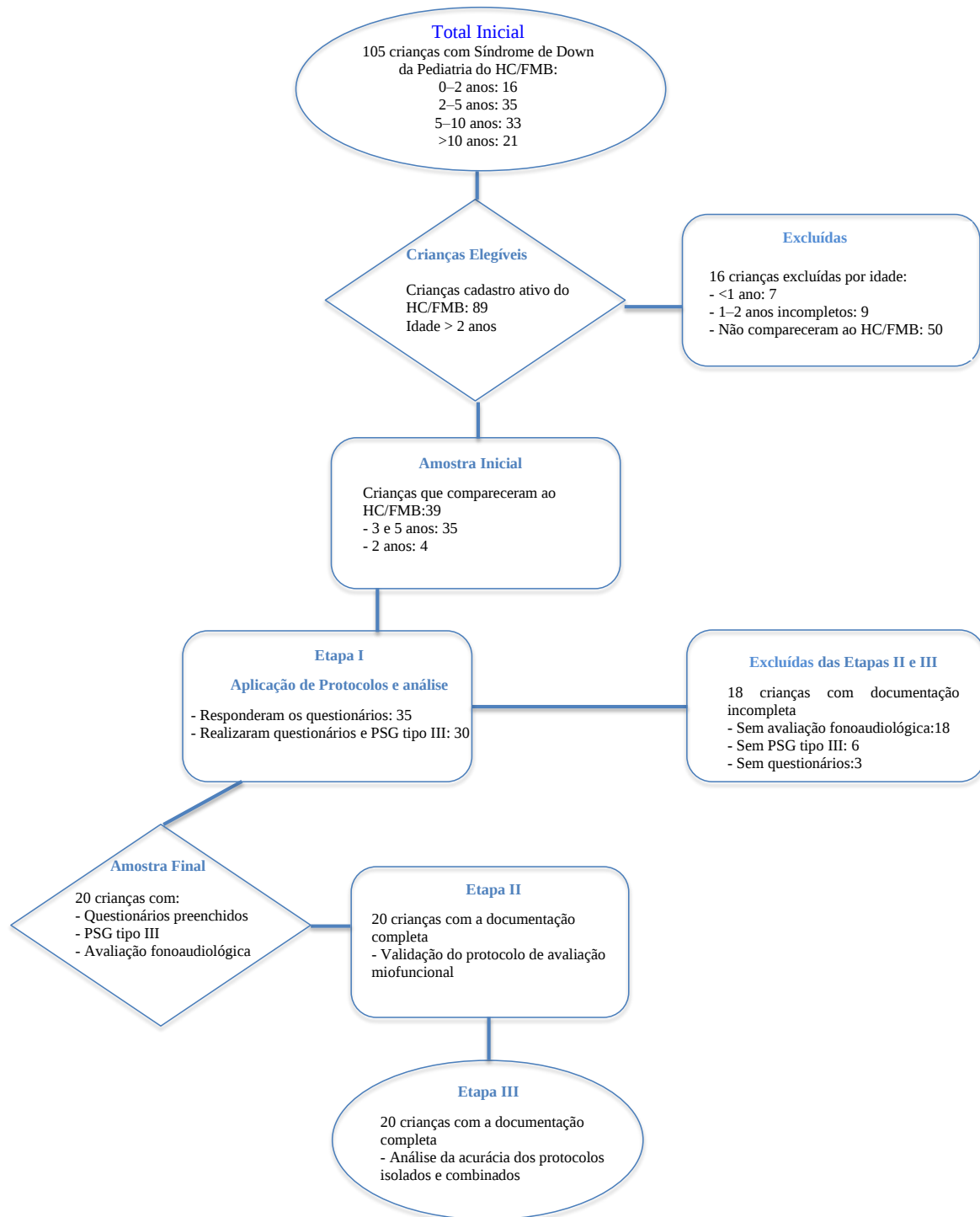
O critério de diagnóstico de AOS foi realizado por meio do índice de apneia/hipopneia (IAH), classificando a AOS na criança como: a) AOS leve: IAH – 1,1 a 5 eventos/hora de sono (e/h); b) AOS moderada: IAH – 5,1 a 10 e/h; c) AOS grave: IAH – acima de 10 e/h (KADITIS et al., 2016).

Critério de inclusão: crianças com SD, entre 2 e 15 anos acompanhadas no ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB-UNESP, e assinatura de Termo de Consentimento.

Critério de exclusão: Crianças com distúrbios neurológicos, distúrbios neuromusculares ou uso de drogas que deprimem o sistema respiratório, conforme determinado por exame médico e anamnese; e crianças que não finalizaram todos os protocolos.

Para a avaliação da sensibilidade, especificidade, acurácia, valor preditivo positivo e valor preditivo negativo, as crianças foram divididas em 2 grupos. O critério de divisão adotado foi o IAH obtido na polissonografia, sendo o Grupo 1 composto por crianças sem AOS e com AOS leve (IAH de 0 a 5,0) e o Grupo 2, crianças com AOS moderada e grave (IAH acima de 5,1).

Figura 1 - Fluxograma do recrutamento da amostra



Procedimentos

Para cálculo dos dados antropométricos, as crianças foram pesadas e medidas no dia da consulta no ambulatório do sono do HC. A balança utilizada é da marca Welmy. Para o cálculo do escore-Z, foi utilizado o critério que considera o índice de massa corpórea (IMC) = peso [kg]/estatura [m²], sexo e idade. Os pontos de corte formam escores de IMC por idade em crianças (0 a 10 anos): escore < -2: baixo IMC para idade; escore $\geq$ -2 e < +1: eutrófico (peso saudável); escore $\geq$ +1 e < +2: sobrepeso; e escore $\geq$ +2: obesidade. Os pontos de corte para adolescentes (10 a 19 anos) de IMC por idade: escore < -2: baixo IMC para idade; escore $\geq$ -2 e < +1: eutrófico; escore $\geq$ +1 e < +2: sobrepeso; e escore $\geq$ +2: obesidade (BRASIL, MINISTÉRIO DA SAÚDE, 2011).

Para a avaliação subjetiva do sono, foram utilizados os questionários *Pediatric Sleep Questionnaire* (PSQ) e OSA-18 (OSA-18 Versão Portuguesa). A aplicação dos questionários foi realizada no ambulatório no momento da consulta por pessoa treinada, como parte da rotina do serviço.

PSQ – direcionado a crianças de 2 a 18 anos. Contém 22 itens distribuídos em 3 domínios que investigam a frequência do ronco, ronco alto, apneias observadas, dificuldade para respirar durante o sono, sonolência diurna, comportamento desatento ou hiperativo e outras características pediátricas da AOS. As subescalas incluem uma escala de sonolência com 4 itens, uma escala de ronco com 4 itens e uma escala de desatenção / hiperatividade com 6 itens. As respostas são: "sim" = 1, "não" = 0 e "não sei" = ausente. A resposta média nos itens não omissos é a pontuação, que pode variar de 0 a 1. A pontuação acima de 9 se relaciona à alta probabilidade de um distúrbio respiratório do sono (CHERVIN et al., 2000; MARTINS et al., 2022)

OSA-18 (OSA-18- Versão Portuguesa) - consiste em um questionário de 18 itens agrupados em cinco domínios: a) distúrbio do sono (4 itens com escores variando de 4 a 28 pontos) b) sofrimento físico (4 itens com escores variando de 4 a 28 pontos) c) sofrimento emocional (3 itens com escores variando de 3 a 21 pontos) d) problemas diurnos (3 itens com escores variando de 3 a 21 pontos) e) preocupações dos pais ou responsáveis (4 itens com escores variando de 4 a 28 pontos). Os itens são pontuados em escala de 1 a 7 pontos sendo: 1=nenhuma vez, 2=quase nenhuma vez, 3=poucas vezes, 4=algumas vezes, 5=várias vezes, 6=a maioria das vezes, 7=todas as vezes. A pontuação do OSA-18 pode variar de 18 a 126 pontos e são categorizados em três grupos, de acordo com o impacto na qualidade de vida: pequeno – menor que 60; moderado – entre 60 e 80; e grande – acima de 80. Quanto mais frequente é o item em cada domínio, maior a pontuação final e pior é o impacto na

qualidade de vida. Ainda pode ser verificada uma taxa global relacionada à qualidade de vida, através de uma escala de zero a 10 pontos atribuídos pelo cuidador, onde 0 (zero) corresponde à pior qualidade e 10 (dez) à melhor qualidade possível (FERNANDES E TELES, 2013).

A avaliação miofuncional orofacial foi realizada por meio do protocolo *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol – ShOM* e *Protocolo de Avaliação Miofuncional com Escores Expandidos – AMIOFE-E*. A avaliação foi realizada por 2 fonoaudiólogas, separadamente, por meio de análise das imagens da gravação em vídeo. Os vídeos seguiram uma padronização de distância e roteiro estruturado. O período entre a gravação e o exame de PSG variou entre 0 (dia do exame) e 15 dias. Somente foram utilizados os vídeos após autorização específica informada no Termo de Consentimento.

ShOM é um protocolo para Triagem Miofuncional Orofacial em crianças com queixas respiratórias. Foi estruturado considerando: modo e tipo respiratório, competência labial, tônus labial, postura da língua no repouso e na deglutição, tônus do músculo dilatador da asa do nariz, oclusão, teste de Glatzel e teste de Rosenthal. No total, 10 itens são pontuados 0 (normal) e 1 (alteração); uma soma de 10 significa o maior número de alterações miofuncionais orofaciais possíveis. A pontuação seguiu os critérios de normalidade ou alteração conforme quadro abaixo.

SHOM – Item	Pontuação = 0 (normal)	Pontuação = 1 (alterado)
Modo e tipo respiratório	Nasal, médio, médio/inferior	Oral, misto, superior
Competência labial	Lábios fechados sem esforço da musculatura perioral e atuante nas funções orofaciais	Fechado com esforço, entreabertos, inferior tocando os dentes, abertos, ineficientes nas funções orofaciais
Tônus labial	Adequado	Diminuído ou aumentado
Postura da língua no repouso	Elevada, tocando nas pregas palatinas transversas, contida na arcada dentária;	No assoalho, ápice rebaixado e dorso elevado, pressionando os dentes; entre as arcadas.
Tônus do dilatador da asa do nariz	Dilatação da narina durante inspiração profunda com lábios fechados	Ausência de dilatação durante a inspiração
Oclusão	Linha média adequada, classe I de Angle, relação vertical, horizontal e transversal adequada	Qualquer situação fora do padrão para normalidade.
Teste de Glatzel	Fluxo de ar semelhante entre as narinas	Assimetria, fluxo reduzido
Teste de Rosenthal - Solicita-se ao indivíduo para respirar calmamente, pelo nariz, durante, pelo menos, vinte inspirações	Mantém a boca fechada durante os vinte ciclos respiratórios sem sinais de falta de ar, sem taquicardia e revelando movimentos normais com as asas do nariz	Abertura da boca muito antes do final da prova, e um aumento nos valores da frequência cardíaca e movimentos com as asas do nariz (MASPERO et al, 2010).
Adaptado pelo autor.		

AMIOFE-Expandido - é um protocolo de avaliação miofuncional orofacial com escores, que aborda os aspectos relacionados à aparência, postura e mobilidade de lábios, língua, bochechas e mandíbula; respiração; mastigação e deglutição. Nesse estudo serão usados os itens referentes às funções de mastigação e deglutição.

Teste de mastigação - os indivíduos da amostra foram analisados a partir da gravação de um vídeo, em que foi ofertado um biscoito. A pontuação máxima é igual a 22 pontos, sendo que quanto maior a pontuação, menor o comprometimento miofuncional. Foram analisados os itens abaixo:

MASTIGAÇÃO - item		Critérios da pontuação (máxima = 22)
Mordida		4 = normal : mordida com os dentes incisivos; 3 = mordida com os caninos ou pré-molares; 2 = mordida com molares; 1 = não morde.
Tipo de mastigação de acordo com os golpes mastigatórios		10 = normal : mastigação alternada (50%/50% cada lado, até 40% de um lado e 60% do outro lado); 8 = mastigação simultânea (vertical); 6 = Preferencial – grau 1 – (61% a 77%); 4 = Preferencial – grau 2 – (78% a 94%); 2 = Anterior (Frontal); 1 = Não realiza a função, não tritura.
Outros comportamentos		Pontuação máxima = 8. Serão atribuídos 2 pontos para cada comportamento ausente e 1 ponto para cada comportamento presente. São eles: Movimentos incoordenados de mandíbula; postura alterada (cabeça ou outras partes do corpo); escape de alimento; movimentação da cabeça ou outras partes do corpo
(FOLHA, VALERA E FELÍCIO, 2015)		

Teste de deglutição - os indivíduos da amostra foram analisados a partir da gravação de um vídeo, em que foi ofertado um biscoito, para análise da deglutição do bolo sólido, e um copo com água, para análise do líquido. A pontuação máxima é igual a 22 pontos, sendo que quanto maior a pontuação, menor o comprometimento miofuncional. Foram analisados os aspectos abaixo.

DEGLUTIÇÃO		Critérios da pontuação (máxima = 22)
Item		
Comportamento dos lábios		6 = normal : Vedam a Cavidade Oral, sem aparentar esforço; 4 = Vedam a Cavidade Oral, mas apresentam contração além do normal ou interposição leve; 3 = Vedam a Cavidade Oral, mas apresentam contração além do normal ou interposição moderada; 2 = Vedam a Cavidade Oral, mas apresentam contração além do normal ou interposição severa; 1 = Não vedam a Cavidade Oral ou Não cumprem a função
Comportamento da língua		4 = normal = Contida na cavidade oral; 3 = Interposta aos dentes (ou rebordos)/ DVO reduzida (limite das faces incisais); 2 = Interposta aos dentes (ou rebordos)/ DVO normal (limite das faces incisais);

	1 = Interposta aos dentes (ou rebordos)/ Ultrapassa as faces incisais e /ou cúspides vestibulares; 3 = Interposta aos dentes, com trespasse vertical negativo (“<i>overbite</i>”) ou trespasse horizontal positivo (“<i>overjet</i>”)/ Limite das faces incisais; 2 = Interposta aos dentes, com trespasse vertical negativo (“<i>overbite</i>”) ou trespasse horizontal positivo (“<i>overjet</i>”)/ Ultrapassa as faces incisais e /ou cúspides vestibulares; 1 = Interposta aos dentes, com trespasse vertical negativo (“<i>overbite</i>”) ou trespasse horizontal positivo (“<i>overjet</i>”)/ Ultrapassa muito as faces incisais.
Outros comportamentos e sinais de alteração	Pontuação máxima = 12. Serão atribuídos 2 pontos para cada comportamento ausente e 1 ponto para cada comportamento presente. São eles: Movimentação da cabeça ou outras partes do corpo, desliz da mandíbula, tensão da musculatura facial, escape de alimento, engasgo, ruído (FOLHA, VALERA E FELÍCIO, 2015.)

Avaliação interjuízes especialistas

Duas fonoaudiólogas, especialistas em Motricidade Orofacial avaliaram 16 crianças por meio do protocolo ShOM, separadamente, e sem o conhecimento prévio dos resultados da polissonografia e dos demais questionários do sono. Essa análise seguiu as seguintes fases:

- Seleção dos vídeos a serem submetidos aos juízes – 16 vídeos (amostra de 16 crianças que seguiram o roteiro fielmente).
- Seleção dos juízes - Descrição do perfil dos juízes.
 - Juiz 1 - Especialista em Motricidade Orofacial, Mestrado em Ciências Médicas com linha de pesquisa na área, certificada em Fonoaudiologia do Sono, Professora universitária com 10 anos de atuação, Fonoaudióloga Clínica com 20 anos de experiência nas áreas de Motricidade Orofacial e Voz.
 - Juiz 2 - Especialista em Motricidade Orofacial, Mestre em Distúrbios da Comunicação autora de livros na área de Motricidade Orofacial, Certificada em Fonoaudiologia do Sono, professora do CEFAC – Pós-Graduação em Saúde e Educação. Membro Ativo da IAOM (*International Association of Orofacial Myology*). Fonoaudióloga clínica nas áreas de Motricidade Orofacial, Voz, Fala, Ronco, Apneia do Sono e Câncer de Cabeça e Pescoço desde 1987.
- Análise de confiabilidade interjuízes

Para a análise de confiabilidade interjuízes foi aplicado o teste de concordância de Kappa conforme proposto por LANDIS e KOCH (1977). O intervalo de confiança foi de 95%.

Os resultados foram comparados para avaliar o nível de concordância/discordância, a fim de verificar a necessidade de calibração do protocolo e reavaliações.

Coefficiente Kappa de Cohen

Para a análise de confiabilidade interjuízes do protocolo ShOM, assim como verificação da necessidade de calibração entre os juízes foi aplicado o teste de concordância Kappa para análise nominal (pontuação do ShOM: 0 = sem alteração; 1 = com alteração). Os índices de interpretação estão abaixo descritos conforme proposto por LANDIS e KOCH (1977). O intervalo de confiança foi de 95% (tabela 1).

Figura 2 - Valor de Kappa (LANDIS e KOCH, 1977)

VALOR DE KAPPA	INTERPRETAÇÃO
Entre 0,21 e 0,4	razoável (<i>fair</i>)
Entre 0,41 e 0,6	moderada (<i>moderate</i>)
Entre 0,61 e 0,8	forte (<i>substantial</i>)
Entre 0,81 e 1	quase perfeita (<i>almost perfect</i>)

Fonte: LANDIS e KOCH, 1977.

Coefficiente de Correlação Intraclassa (CI)

Também foi realizado o Cálculo de Coeficiente intraclassa (CCI) para verificar a concordância ou discordância entre os resultados quantitativos das avaliações do protocolo ShOM pelos juízes, identificando assim, o grau de confiabilidade. Os valores negativos de CCI são interpretados como discordância entre os momentos, valores positivos são interpretados como concordância entre os momentos e valores nulos (zero) são interpretados como ausência de discordância ou concordância entre os momentos (acaso). Foi adotado o intervalo de confiança de 95%, de acordo com a seguinte classificação: valores abaixo de 0,5 sugerem confiabilidade ruim, valores entre 0,5 a 0,75 confiabilidade moderada, valores entre 0,75 a 0,9 confiabilidade boa, valores acima de 0,9 confiabilidade excelente (KOO e LI, 2016).

Análise dos dados

Na análise estatística, foi utilizado o programa **Jamovi**. O teste de *Shapiro-Wilk* foi usado para determinar a normalidade da distribuição da amostra. Na análise descritiva foram calculados os valores da mediana e quartis 25%, 50% e 75% para amostras não paramétricas. O Teste de correlação de **Spearman**, nível de significância de $p < 0,05$ (*), foi aplicado para análise de correlação entre os dados. Ainda foram aplicados o **Teste Kappa Cohen**, para análise de confiabilidade interjuízes.

Para a análise de sensibilidade, especificidade, acurácia, valor preditivo positivo (VPP), valor preditivo negativo (VPN) foi elaborada a matriz de dados e cálculos utilizando o programa **Bioestat 5.3**. Também foi realizada a Curva ROC (*Receiver Operating Characteristic Curve*), que é um método estatístico e gráfico para determinar o melhor ponto de corte (*cutoff point*) de um teste diagnóstico. A sensibilidade é representada no eixo das ordenadas (Y) e a especificidade no eixo das abscissas, isto é, a proporção de falsos positivos. O ponto mais alto da curva (lado esquerdo do gráfico) representa 100% de sensibilidade e 0% de falsos positivos ($d = 0$), sendo, nesse caso, o valor ideal de uma prova diagnóstica, chamada *padrão ouro*. Neste estudo, a determinação da Curva ROC e área sobre a curva (d) representam a capacidade dos questionários/protocolos PSQ, OSA-18 e ShOM classificarem corretamente a condição de AOS moderada e grave. O resultado teve intervalo de confiança de 95%.

Os resultados foram descritos em 3 etapas:

Etapa 1 – Levantamento epidemiológico

Esta etapa configura a análise descritiva dos dados epidemiológicos de 39 crianças com SD, sendo que 35 completaram os questionários OSA 18 e PSQ.

Desta amostra inicial, 33 crianças se submeteram ao exame de PSG tipo III. Foi realizada a correlação entre os questionários do sono e dados da PSG, além da pesquisa de sensibilidade, especificidade, acurácia, VPP e VPN de cada questionário para o diagnóstico de AOS moderada e grave.

Etapa 2 – Validação do protocolo ShOM

Descrição da análise de confiabilidade entre os resultados do protocolo ShOM após as avaliações dos juízes, duas fonoaudiólogas, em momentos diferentes e sem conhecimento prévio dos dados da PSG e dos questionários PSQ e OSA-18. A análise de confiabilidade interjuízes foi feita por meio do teste coeficiente Kappa de Cohen e cálculo do Coeficiente de Correlação Intraclass (CCI).

Etapa 3 – Análise da acurácia do ShOM

Essa etapa descreve os resultados de todos os protocolos e exames aplicados em 20 crianças com SD. A documentação completa incluiu: avaliação médica; questionários do sono, PSQ e OSA-18; PSG e avaliação fonoaudiológica, protocolos ShOM e AMIOFE-E. Foram verificadas as correlações e associações entre as características miofuncionais orofaciais, resultados dos questionários do sono, PSQ e OSA-18 e dados polissonográficos (índice de apneia/hipopneia (IAH), apneias obstrutivas (AO), apneias centrais (AC), apneias mistas (AM), Hipopneias (Hipo), SpO2 média, SpO2 mínima, SpO2<90%).

Também foi realizada pesquisa de sensibilidade, especificidade, acurácia, VPP e VPN do ShOM e IAH e do ShOM associado ao PSQ e ao OSA-18 para o diagnóstico de AOS moderada e grave.

5. RESULTADOS

Etapa 1 -Levantamento epidemiológico

Participaram da Etapa 1, 39 crianças com SD, 16 meninos e 23 meninas, com idades entre 2 e 15 anos, mediana de 7 (25-75: 4-10) anos. Foi possível analisar os resultados dos dados nutricionais conforme o critério de cálculo do Score-Z (BRASIL, MINISTÉRIO DA SAÚDE, 2011) de 36 das 39 crianças, sendo identificada obesidade em 16 crianças (41%); sobrepeso em 5 (12,8%) e peso saudável em 15 crianças (38%). Os dados referentes ao peso, altura e IMC e *Score-Z* estão na tabela abaixo.

Tabela 1 – Dados antropométricos (n=39)

	Idade	IMC	Escore-z
N	39	36	36
Omisso	0	3	3
Mediana	7	19,9	1,35
Mínimo	2	14,1	-1,6
Máximo	15	33,2	3,3
25º percentil	4	17,6	2
50º percentil	7	19,9	1,5
75º percentil	10	24,87	1,87

Legenda: IMC= índice de massa corporal; Score Z= cálculo para identificação dos dados nutricional

Desta amostra inicial, 33 realizaram PSG tipo III, 4 crianças conseguiram finalizar somente a PSG tipo IV, e 2 crianças não conseguiram realizar nenhuma monitorização com duração de ao menos 4 horas.

Em relação às variáveis respiratórias obtidas na polissonografia, a amostra composta de 33 crianças apresentou mediana do IAH de 8,4 (quartis 25-75: 3,8-16) eventos por hora. 12 foram diagnosticadas com apneia grave, 9 com apneia moderada, 11 com apneia leve e apenas 1 apresentou IAH abaixo de 1 evento por hora, sendo considerado dentro da normalidade. Foi possível obter valores das medianas e respectivos quartis de SpO₂ mínima 84 (25-75: 81-89), SpO₂ média 96 (25-75: 95-97) e SpO₂<90% 0,2 (25-75: 0-1) de 36 das 38 crianças que compareceram às consultas.

Tabela 2 – Variáveis polissonográficas (n=33)

	IAH	AO	AC	AM	HIPO	SpO2 min	SpO2 med	SpO2<90%
N	33	33	33	33	33	37	37	37
Mediana	8,4	0,8	1,4	0	3	85	96	0,2
Mínimo	0	0	0	0	0	51	83	0
Máximo	66,9	43,8	19,8	1,1	22,1	93	98	48,3
25º percentil	3,88	0,475	0,075	0,00	0,850	80,8	95,0	0,00
50º percentil	8,45	0,850	1,50	0,00	3,05	84,0	96,0	0,20
75º percentil	16,0	2,85	3,63	0,00	8,42	89,0	97,0	1,00

Legenda: IAH = índice de apneia/hipopneia; AO = apneias obstrutivas; AC = apneias centrais; AM= apneias mistas; HIPO= hipopneias; SpO2 MIN = índice saturação de oxigênio mínima; SpO2 MED = índice saturação de oxigênio média; SpO2<90% = tempo de saturação de oxigênio abaixo de 90%.

Os questionários de investigação do sono, PSQ e OSA-18, foram respondidos pelos pais e/ou responsáveis de 35 crianças, tendo sido obtida pontuação mediana de 9 (quartis 25-75: 6-11) no PSQ e de 60 (25-75: 43- 81,5) no OSA-18, conforme tabela abaixo.

De acordo com a pontuação no PSQ, 18 crianças foram identificadas com alta probabilidade de risco para AOS, acima de 9 pontos. No questionário OSA-18, que categoriza o impacto na qualidade de vida das crianças com AOS em três níveis, 17 foram classificadas com impacto pequeno, 9 com impacto moderado e 6 com impacto grande na qualidade de vida.

Tabela 3 – Resultados do PSQ e subescalas de sonolência, roncos e desatenção ou hiperatividade (n=35)

	PSQ-S	PSQ-R	PSQ-H	PSQ-TOTAL
Mediana	4	1	4	9
Mínimo	0	0	0	1
Máximo	9	7	6	20
25º percentil	3,00	0,00	2,50	6,00
50º percentil	4,00	1,00	4,00	9,00
75º percentil	5,00	2,00	4,00	11,0

Legenda: PSQ= *Pediatric Sleep Questionnaire*; PSQ- S: Sonolência; PSQ-R=Roncos; PSQ-H: hiperatividade; PSQ-Total= pontuação da soma dos domínios.

Tabela 4 – Resultados do OSA-18 e seus domínios (n=35)

	OSA DIMS	OSA DRS	OSA DD	OSA DTSV	OSA SED	OSA H	OSA TOTAL
Mediana	13	9	5	14	6	2	60
Mínimo	7	3	3	6	5	2	18
Máximo	32	15	11	26	21	10	107
25º percentil	10,0	4,00	3,00	10,0	5,00	2,00	43,0
50º percentil	13,0	9,00	5,00	14,0	6,00	2,00	60,0
75º percentil	18,5	11,0	8,00	18,0	10,0	6,00	81,5

Legenda: OSA= *Obstructive sleep apnea*; D.I.M.S = Distúrbio do início ou manutenção do sono; D.R.S = Distúrbio respiratório do sono; D.D = Distúrbio do despertar; D.T.S.V = Distúrbio de transição sono-vigília; S.E.D = Sonolência excessiva diurna; HIPER= hiperatividade; OSA-18 TOTAL 1= somatório dos domínios; OSA-18 TOTAL = somatório dos domínios mais a taxa global de qualidade de vida

Foi possível realizar análise de correlação entre os resultados do PSQ, do OSA-18 e da PSG em 30 crianças. Os dados referentes à análise de correlação do PSQ e variáveis polissonográficas e OSA-18 e variáveis polissonográficas estão descritos na tabela abaixo, evidenciando significância estatística entre: PSQ total e AO ($p=0,04$), OSA-18, domínio distúrbio do início e manutenção do sono (DIMS) e AO ($p=0,016$).

Tabela 5 – Correlação entre os questionários do sono – PSQ, OSA-18 e as variáveis polissonográficas (n=30)

		IAH	AO	AC	AM	HIPO	SpO2 MED	SpO2 MIN	SpO2< 90%
PSQ Total	Rho de Spearman	0,254	0,375	0,055	0,135	0,183	-0,29	-0,12	0,23
	p-value	0,175	0,041*	0,773	0,475	0,334	0,099	0,485	0,19
OSA18 Total	Rho de Spearman	0,115	0,335	0,007	-0,1	0,139	-0,2	-0,03	0,086
	p-value	0,547	0,07	0,97	0,613	0,465	0,27	0,874	0,627
OSA18 DIMS	Rho de Spearman	0,087	0,435	-0,33	-0,1	0,24	-0,19	-0,11	0,152
	p-value	0,649	0,016*	0,078	0,594	0,202	0,283	0,535	0,391

Nota. * $p < ,05$, ** $p < ,01$, *** $p < ,001$

Legenda: IAH= índice de apneia e hipopneia; AO = apneia obstrutiva; AC= apneia central; AM= apneia mista; Hipo=hipopneia; SApO2 MIN= índice saturação de oxigênio mínima; SpO2 MED = índice saturação de oxigênio média; SpO2<90% = tempo de saturação de oxigênio abaixo de 90%; PSQ Total = pontuação no *Pediatric Sleep Questionnaire*; OSA-18 TOTAL = somatório dos domínios mais a taxa global de qualidade de vida; OSA-18 D.I.M S= Distúrbio do início ou manutenção do sono

A sensibilidade, especificidade, acurácia, valor preditivo positivo (VPP) e valor preditivo negativo (VPN) dos questionários PSQ e OSA-18 foram determinados, inicialmente, a partir das

tabelas de contingência que descrevem os doentes e não doentes de acordo com o teste padrão utilizado que foi a PSG (tabelas 6 a 9).

Tabela 6– Tabela de contingência entre o PSQ e IAH (n=30)

TESTE PSQ	DOENTES	NÃO DOENTES
TESTE +	12 (doentes com teste +)	4 (sadios com teste+)
TESTE -	8 (doentes com teste -)	6 (sadios com teste -)

Ponto de corte adotado = 9 pontos no PSQ

Tabela 7 – Tabela de contingência entre o OSA-18 e IAH (n=30)

TESTE OSA-18	DOENTES	NÃO DOENTES
TESTE +	11 (doentes com teste +)	4 (sadios com teste +)
TESTE -	9 (doentes com teste -)	6 (sadios com teste -)

Ponto de corte = 60 pontos no OSA-18

Em um segundo momento, foi realizado o teste para definição da Curva ROC para cada questionário e delimitação da área, que representa a capacidade de determinar corretamente a AOS nos casos moderado e grave (tabela 8 e gráfico 1).

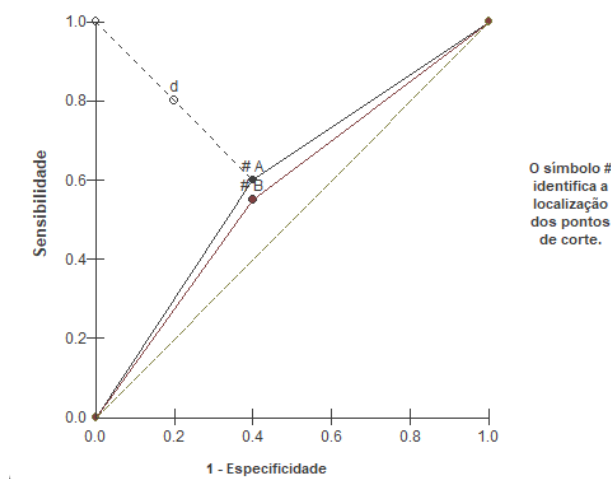
Tabela 8 – Dados referentes a Curva - ROC PSQ e OSA-18 (n=30)

Resultados	Curva A – PSQ	Curva B - OSA-18
Total de Doentes	20	20
Total de Sadios	10	10
Ponto de corte	(0,40 - 0,60)	(0,40- 0,55)
Distância (d)	0,57	0,60
Área	0,60	0,575
Acurácia	0,60	0,56
VVP e VPN	0,75 e 0,42	0,73 e 0,40
Sens. e Espec. (P. Corte)	0,60 e 0,60	0,55 e 0,60
Erro padrão	0,108	0,110
IC 95% (Área)	0,387 a 0,812	0,358 a 0,791

Legenda: VVP= valor preditivo positivo; VPN=valor preditivo negativo; IC=Intervalo de Confiança

A comparação entre os questionários pode ser verificada no gráfico 1 que ilustra as Curvas ROC de cada teste. Foi identificado que o PSQ e OSA-18 apresentaram desempenho semelhantes quanto à sensibilidade, especificidade e acurácia na identificação de risco para AOS moderada e grave, sendo que o PSQ apresentou menor distância ($d=0,567$) ao padrão ouro, PSG.

Gráfico 1 – Curva ROC - PSQ e OSA-18 (n=30)



Legenda: Curva A=PSQ; Curva B=OSA-18

Etapla 2 – Validação do protocolo ShOM

Para essa etapa, foram selecionados 16 vídeos para a mensuração da concordância interjuízes do protocolo ShOM. A avaliação da condição miofuncional orofacial para a pontuação do ShOM foi realizada por 2 fonoaudiólogas, separadamente, por meio da análise dos vídeos gravados como parte do protocolo deste estudo. O objetivo foi avaliar a confiabilidade do protocolo ShOM em crianças com SD e assim, sua validação nesta população.

Na primeira análise da concordância Kappa interjuízes para o ShOM foi verificada confiabilidade excelente ou quase perfeita (0,81 a 1) para postura de língua, língua na deglutição, oclusão e Teste de Rosenthal; confiabilidade moderada (0,4 a 0,6) para a competência labial e insignificante para tônus labial (menor que zero). Na segunda análise, verificou-se confiabilidade excelente para postura da língua na deglutição; confiabilidade forte para Teste de Rosenthal; moderada para modo respiratório, competência labial e postura de língua; e fraca para tônus labial e oclusão.

Tabela 9 - Resultado da análise de concordância Kappa do protocolo ShOM com a classificação.

	Primeira análise		Segunda análise	
	Concordância (%)	Kappa	Concordância (%)	Kappa
Modo respiratório	75%	0,347	81%	0,538
Competência labial	73%	0,455	75%	0,492
Tônus labial	60%	-0,216	75%	0,333
Posição da língua	79%	0,00	94%	0,765
Posição da língua na deglutição	86	0,00	88%	0,000
Oclusão dentária	62%	0,00	56%	0,125
Teste de Rosenthal	77%	0,00	93%	0,759

Valor de Kappa (LANDIS e KOCH, 1977)

Para verificar a concordância ou discordância entre os momentos “TESTE” e “RETESTE”, foi realizado o cálculo de CCI que avaliou a soma da pontuação total alcançada no ShOM. Foi verificada uma fraca confiabilidade na primeira análise e uma forte confiabilidade (0,6 a 0,8) na segunda, como descrito na tabela.

Tabela 10 - Coeficiente de correlação intraclassa (CCI) do valor total

ShOM total	CCI – primeira análise	CCI – segunda análise
	0,442	0,807

Legenda: ShOM Total= pontuação total do *Short evaluation of orofacial myofunctional protocol*; CCI= Coeficiente de Correlação Intraclassa

Etapa 3 – Análise da acurácia ShOM

Nesta etapa foram analisados os resultados das 20 crianças com SD que completaram os questionários do sono, PSQ e OSA-18, PSG tipo III e avaliação fonoaudiológica por meio dos protocolos ShOM e AMIOFE-E. A amostra foi composta por 7 crianças do sexo masculino e 13 feminino, com mediana para idade de 10 anos (quartis 25-75:7-11), idade mínima de 4 anos e máxima de 15 anos. Em relação aos dados nutricionais, conforme o critério de cálculo do escore-Z (BRASIL,

MINISTÉRIO DA SAÚDE, 2011), foi observado peso saudável em 7 (35%) crianças, sobrepeso em 5 (20%) e obesidade em 8 (40%) crianças.

Em relação aos dados polissonográficos, a amostra foi composta por 1 criança com IAH dentro da normalidade, 3 com AOS leve, 7 com AOS moderada e 9 com AOS grave. As variáveis analisadas estão na tabela abaixo.

Tabela 11 - Variáveis polissonográficas (n=20)

	IAH	AO	AC	AM	HIP0	SpO2 MÍN	SpO2 MÉD	SpO2<90%
Mediana	9,15	2,20	1,70	0,00	4,20	85,5	96,0	0,20
Mínimo	0,500	0,00	0,00	0,00	0,00	51	83	0,00
Máximo	66,9	43,8	19,8	1,10	22,1	92	98	48,3
25º percentil	6,67	0,675	0,150	0,00	1,50	77,5	95,0	0,00
50º percentil	9,15	2,20	1,70	0,00	4,20	85,5	96,0	0,20
75º percentil	20,8	3,52	4,05	0,025	8,67	88,3	96,3	3,27

Legenda: IAH = índice de apneia/hipopneia; AO = apneias obstrutivas; AC = apneias centrais; AM= apneias mistas; Hipo= hipopneias; SpO2 MIN = índice saturação de oxigênio mínima; SpO2 MED = índice saturação de oxigênio média; SpO2<90% = tempo de saturação de oxigênio abaixo de 90%.

Nos questionários relacionados ao sono, a mediana da pontuação do PSQ foi 9 (25-75: 6,75-11) e do OSA-18 foi 63,5 (25-75: 43,3-88,8). Os resultados dos domínios analisados em cada questionário estão nas tabelas 12 e 13.

Segundo o questionário PSQ, 11 crianças apresentaram alto risco para AOS, pontuação igual ou acima de 9. Para os resultados do questionário OSA-18, 9 crianças foram identificadas com pequeno impacto na qualidade de vida, 4 com impacto moderado e 7 com grande impacto na qualidade de vida.

Tabela 12 – Resultados do Questionários do Sono – PSQ (n=20)

Domínios	PSQ SONOLÊNCIA	PSQ RONCOS	PSQ HIPERATIVIDADE	PSQ TOTAL
Mediana	4	1	4	9
Mínimo	0	0	0	2
Máximo	9	7	6	20
25º percentil	2	0	3	6,75
50º percentil	4	1	4	9
75º percentil	6	2.25	5	11

Legenda: PSQ= *Pediatric Sleep Questionnaire*; PSQ total = soma de todos os domínios do PSQ

Tabela 13 – Resultados do Questionários do Sono – OSA-18 (n=20)

Domínios	D.I.M.S	D.R.S	D.D	D.T.S.V	S.E.D	HIPER	OSA-18 TOTAL
Mediana	14	7,5	5	14	6	2,50	63,5
Mínimo	7	3	3	6	5	2	30
Máximo	27	15	11	26	21	10	107
25º percentil	9,75	4	3,75	9	5	2	43,3
50º percentil	14,0	7,50	5	14	6	2,50	63,5
75º percentil	19,8	1	7,25	15,3	9,25	7,75	88,8

Legenda: D.I.M.S = Distúrbio do início ou manutenção do sono; D.R.S = Distúrbio respiratório do sono; D.D = Distúrbio do despertar; D.T.S.V = Distúrbio de transição sono-vigília; S.E.D = Sonolência excessiva diurna; HIPER= hiperatividade; OSA-18 TOTAL 1= somatório dos domínios; OSA-18 TOTAL = somatório dos domínios mais a taxa global de qualidade de vida

Na avaliação miofuncional orofacial, foi possível analisar 7 dos 10 itens que compõem o protocolo ShOM (modo respiratório, competência labial, tônus labial, posição da língua, posição da língua na deglutição, oclusão dentária e teste de *Rosenthal*). A mediana do grupo foi 5,5 (25-75:4-6), sendo observada pontuação mínima =2 e máxima =7.

Tabela 14 – Resultados de cada teste isolado do ShOM

<i>ShOM</i>	<i>SD (n=20)</i>		
Pontuação máxima = 7	<i>Alterado</i>	<i>Normal</i>	<i>Não conclusivo</i>
<i>Modo Respiratório</i>	15 (75%)	5 (25%)	
<i>Competência labial</i>	10 (50%)	10 (50%)	
<i>Tônus labial</i>	14 (70%)	6 (30%)	
<i>Posição da língua</i>	18 (90%)	2 (10%)	
<i>Posição da língua na deglutição</i>	20 (100%)	0	
<i>Oclusão dentaria</i>	12 (60%)	8 (40%)	
<i>Teste de Rosenthal</i>	14 (70%)	5 (25%)	1 (5%)

Legenda: ShOM = Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol; SD = Síndrome de Down

Quanto aos aspectos relacionados à mastigação, o grupo obteve uma mediana de 10,5 (25-75: 9,75-11,3), sendo que 3 crianças não aceitaram o alimento, não sendo possível avaliar a mastigação. As principais características encontradas estão na tabela 15.

Tabela 15 – Resultados do AMIOFE-E - Mastigação

<i>Mastigação</i>		<i>SD (N=17)</i> 3 crianças recusaram o alimento
Mordida	Normal (Mordida com os dentes incisivos)	12 (70%)
	Mordida com os caninos ou pré-molares	5 (29,4%)
Tipo	Mastigação anterior	11 (64,7%)
	Mastigação preferencial tipo 1 e 2	4 (23,4%)
Outros comportamentos presents	Movimento de cabeça ou partes do corpo	15 (88,2%)
	Postura alterada	10 (58,8%)
	Escape de alimento	5 (29,4%)

Legenda: SD = Síndrome de Down

No teste de deglutição, o grupo obteve mediana de 16 (25-75:14-16,3). Foram observadas alterações na postura e função de lábios e língua (tabela 16).

Tabela 16 – Resultados do AMIOFE-E - Deglutição

	<i>Deglutição</i>	<i>SD (N=19)</i> <i>1 criança não aceitou alimento ou líquido</i>
LÁBIOS	Oclusão normal	0
	Com esforço leve	9 (47,3%)
	Com esforço moderado	4 (21%)
	Com esforço severo	0
	Não cumpre	6 (31,5%)
LÍNGUA	Contida na cavidade oral	1 (5,2%)
	Interposta aos dentes (ou rebordos)	9 (47,3%)
	Interposta aos dentes	3 (15,7%)
	Protruída em excesso	4 (21%)
Outros comportamentos presents	Movimentação da cabeça ou outras partes do corpo	10 (52,6%)
	Deslize da mandíbula	3 (15,7%)
	Tensão da musculatura facial	4 (21%)
	Escape de alimento	11 (57,8%)
	Engasgo	6 (31,5%)
	Ruído	2 (10,5%)

Legenda: SD = Síndrome de Down

Após a obtenção dos dados de todas as avaliações, foi realizada a aplicação do teste de coeficiente de correlação de *Spearman*, sendo observada uma correlação positiva entre o ShOM e IAH ($p=0,007$), entre o ShOM e AO ($p=0,14$), entre o ShOM e AM ($p=0,017$). Também foi verificada correlação entre a pontuação no teste de Mastigação (AMIOFE-E) e hipopneias ($p=0,045$), teste de mastigação e SpO2 mínima, SpO2 média e SpO2<90% ($p= 0,02$, $p=0,001$, $p=0,02$). A pontuação do teste de deglutição (AMIOFE-E) apresentou correlação com número de hipopneias ($p= 0,02$) conforme consta na tabela abaixo.

Tabela 17 – Correlação entre os dados miofuncionais orofaciais e as variáveis polissonográficas (n=20)

		IAH	AO	AC	AM	HIPO	SpO2 MIN	SpO2 MED	SpO2< 90%	N
ShOM	Rho de Spearman	0,586	0,539	0,082	0,526	0,338	-0,32	-0,113	0,227	20
	p-value	0,007**	0,014*	0,731	0,017*	0,145	0,168	0,634	0,337	
AMIOFE-E mastigação	Rho de Spearman	-0,406	-0,068	0,055	-0,344	-0,453	0,64	0,702	-0,622	17
	p-value	0,076	0,774	0,819	0,137	0,045*	0,002**	<,001***	0,003**	
AMIOFE-E deglutição	Rho de Spearman	-0,383	0,125	0,127	-0,25	-0,644	0,309	0,276	-0,224	19
	p-value	0,095	0,6	0,595	0,289	0,002**	0,184	0,238	0,342	

Nota. * p < ,05 ** p < ,01 *** p < ,001

Legenda: ShOM = Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol; AMIOFE-E mastigação= Protocolo de Avaliação Miofuncional com Escores Expandido;; AMIOFE-E deglutição; IAH = índice de apneia/hipopneia; AO = apneias obstrutivas; AC = apneias centrais; AM= apneias mistas; Hipo= hipopneias; SApO2 MIN = índice saturação de oxigênio mínima; SpO2 MED= índice saturação de oxigênio média; SpO2<90%= tempo de saturação de oxigênio abaixo de 90%.

Em relação aos questionários PSQ e OSA-18, não foram identificadas correlações com a condição miofuncional orofacial avaliada por meio do ShOM e AMIOFE-E.

Tabela 18 - Correlação entre os dados miofuncionais orofaciais e questionário PSQ (n=20)

		PSQ S	PSQ R	PSQ H	PSQ TOTAL
ShOM	Rho de Spearman	0,045	0,293	0,241	0,241
	p-value	0,85	0,21	0,306	0,305
AMIOFE-E mastigação	Rho de Spearman	-0,17	-0,261	0,03	-0,231
	p-value	0,474	0,267	0,901	0,328
AMIOFE-E deglutição	Rho de Spearman	-0,225	0,091	-0,198	-0,158
	p-value	0,34	0,704	0,402	0,506

Nota. * p < ,05 ** p < ,01 *** p < ,001

Legenda: ShOM = Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol; AMIOFE-E mastigação= Protocolo de Avaliação Miofuncional com Escores Expandido; AMIOFE-E mastigação; AMIOFE-E deglutição; PSQ= Pediatric Sleep Questionnaire; PSQ S= sonolência; PSQ R= roncos; PSQH= hiperatividade; PSQ Total= soma dos pontos de cada item.

Tabela 19- Correlação entre os dados miofuncionais orofaciais e questionário OSA-18 (n=20)

		OSA-18 DIMS	OSA-18 DRS	OSA-18 DD	OSA-18 DTSV	OSA-18 SED	OSA-18 H	OSA-18 TOTAL
ShOM	Rho de Spearman	-0,012	-0,016	0,198	-0,008	-0,019	0,025	0,077
	p-value	0,959	0,945	0,402	0,974	0,935	0,917	0,747
AMIOFE-E mastigação	Rho de Spearman	0,267	-0,375	-0,082	-0,156	0,029	-0,321	-0,019
	p-value	0,301	0,138	0,754	0,55	0,913	0,209	0,943
AMIOFE-E deglutição	Rho de Spearman	0,403	-0,269	-0,213	-0,064	-0,296	-0,057	0,114
	p-value	0,087	0,265	0,381	0,795	0,219	0,815	0,643

Nota. * $p < ,05$ ** $p < ,01$ *** $p < ,001$

Legenda: ShOM = Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol; AMIOFE-E mastigação= Protocolo de Avaliação Miofuncional com Escores Expandido; AMIOFE-E deglutição; D.I.M.S = Distúrbio do início ou manutenção do sono; D.R.S = Distúrbio respiratório do sono; D.D = Distúrbio do despertar; D.T.S.V = Distúrbio de transição sono-vigília; S.E.D = Sonolência excessiva diurna; HIPER= hiperatividade; OSA-18 TOTAL = somatório dos domínios mais a taxa global de qualidade de vida

Os resultados da análise da sensibilidade, especificidade, valor preditivo do teste positivo (VPP), valor preditivo do teste negativo (VPN) e acurácia do protocolo ShOM para a identificação de risco da AOS moderada e grave por meio da elaboração da tabela de contingência, demonstraram: sensibilidade = 86,67%; especificidade = 60,67%; VPP = 86,67%; VPN = 60% e acurácia = 80%, conforme a tabelas 20 e 21.

Tabela 20 – Tabela de contingência entre os dados do ShOM e o IAH (n=20)

SHOM	DOENTES	NÃO DOENTES
TESTE +	13 (doentes com teste +)	2 (sadios com teste+)
TESTE -	2 (doentes com teste -)	3 (sadios com teste -)

Legenda: Ponto de corte foi de 5 (obtido por meio do programa Bioestat 5.3)

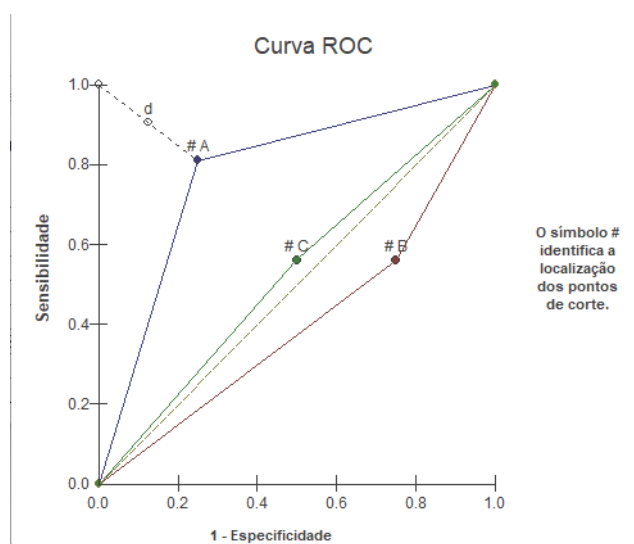
Na análise comparativa entre os três protocolos, PSQ, OSA-18 e ShOM, a curva ROC sinalizou superioridade do ShOM na identificação de AOS moderada e grave apresentando uma menor distância ($d=0,42$) ao teste padrão ouro, PSG, e uma maior área sobre a curva ($AUC=0,73$), conforme tabela e gráfico a seguir.

Tabela 21 – Dados comparativos entre os protocolos ShOM, PSQ e OSA-18

Resultados	Curva A – ShOM	Curva B – PSQ	Curva C – OSA-18
Total de Doentes	16	16	16
Total de Sadios	4	4	4
Ponto de corte	(0,40, 0,86)	(0,75, 0,56)	(0,50, 0,56)
Distância (d)	0,42	0,87	0,67
Área	0,73	0,40	0,53
Sens. e Espec. (P. Corte)	0,88 e 0,66	0,56 e 0,25	0,56 e 0,50
Acurácia	0,80	0,50	0,55
VVP e VPN	0,86 e 0,60	0,81 e 0,22	0,81 e 0,22
Erro padrão	0,1299	0,167	0,1631
IC 95% (Área)	0,5153 a 1,0	0,076 a 0,733	0,2103 a 0,8497

Legenda: VPP= valor preditivo positivo; VPN= valor preditivo negativo; IC= intervalo de confiança 95%

Gráfico 2 – Curva ROC - PSQ, OSA-18 e ShOM (N=20)



Legenda: Curva A= ShOM; Curva B= PSQ; Curva C= OSA-18

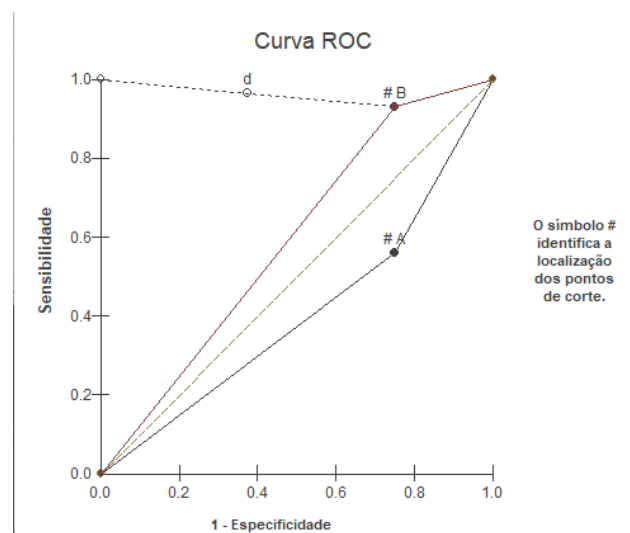
Após a identificação da confiabilidade do PSQ aplicado isoladamente, foi avaliada a associação entre o ShOM e o PSQ na identificação de AOS moderada e grave. O resultado demonstrou melhora na sensibilidade, especificidade e acurácia, conforme tabela abaixo.

Tabela 22 – Resultados comparativos entre o PSQ isolado e em associação ao ShOM na identificação de AOS moderada e grave (n=20)

Resultados	Curva A - PSQ	Curva B – PSQ + ShOM
Total de Doentes	16	16
Total de Sadios	4	4
Ponto de corte	(0,75, 0,56)	(0,75, 0,93)
Distância (d)	0,87	0,75
Área	0,40	0,59
Sens. e Espec. (P. Corte)	0,56 e 0,25	0,93 e 0,25
Acurácia	0,55	0,80
VPP e VPN	0,81 e 0,22	0,83 e 0,50
Erro padrão	0,167	0,156
IC 95% (Área)	0,076 a 0,73	0,283 a 0,896

Legenda: PSQ=*Pediatric sleep questionnaire*; ShOM= *Short evaluation of orofacial myofunctional protocol* VPP= valor preditivo positivo; VPN= valor preditivo negativo; IC= intervalo de confiança 95%

Gráfico 3 – Curva ROC do PSQ e da associação do ShOM ao PSQ (N=20)



Legenda: Curva A= PSQ; Curva B = PSQ associado ao ShOM

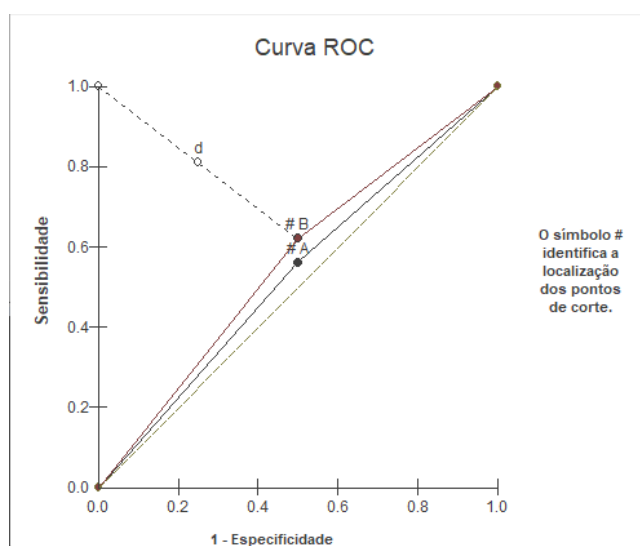
Também foram analisados os resultados do OSA-18 isolado e em associação com o ShOM para identificação da AOS moderada e grave. Conforme resultados descritos na tabela e gráfico a seguir, não foi verificada melhora da sensibilidade, especificidade e acurácia em relação ao diagnóstico da AOS.

Tabela 23 – Resultados comparativos entre OSA-18 isolado e em associação ao ShOM na identificação de AOS moderada e grave (n=20)

Resultados	Curva A – OSA-18	Curva B – OSA-18 + ShOM
Total de Doentes	16	16
Total de Sadios	4	4
Ponto de corte	(0,50, 0,56)	(0,50, 0,62)
Distância (d)	0,67	0,63
Área	0,543	0,63
Sens. e Espec. (P. Corte)	0,55 e 0,60	0,62 e 0,50
Acurácia	0,55	0,60
VPP e VPN	0,81 e 0,22	0,83 e 0,25
Erro padrão	0,1584	0,1601
IC 95% (Área)	0,2646 a 0,885	0,2461 a 0,873

Legenda: OSA-18; ShOM= *Short evaluation of orofacial myofunctional protocol*; VPP= valor preditivo positivo; VPN= valor preditivo negativo; IC= intervalo de confiança 95%

Gráfico 4 – Curva ROC do OSA-18 e da associação do ShOM ao OSA-18 (N=20)



Legenda: Curva A= OSA-18; Curva B = OSA-18 associado ao ShOM

6. DISCUSSÃO

A investigação da AOS na SD é recomendada pela Academia Americana de Pediatria precocemente aos 6 meses, quando há sintomas como respiração “pesada”, roncos, posição incomum ao dormir, sonolência diurna, paradas respiratórias e problemas comportamentais (BULL et al., 2022). Na ausência de queixas durante as visitas pediátricas de rotina, é sugerida a realização da polissonografia (PSG) tipo I, de noite inteira, assistida em laboratório e com sete canais de monitorização. Haja vista que entre 31% e 79% das crianças com SD são acometidas com a AOS e que a prevalência de AOS moderada a grave é maior em crianças mais novas (LEE et al., 2018), a recomendação é realizar a PSG em todas as crianças com SD entre 3 e 4 anos de idade (GOFFINSKI et al., 2015; HIZAL et al., 2022; BULL et al., 2022).

Embora muito prevalente, a AOS na SD ainda é subdiagnosticada e apresenta uma grande variedade de comorbidades como as disfunções neurocognitivas e de aprendizagem, alterações comportamentais, cardiovasculares e metabólicas (LEE et al., 2018; LUMENG e CHERVIN, 2008). Mesmo em um ambiente acadêmico, como o local de desenvolvimento deste estudo, a acessibilidade da criança com SD a PSG ainda é restrita e mais tardia do que o recomendado. Este fato se relaciona ao elevado custo do exame, reduzida oferta de serviços com equipamentos e profissionais capacitados para a realização da PSG na população pediátrica, além do exame ser pouco tolerado pelas crianças, em especial as com SD (MARTINS et al., 2022; VELOSO et al., 2021).

A PSG tipo I é o exame padrão preconizado para diagnóstico de distúrbios do sono, incluindo a AOS na criança. No entanto, neste estudo foi utilizada a PSG tipo III, sendo uma alternativa válida em razão da alta demanda; necessidade do diagnóstico precoce na população pediátrica de risco para AOS; pela disponibilidade do equipamento no serviço; pela maior facilidade da execução devido à menor complexidade e pelo custo reduzido em relação à PSG tipo I.

A PSG tipo III é realizada por um aparelho portátil, com 4 canais, incluindo ventilação, frequência cardíaca ou eletrocardiograma e saturação periférica de oxigênio, e sem supervisão durante o exame. Em adultos, a PSG tipo III já é considerada confiável para o diagnóstico da AOS, evidenciando uma boa correlação ao IAH. A literatura sugere que a polissonografia tipo III subestimaria os valores reais do IAH (GOZAL et al., 2015), entretanto, no presente estudo foi verificado um maior percentual de apneias moderadas e graves, de forma que foi possível identificar os casos mais graves e que conseqüentemente, requerem uma intervenção com maior celeridade (SANTOS-SILVA et al., 2009; CERTAL et al., 2009; WEBER et al., 2015; VELOSO, 2021).

No serviço em que foi realizado o estudo, a PSG III é realizada com a obrigatoriedade da mãe (ou responsável) e da criança dormirem uma noite no laboratório do sono, podendo ser um dos motivos da desistência de algumas famílias na participação no estudo. A criança com SD é menos colaborativa, sendo difícil a manutenção dos eletrodos da monitorização, desta forma, mesmo com menos eletrodos, 6 crianças não finalizaram a PSG III e conseguiram somente uma monitorização por meio da PSG tipo IV (SKOTKO et al., 2017). Outro fator que, possivelmente, tenha contribuído para o não comparecimento às consultas e à PSG foi em razão das convocações dos pacientes terem ocorrido no período da pandemia e pós pandemia do COVID-19.

A elevada taxa de diagnóstico de AOS na amostra desse estudo, provavelmente está relacionada a maior adesão às convocações das crianças com mais queixas e maior clínica, muito embora, a literatura cita a prevalência da AOS na criança com SD entre 31% e até 97%, a depender do critério de diagnóstico considerado e da idade (AUSTENG et al., 2014; SKOTKO et al., 2017, BULL et al., 2022). A prevalência da AOS nesse estudo foi de 97%, no entanto, por ser uma amostra de conveniência, não é possível extrapolar esses números para a comunidade em que foi realizado o estudo determinando assim, a quantidade de casos de AOS em crianças com SD.

A faixa etária mediana das crianças incluídas nesta etapa 1 coincide com os dados descritos por outros estudos na população pediátrica geral, como o de Arens et al. (2010) e Hizal et al. (2022). O período de maior incidência da AOS na criança é entre 2 e 8 anos de idade devido à presença dos fatores obstrutivos como aumento dos tecidos linfóides em VAS (ARENS et al., 2010). Diez et al. (2003) descrevem como fatores preditivos para a AOS, crianças com idade abaixo de 8 anos, do sexo masculino e com hipertrofia adenotonsilar (HIZAL et al., 2022).

Ressalta-se que crianças com SD podem ter um crescimento maturacional mais lento do que as crianças em geral, apresentando um porte físico menor (BULL, 2022). Entre os extremos de idade desta amostra, foram consideradas 4 crianças com 2 anos e 3 acima de 12 anos, cujos sinais de puberdade ainda não estavam desenvolvidos. A criança de 15 anos, apesar de ter iniciado puberdade, ainda possuía estrutura corporal mais infantil, motivo pelo qual ainda teve seu exame laudado pelos critérios pediátricos, seguindo a recomendação da AASM (2015) para a avaliação de crianças e adolescentes. Outro fator relevante para manutenção da inclusão destas crianças é que os questionários do sono, PSQ e OSA-18, são validados até os 18 anos e os protocolos de avaliação miofuncional são aplicáveis a todas as faixas etárias.

Em razão das dificuldades elencadas quanto à realização do exame padrão ouro para diagnóstico da AOS, a validação de instrumentos de rastreio para risco de AOS na população

pediátrica com SD se faz necessária, entretanto, até o momento, não há robustez científica para o uso dessas ferramentas como preditivas de presença e de gravidade da AOS.

Os resultados dos questionários PSQ e OSA-18 revelaram alto risco de AOS na população estudada e impacto moderado na qualidade de vida, porém, a pontuação alcançada pode estar relacionada a uma amostra com viés de seleção, tendo em vista que compareceram aos exames, famílias com mais queixas e crianças com mais sinais clínicos.

O estudo transversal populacional conduzido por Hoffimen et al. (2014), entre 2009-2011, sobre os distúrbios do sono em 107 crianças e adolescentes com SD de 7 a 17 anos, analisou o uso do PSQ e do questionário *Childhood Sleep Habits Questionnaire* (CSHQ), como instrumentos auxiliares no diagnóstico da AOS. Como conclusão, 46% da amostra apresentou resultados positivos para problemas respiratórios relacionados ao sono, porém, 66% dos pais/responsáveis que responderam o PSQ, não tinham a percepção dos problemas de sono dos seus filhos, reforçando o fato de que ainda há uma reduzida percepção das famílias em relação aos distúrbios de sono.

Os instrumentos de rastreio relacionados ao sono da criança, como os questionários PSQ, OSA-18 (FERNANDES e TELES, 2013; BITNERS e ARENS, 2020) e os citados no estudo de Skotko et al. (2017) – CSHQ e *Sleep Disorders Scale* (SRBD), fazem parte da rotina de investigação de indivíduos com transtornos do sono, auxiliando na identificação de risco para o diagnóstico da AOS. São ferramentas complementares, importantes na impossibilidade da realização da PSG, considerados de fácil e rápida aplicação e buscam analisar a presença de sintomas, frequência, repercussões físicas e comportamentais. No entanto, a validação desses questionários na criança é limitada, uma vez que somente 13% a 27% dos pais/responsáveis reconhecem a existência de problemas relacionados ao sono das suas crianças (CARVALHEIRO et al., 2017). No estudo realizado por Shott et al. (2006), pais de 35 crianças com SD responderam a perguntas do CSHQ relacionadas à presença de roncos noturnos e dificuldade para respirar. Posteriormente, as crianças foram submetidas à PSG e apenas 36% daquelas que tiveram problemas de sono relatados pelos pais apresentaram sinais de AOS; em contrapartida, 54% das crianças cujos pais não mencionaram dificuldades, apresentaram resultados alterados no exame de sono.

O PSQ investiga diferentes aspectos da qualidade do sono, roncos e questões comportamentais como desatenção e hiperatividade. Em sua versão original, apresenta sensibilidade entre 81% e 87% em identificar crianças típicas com AOS moderada a grave quando comparada à PSG (CHERVIN et al., 2000; MARTINS et al., 2022). Na versão traduzida para o português (PSQ-Brasil) apresentou alta acurácia, sensibilidade de 92%, especificidade de 100%, demonstrando que a avaliação da qualidade

de sono pode ser um importante parâmetro com boa confiabilidade na identificação de crianças com potencial de risco para AOS (PANZARELLA et al., 2021).

O OSA-18 reflete o impacto do sono na qualidade de vida das crianças, considerando o sofrimento físico, sofrimento emocional, problemas diurnos e preocupação dos pais. No entanto, na amostra estudada, não foi identificada uma correlação entre a pontuação mediana, que representa impacto moderado na qualidade de vida, e o IAH. Os resultados apresentados confirmam os dados já descritos nos *guidelines* do *European Respiratory Society Task Force*, que sugerem que o questionário possui reduzida sensibilidade e especificidade (PANZARELLA et al., 2021; BORGSTRÖM, NERFELDT e FRIBERG, 2013).

Comparando com os dados deste estudo na etapa 1 quanto à sensibilidade, especificidade e acurácia, o PSQ em crianças com SD evidenciou discreta superioridade ao OSA-18, embora tenha apresentado sensibilidade e especificidade significativamente inferiores aos valores do PSQ-Brasil em crianças típicas. Em relação ao OSA-18, os resultados corroboram os estudos que apresentam baixa sensibilidade e especificidade, reiterando a reduzida percepção das famílias diante do distúrbio respiratório (CHERVIN et al., 2000; HOFFIMEN et al., 2014; CARVALHEIRO et al., 2017).

A identificação de marcadores clínicos com potencial de predição da AOS em crianças com SD facilitaria o diagnóstico precoce e tratamento, bem como a prevenção ou redução de morbididades. Até o momento, a literatura apresenta associação inconsistente ou frágil entre preditores clínicos e biomarcadores para a presença de AOS na referida população (HANNA et al., 2023).

Apesar das controvérsias em relação aos preditores clínicos, em um estudo de coorte prospectivo conduzido no *Boston Children's Hospital* e no *Massachusetts General Hospital*, um modelo lógico foi criado a partir da análise de uma série de variáveis com objetivo de rastreio para AOS, como: idade, sexo, raça, altura, peso, IMC, pressão arterial, saturação de oxigênio, circunferência de pescoço, macroglossia, classificação de Mallampati, escala de Friedman e Brodsky, tratamento para asma, refluxo gastroesofágico, doenças da tireoide, além dos questionários do sono PSQ, CSHQ e SRBD. Foi calculado um valor preditivo negativo de 73% para casos leves e de 90% para casos moderados ou graves e valores preditivos positivos de 55% e 25%, respectivamente. Conforme o estudo, dentre as 101 variáveis analisadas, as mais relevantes foram os questionários CSHQ, SRDB e percentil de hipertensão (SKOTKO et al., 2017; SANTOS et al., 2021).

Florig (2019) apresenta uma retrospectiva sobre o desempenho dos questionários do sono em crianças com SD com idade entre 2 e 18 anos. A autora identificou em sua amostra uma fraca a moderada correlação entre os questionários SRDB-PSQ e OSA-18 em crianças com SD e os

resultados da polissonografia. Assim, apesar desses questionários serem ferramentas importantes e mundialmente utilizadas na identificação de riscos para distúrbios do sono, mais estudos são necessários a fim de avaliar a interpretação e aplicabilidade na população pediátrica com SD (FLORIG, 2019).

Dyken et al. (2003) afirmam haver uma associação entre IMC mais elevado em crianças mais velhas e AOS severa. Esta correlação entre obesidade e AOS é comprovada na população adulta, no entanto, ainda há controvérsias quando se trata de crianças (HANNA et al., 2022). Nesta população estudada, 25% das crianças apresentaram sobrepeso e 40%, obesidade, mas sem correlação com o IAH. Além dos aspectos nutricionais, é importante ressaltar que a amostra possui outras características influenciadoras na gravidade do distúrbio além do IMC elevado, quais sejam, a própria condição genética, questões metabólicas, fatores nutricionais comportamentais e comprometimento da morfologia, tônus muscular e funcionalidade das estruturas orofaríngeas e do trato respiratório (FELÍCIO et al., 2010; HANNA et al., 2022).

Em relação à idade, a mediana do grupo da etapa 3, 10 anos, ou seja, acima da indicada com maior potencial de risco pelos autores, entre 2 e 8 anos, pode estar relacionada ao atraso do desenvolvimento físico global e aos dados nutricionais de crianças com SD. Não houve diferença estatística nos resultados entre os sexos feminino e masculino (GOFFINSKI et al., 2015; FRIEDMANN et al., 2017; BULL, 2022). Portanto, os resultados do presente estudo corroboram a literatura que afirma que fatores como idade, sexo, achados clínicos, dados antropométricos e presença de comorbidades, a não ser a doença cardíaca congestiva, não podem ser considerados preditivos da severidade da AOS em crianças com SD (HANNA et al., 2022; HIZAL et al., 2022).

A mensuração do índice de apneias e hipopneias (IAH), apneias centrais (AC) e saturação de oxigênio é um dos importantes marcadores de gravidade da AOS, uma vez que, as dessaturações de oxigênio repetidas ao longo da noite estão relacionadas à fragmentação do sono e, conseqüentemente, ao prejuízo quantitativo e qualitativo do sono. A AC não é um achado comum na infância, a não ser que esteja relacionada a alguma condição médica. A associação da AOS e AC poderia ser explicada, pois a hipóxia induzida pelos eventos obstrutivos sensibiliza as células glômicas, levando a AC nos períodos sem obstrução (GUIRARDO et al., 2021). Na SD, a AC pode estar condicionada à própria hipotonia, ao comprometimento do sistema nervoso central, à presença de refluxo ácido e relacionada à idade, sendo mais frequente em crianças mais novas (0-3 anos), cuja maturação neurológica e respiratória ainda não foi alcançada (FAN et al., 2017). No grupo estudado, além das apneias obstrutivas e hipopneias, também foi verificada a presença de AC, mas em sua maioria não atingiu o

índice considerado patológico, que na criança é acima de 5 eventos por hora de sono. Dessa forma, mesmo não sendo o objetivo deste estudo dissertar sobre a AC na SD, é válido ressaltar a importância da detecção da hipóxia intermitente ocasionada pela AOS e pela AC, uma vez que impacta no crescimento e no desenvolvimento infantil, com consequências negativas para as funções cognitivas e de aprendizagem, corroborando a importância do diagnóstico precoce (HIZAL et al., 2022; DIKEN et al., 2003; DEL-RIO CAMACHO et al., 2019).

Conforme discutido anteriormente, a alta prevalência da AOS na SD ocorre, especialmente, devido aos fenótipos relacionados à hipotonia muscular e às características craniofaciais, como a hipoplasia de terço facial médio e da base craniana, questões metabólicas e doenças do refluxo (LEE et al., 2020; STORES e STORES 2013; GOFFINSKI et al., 2015; LUMENG e CHERVIN, 2018).

A condição muscular e as funções orofaciais e faríngeas de crianças com SD contribuem para o colapso da VAS, de forma completa, durante as apneias, e/ou parcial, durante as hipopneias obstrutivas do sono, ambas diretamente relacionadas ao IAH, como citado anteriormente, um dos parâmetros de gravidade da AOS (JAYARATNE et al., 2017). Em razão dessa associação entre o fenótipo neuromuscular e o desenvolvimento da AOS, Corrêa et al. (2020) descreveram um protocolo breve de avaliação miofuncional orofacial, o *Short evaluation of orofacial myofunctional protocol* (ShOM), em crianças com queixas respiratórias. Estudos demonstram que crianças que realizaram terapia miofuncional orofacial após adenotonsilectomia tiveram melhores desfechos clínicos e nos resultados da PSG (LEE et al., 2015 e Villa et al., 2017), fato que evidencia a importância da avaliação da condição miofuncional orofacial, assim como a reabilitação por meio da terapia miofuncional orofacial.

Com vistas à investigação da condição miofuncional orofacial das crianças com SD deste estudo, 20 crianças foram submetidas ao ShOM. Todas apresentaram alterações miofuncionais orofaciais com níveis variados de comprometimento das estruturas orais quanto à competência e tônus de lábios, postura da língua e alterações nas funções de respiração, mastigação e deglutição. Foi verificada uma correlação positiva ($p=0,007$) entre a pontuação alcançada no protocolo ShOM e o IAH, entre o ShOM e o número de apneias obstrutivas ($p=0,014$) e entre o ShOM e o número de apneias mistas ($p=0,017$), sugerindo assim, que quanto maior a pontuação no ShOM, ou seja, quanto maior o comprometimento miofuncional orofacial, maior a gravidade da AOS.

Foram considerados 7 dos 10 itens que compõem o protocolo ShOM original, sendo excluídos os testes do tipo respiratório, tônus nasal e espelho de *Glatzel*. Tal fato se deu pela dificuldade de compreensão dos indivíduos da amostra acerca dos comandos para execução dos testes excluídos ou

pela dificuldade de análise exclusiva por meio dos vídeos. Ressalta-se que este protocolo objetiva identificar as alterações miofuncionais orofaciais frequentes na população pediátrica com alterações respiratórias obstrutivas do sono, de forma rápida e padronizada (Corrêa et al., 2020).

A validação do protocolo ShOM em crianças com SD foi realizada a partir da análise de confiabilidade entre os examinadores (juízes) em relação a um mesmo indivíduo. Do grupo de 20 crianças que foram submetidas à avaliação fonoaudiológica, 16 crianças foram avaliadas separadamente por duas fonoaudiólogas experientes na área de Motricidade Orofacial. A avaliação ocorreu em 2 momentos, com intervalo entre 6 e 12 meses. A verificação de concordância interjuízes Kappa, que avaliou individualmente cada teste do ShOM, evidenciou excelente confiabilidade para postura da língua na deglutição; confiabilidade forte para o Teste de Rosenthal; moderada para modo respiratório, competência labial e postura de língua; e fraca para tônus labial e oclusão. Na pontuação total do ShOM, após os momentos “TESTE” e “RETESTE”, foi verificada uma forte confiabilidade, sugerindo que o questionário ShOM é exequível de aplicação na população pediátrica com SD.

A pontuação mediana geral no ShOM correspondeu a 78% da pontuação máxima adotada (7 pontos), sendo observada respiração predominantemente oral ou mista, alteração no tônus labial e na competência labial, alteração na postura de língua em repouso e na postura de língua na deglutição, alteração na oclusão dentária e no Teste de Rosenthal. Esses achados foram semelhantes aos resultados do estudo de Corrêa et al. (2020), em que crianças brasileiras e italianas típicas com AOS foram avaliadas por PSG e submetidas aos protocolos ShOM, OSA-18 e *Sleep clinical Record* (SCR), um protocolo italiano que analisa parâmetros clínicos e sintomas para estimar o risco para a AOS. A pontuação média das crianças típicas com AOS no ShOM do estudo citado, correspondeu a 54% da pontuação máxima adotada (10 pontos). Assim, comparativamente, as crianças com SD e AOS expressaram uma pontuação mais elevada do que as crianças típicas com AOS, sugerindo assim, um maior comprometimento miofuncional orofacial, condição essa, já esperada, tendo em vista a fenotipia da síndrome genética em questão.

Devido às frequentes dificuldades alimentares descritas em indivíduos com SD, como hábitos alimentares não saudáveis, consistência alimentar preferencialmente pastosa, dificuldade de introdução de novos alimentos e engasgos (CAÑIZARES-PRADO et al., 2022), dificuldades essas que se relacionam diretamente à condição miofuncional orofacial, também foram avaliadas a mastigação e a deglutição por meio do protocolo AMIOFE-E (FELÍCIO et al., 2010).

As alterações craniofaciais, déficits relacionados ao controle motor, hipotonia dos músculos da face e orofaringe (MIZUKAMI et al., 2019) e comprometimento cognitivo/intelectual são fatores

causais relacionados às desordens na sucção, mastigação e deglutição. Os padrões mastigatórios observados na amostra estudada como mastigação anterior com movimentos verticalizados, movimentos de cabeça ou outra parte do corpo associados, postura alterada e escape de alimentos correspondem aos padrões descritos na literatura (CLAVÈ e SHAKER, 2015; MIZUKAMI et al., 2019; USMAN et al., 2023). A pontuação obtida no teste da mastigação no AMIOFE-E demonstrou correlação com as variáveis polissonográficas: hipopneias, SpO2 mínima, SpO2 média e SpO2<90%, sugerindo que uma pior condição do tônus e controle dos músculos mastigatórios se correlaciona com a obstrução parcial de VAS e, conseqüentemente, com a queda na oxigenação.

As dificuldades na deglutição de crianças com SD podem ser atribuídas a uma mastigação não eficiente, sem a devida trituração e pulverização dos alimentos; à alteração da percepção intraoral do alimento; ao reduzido controle motor dos músculos da língua, lábios, bochechas e palato mole em associação com padrão de respiração oral. As desordens da deglutição identificadas por meio do teste de deglutição do protocolo AMIOFE-E foram: dificuldades no adequado selamento labial e conseqüentemente na pressão intraoral, alteração da postura da língua, aumento da tensão dos músculos faciais, escape de alimento e líquido, engasgos e ruídos. Déficits no desenvolvimento do sistema nervoso central e na motilidade esofágica também podem estar relacionados ao comprometimento da deglutição, como ocorre na disfagia orofaríngea (SALES et al., 2017; CAÑIZARES-PRADO et al., 202). A videofluoroscopia de deglutição (VFD), exame padrão da deglutição, possibilita a visualização de todas as fases (oral, faríngea, esofágica), permitindo análises qualitativas e quantitativas de distância, tempo e presença de penetração e aspiração traqueal. A VFD é um exame complementar ao diagnóstico de disfagia, que é definida como qualquer dificuldade ou desconforto no processo de deglutição, ocorrendo entre a boca e o estômago (CLAVÈ e SHAKER, 2015). A pontuação alcançada no teste de deglutição apresentou uma correlação com a variável polissonográfica hipopneia ($p=0,002$), fato que, potencialmente, se relaciona à hipotonia e ao controle da musculatura de VAS durante o sono.

As dificuldades alimentares em crianças com SD são descritas como um complexo desafio para clínicos, familiares e educadores, uma vez que interferem diretamente no crescimento e desenvolvimento global, incluindo o desenvolvimento nutricional e das habilidades motoras orais (USMAN et al., 2023). Em associação a outras condições médicas como cardiopatias, refluxo gastroesofágico e distúrbios respiratórios podem cursar em uma pior condição de saúde. A melhor compreensão dos aspectos envolvidos na alimentação do indivíduo com SD possibilita a identificação e tratamento precoce, de forma a melhorar a qualidade de vida e minimizar os desfechos negativos

como desnutrição ou obesidade, disfagia com penetrações laríngeas e possível necessidade de intervenções invasivas como a gastrostomia (CLAVÈ e SHAKER, 2015; USMAN et al., 2023).

Assim, a presença de alterações miofuncionais orofaciais em crianças com SD corroboram com os dados da literatura em razão das características fenotípicas da condição genética (LEE et al., 2020; GULLOTTA, 2019; GOFFINSKI et al., 2015; FELÍCIO et al., 2010). Entretanto, até o momento, não fora identificado nenhum estudo prévio que correlacionasse as alterações nas estruturas e, especialmente, desordens nas funções orofaciais e faríngeas de crianças com SD com o índice de gravidade da AOS.

O resultado observado neste estudo que evidenciou a correlação entre alterações posturais e funcionais orofaríngeas e um maior número de apneia/hipopneias obstrutivas do sono é corroborado pelos resultados alcançados pelo estudo de Corrêa et al. (2020) em crianças típicas com AOS. Entretanto, em relação aos demais instrumentos de rastreio do sono infantil analisados, PSQ e OSA-18, não foi verificada correlação com as condições miofuncionais orofaciais.

Na análise comparativa entre os protocolos quanto à sensibilidade, especificidade e acurácia, foi identificada nesta amostra uma superioridade do ShOM em relação aos questionários do sono. Na associação do ShOM com o PSQ, houve um aumento da acurácia na identificação de risco para AOS moderada e grave, mas sem efeito quando combinado ao OSA-18. Com isso, é possível concluir que a associação da avaliação da condição miofuncional orofacial e instrumentos de rastreio da AOS em crianças com SD pode contribuir para o incremento da confiabilidade na identificação de risco para o distúrbio respiratório do sono, ratificando os resultados de Corrêa et al. (2020), que demonstraram que o ShOM otimizou a sensibilidade e especificidade do SCR em crianças brasileiras e italianas típicas com AOS.

Portanto, considerando que os distúrbios miofuncionais orofaciais (DMOs) estão presentes em menor ou maior grau em indivíduos com SD, é imprescindível a identificação e quantificação das alterações da postura, mobilidade e tônus da musculatura orofacial, assim como o comprometimento das funções de respiração, sucção, deglutição, mastigação e fala por meio da inserção do fonoaudiólogo nas equipes multidisciplinares de especialistas do sono (LEE et al., 2018; GULLOTA et al., 2019; GOFFINSKI et al., 2015; FELÍCIO et al., 2010; CORRÊA et al., 2020).

As limitações desse estudo quanto à seleção da amostra e utilização da PSG tipo III para diagnóstico da AOS na população pediátrica com SD apontam para a necessidade de mais pesquisas com um “n” amostral maior e calculado por testes estatísticos e sem o viés da atual amostra por conveniência. A compreensão da relação entre as alterações miofuncionais orofaciais em crianças

com SD e a presença e gravidade da AOS se justifica para o delineamento de proposições de tratamentos individualizados e mais precoces, bem como para a validação dos questionários utilizados nessa população. Novos estudos deverão buscar a mensuração do potencial de cada item que o compõe o ShOM isoladamente na identificação de risco dos distúrbios respiratórios obstrutivos do sono. Ações educacionais que informem e orientem familiares, educadores e profissionais da saúde quanto à importância do diagnóstico da AOS na SD e suas comorbidades também devem ser amplamente incentivadas e divulgadas.

7. CONCLUSÃO

A avaliação da condição miofuncional orofacial representa uma ferramenta clínica relevante na identificação do risco de apneia obstrutiva do sono (AOS) em crianças com síndrome de Down (SD). Neste estudo, observou-se uma correlação significativa entre os achados dos protocolos fonoaudiológicos — ShOM e AMIOFE-E (mastigação e deglutição) — e variáveis respiratórias do sono, como apneias obstrutivas, hipopneias, apneias mistas e níveis de saturação de oxigênio noturno. Os dados indicam que quanto maior o comprometimento da condição miofuncional orofacial, mais grave tende a ser o quadro de AOS.

A análise do nível de concordância interjuízes revelou alta confiabilidade tanto nos testes qualitativos (presença ou ausência de alterações miofuncionais) quanto nos dados quantitativos (pontuação total), reforçando a viabilidade do uso do protocolo ShOM em crianças com SD e AOS. Os resultados demonstram alta sensibilidade e especificidade razoável, evidenciando seu potencial como instrumento clínico de triagem.

Outro achado a ser destacado diz respeito à associação entre o protocolo ShOM e os questionários de avaliação do sono, PSQ e OSA-18, amplamente utilizados na prática clínica. Este estudo mostrou que a inclusão do ShOM aumentou a acurácia e a sensibilidade do PSQ na detecção de AOS moderada a grave em crianças com SD. Ressalta-se, no entanto, que embora o PSQ e o OSA-18 sejam eficazes na identificação de distúrbios respiratórios e na avaliação da qualidade de vida em crianças típicas, sua correlação com o índice de apneia/hipopneia (IAH) em crianças com SD é apenas fraca a moderada. Isso destaca a necessidade de mais estudos voltados à validação e interpretação desses instrumentos na população com SD.

Em conclusão, embora haja necessidade de aprofundamento na validação de protocolos específicos e instrumentos sensíveis para populações sindrômicas, os resultados deste estudo reforçam a relevância da avaliação fonoaudiológica como parte integrante das equipes multidisciplinares do sono. Sua inclusão pode contribuir significativamente para um diagnóstico mais preciso e para a implementação de intervenções precoces nos distúrbios respiratórios do sono em crianças com SD.

8. REFERÊNCIAS

- ALKAWARI, H. **Down Syndrome Children, Malocclusion Characteristics and the Need for Orthodontic Treatment Needs (IOTN): A Cross-Sectional Study.** *Children*, v. 8, p. 888, 2021. <https://doi.org/10.3390/children8100888>.
- ALONSO-ÁLVAREZ, M. L. et al. **Reliability of home respiratory polygraphy for the diagnosis of sleep apnea in children.** *Chest*, v. 147, n. 4, p. 1020-1028, 2015.
- AMERICAN SPEECH-LANGUAGE-HEARING ASSOCIATION (ASHA). **Evidence-based practice in communication disorders: an introduction.** 2004. Disponível em: [link oficial]. Acesso em: 10 out. 2023.
- ANTONARAKIS, S. E. et al. **Down syndrome.** *Nature Reviews Disease Primers*, v. 6, p. 9, 2020. <https://doi.org/10.1038/s41572-019-0143-7>.
- ARENS, R. et al. **Upper airway structure and body fat composition in obese children with obstructive sleep apnea syndrome.** *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, v. 183, p. 782–787, 2011.
- AUSTENG, M. E. et al. **Obstructive sleep apnea in younger school children with Down syndrome.** *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, v. 78, n. 7, p. 1026-1029, 2014. PMID: 24809771.
- BENJAFIELD, A. V. et al. **Estimation of the global prevalence and burden of obstructive sleep apnoea: a literature-based analysis.** *The Lancet Respiratory Medicine*, v. 7, n. 8, p. 687-698, 2019. [https://doi.org/10.1016/S2213-2600\(19\)30198-5](https://doi.org/10.1016/S2213-2600(19)30198-5).
- BERRY, R. B. et al. **The AASM Manual for the Scoring of Sleep and Associated Events: Rules, Terminology and Technical Specifications.** Version 2.2. Darien: American Academy of Sleep Medicine, 2015.
- BERTOLAZI, A. N. et al. **Validation of the Brazilian Portuguese version of the Pittsburgh Sleep Quality Index.** *Sleep Medicine*, v. 12, p. 70-75, 2011.
- BITNERS, A. C.; ARENS, R. **Evaluation and Management of Children with Obstructive Sleep Apnea Syndrome.** *Lung*, v. 198, n. 2, p. 257-270, 2020. <https://doi.org/10.1007/s00408-020-00342-5>.

- BLANCO-MONTAÑO, A. et al. **Factores de riesgo en el origen del síndrome de Down.** *Revista Médica del Instituto Mexicano del Seguro Social*, v. 61, n. 5, p. 638-644, 2023. <https://doi.org/10.5281/zenodo.8316459>.
- BORGSTRÖM, A. et al. **Questionnaire OSA-18 has poor validity compared to polysomnography in pediatric obstructive sleep apnea.** *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, v. 77, p. 1864–1868, 2013.
- BRASIL. Ministério da Saúde. Secretaria de Atenção à Saúde. **Orientações para a coleta e análise de dados antropométricos em serviços de saúde.** Brasília: Ministério da Saúde, 2011. Disponível em: https://bvsms.saude.gov.br/bvs/publicacoes/orientacoes_coleta_analise_dados_antropometricos.pdf. Acesso em: 5 jul. 2022.
- BULL, M. J. et al. **Health Supervision for Children and Adolescents With Down Syndrome.** *Pediatrics*, v. 149, n. 5, e2022057010, 2022. <https://doi.org/10.1542/peds.2022-057010>.
- BUYSSE, D. J. et al. **The Pittsburgh Sleep Quality Index: a new instrument for psychiatric practice and research.** *Psychiatry Research*, v. 28, p. 193-213, 1989.
- CAÑIZARES-PRADO, S. et al. **Oral Function and Eating Habit Problems in People with Down Syndrome.** *International Journal of Environmental Research and Public Health*, v. 19, p. 2616, 2022. <https://doi.org/10.3390/ijerph19052616>.
- CARVALHO, A. C. A. et al. **Síndrome de Down: aspectos relacionados ao sistema estomatognático.** *Revista de Ciências Médicas e Biológicas*, v. 9, n. 1, p. 49-52, 2010. <https://doi.org/10.9771/cmbio.v9i1.4732>.
- CERTAL, V. et al. **Unattended sleep studies in pediatric OSA: A systematic review and meta-analysis.** *Laryngoscope*, v. 125, n. 1, p. 255-262, 2015.
- CHERVIN, R. D. et al. **Pediatric sleep questionnaire (PSQ): validity and reliability of scales for sleep-disordered breathing, snoring, sleepiness, and behavioral problems.** *Sleep Medicine*, v. 1, n. 1, p. 21-32, 2000.
- CLAVÉ, P.; SHAKER, R. **Dysphagia: current reality and scope of the problem.** *Nature Reviews Gastroenterology & Hepatology*, v. 12, n. 5, p. 259-270, 2015. <https://doi.org/10.1038/nrgastro.2015.49>.

- COPPEDE, F. **Risk factors for Down syndrome.** *Archives of Toxicology*, v. 90, p. 2917–2929, 2016. PMID: 27600794.
- CORRÊA, C. C. et al. **Obstructive sleep apnea and oral language disorders.** *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*, v. 83, n. 1, p. 98-104, 2017.
- CORRÊA, C. C. et al. **The short evaluation of orofacial myofunctional protocol (ShOM) and the sleep clinical record in pediatric obstructive sleep apnea.** *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, v. 137, 110240, 2020. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2020.110240>.
- DE GRAAF, G. et al. **Estimates of the live births, natural losses, and elective terminations with Down syndrome in the United States.** *American Journal of Medical Genetics Part A*, v. 167, n. 4, p. 756-767, 2015.
- DEL-RÍO CAMACHO, G. et al. **Central sleep apnea in children with obstructive sleep apnea syndrome and improvement following adenotonsillectomy.** *Pediatric Pulmonology*, v. 54, n. 11, p. 1670-1675, 2019. <https://doi.org/10.1002/ppul.24469>.
- D'ONOFRIO, L. **Oral dysfunction as a cause of malocclusion.** *Orthodontics & Craniofacial Research*, v. 22, suppl. 1, p. 43-48, 2019. <https://doi.org/10.1111/ocr.12277>.
- EDWARDS, B. A. et al. **More than the sum of the respiratory events: personalized medicine approaches for obstructive sleep apnea.** *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, v. 200, n. 6, p. 691-703, 2019.
- FAN, Z. et al. **Sleep Apnea and Hypoventilation in Patients with Down Syndrome: Analysis of 144 Polysomnogram Studies.** *Children*, v. 4, n. 7, 55, 2017. <https://doi.org/10.3390/children4070055>.
- FERNANDES, F. M. V. S.; TELES, R. C. V. **Application of the Portuguese version of the Obstructive Sleep Apnea-18 survey to children.** *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*, v. 79, n. 6, p. 720-726, 2013.
- FERRARIO, V. F. et al. **Soft tissue facial anthropometry in Down syndrome subjects.** *The Journal of Craniofacial Surgery*, v. 15, n. 3, p. 528–532, 2004. PMID: 15111824.

- FLORIG, S. T. **A Retrospective Chart Review of Sleep Questionnaires in Children with Down Syndrome.** 2019. Tese (Honors) – Universidade [nome], Oregon, 2019. <https://doi.org/10.15760/honors.759>.
- FOLHA, G. A. et al. **Validity and reliability of a protocol of orofacial myofunctional evaluation for patients with obstructive sleep apnea.** *European Journal of Oral Sciences*, v. 123, p. 165–172, 2015.
- FRIEDMAN, N. R. et al. **Accuracy of Parental Perception of Nighttime Breathing in Children with Down Syndrome.** *Otolaryngology–Head and Neck Surgery*, p. 1-4, 2017.
- GALTIERI, R. M. S. et al. **Tipos craniofaciais e relação com a síndrome da apneia obstrutiva do sono.** *Revista de Ciências Médicas e Biológicas*, v. 18, n. 3, p. 380-385, 2019.
- GANTHOUS, G. et al. **Narrativa oral de indivíduos com Transtorno do Espectro Alcoólico Fetal.** *CODAS*, v. 29, p. 1-7, 2017.
- GARDINER, K. et al. **Down Syndrome Neurobiology and Therapy.** *Journal of Neuroscience*, v. 30, n. 45, p. 14943–14945, 2010. <https://doi.org/10.1523/JNEUROSCI.3728-10.2010>.
- GAZA, K. et al. **Polysomnographic characteristics and treatment modalities in a referred population of children with trisomy 21.** *Frontiers in Pediatrics*, v. 10, 1109011, 2023. <https://doi.org/10.3389/fped.2022.1109011>.
- GIANNASI, L. C. et al. **Evaluation of the masticatory muscle function, physiological sleep variables, and salivary parameters after electromechanical therapeutic approaches in adult patients with Down syndrome: a randomized controlled clinical trial.** *Trials*, v. 20, 215, 2019. <https://doi.org/10.1186/s13063-019-3300-0>.
- GOFFINSKI, A. et al. **Obstructive Sleep Apnea in Young Infants with Down Syndrome Evaluated in a Down Syndrome Specialty Clinic.** *American Journal of Medical Genetics Part A*, v. 167, n. 2, p. 324–330, 2015. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.36903>.
- GOZAL, D. et al. **Home sleep testing for the diagnosis of pediatric obstructive sleep apnea: The times they are a changing...!** *Current Opinion in Pulmonary Medicine*, v. 21, n. 6, p. 563-568, 2015.
- GUILLEMINAULT, C. et al. **Critical role of myofascial reeducation in pediatric sleep-disordered breathing.** *Sleep Medicine*, v. 14, n. 6, p. 518-525, 2013.

- GULOTTA, G. et al. **Risk Factors for Obstructive Sleep Apnea Syndrome in Children: State of the Art.** *International Journal of Environmental Research and Public Health*, v. 16, n. 18, 3235, 2019. <https://doi.org/10.3390/ijerph16183235>.
- GUPTA, N. A.; KABRA, M. **Diagnosis and management of Down syndrome.** *Indian Journal of Pediatrics*, v. 81, p. 560–567, 2014. <https://doi.org/10.1007/s12098-013-1249-7>.
- HOFFMIRE, C. A. et al. **High prevalence of sleep disorders and associated comorbidities in a community sample of children with Down syndrome.** *Journal of Clinical Sleep Medicine*, v. 10, n. 4, p. 411-419, 2014. <https://doi.org/10.5664/jcsm.3618>.
- JAYARATNE, Y. S. N. et al. **The facial morphology in Down syndrome: A 3D comparison of patients with and without obstructive sleep apnea.** *American Journal of Medical Genetics Part A*, v. 173, n. 11, p. 3013-3021, 2017. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.38399>.
- JORDAN, A. S. et al. **Adult obstructive sleep apnoea.** *The Lancet*, v. 383, n. 9918, p. 736-747, 2014.
- KACZOROWSKA, N. et al. **Down syndrome as a cause of abnormalities in the craniofacial region: A systematic literature review.** *Advances in Clinical and Experimental Medicine*, v. 28, n. 11, p. 1587–1592, 2019. <https://doi.org/10.17219/acem/112785>.
- KADITIS, A. G. et al. **Obstructive sleep disordered breathing in 2- to 18-year-old children: diagnosis and management.** *European Respiratory Journal*, v. 47, p. 69–94, 2016. <https://doi.org/10.1183/13993003.00385-2015>.
- KOO, T. K.; LI, M. Y. **A guideline of selecting and reporting intraclass correlation coefficients for reliability research.** *Journal of Chiropractic Medicine*, v. 15, n. 2, p. 155-163, 2016. <https://doi.org/10.1016/j.jcm.2016.02.012>.
- KUMAR, S.; KELLY, A. S. **Review of Childhood Obesity: From Epidemiology, Etiology, and Comorbidities to Clinical Assessment and Treatment.** *Mayo Clinic Proceedings*, v. 92, n. 2, p. 251-265, 2017.
- LAL, C. et al. **Sleep-Disordered Breathing in Down Syndrome.** *Chest*, v. 147, n. 2, p. 570-579, 2015.
- LANDIS, J. R.; KOCH, G. G. **The measurement of observer agreement for categorical data.** *Biometrics*, v. 33, p. 159-174, 1977. <https://doi.org/10.2307/2529310>.

- LEE, C. F. et al. **Prevalence of obstructive sleep apnea in children with Down syndrome: a meta-analysis.** *Journal of Clinical Sleep Medicine*, v. 14, n. 5, p. 867–875, 2018.
- LEE, S. Y. et al. **Mouth breathing, "nasal disuse," and pediatric sleep-disordered breathing.** *Sleep and Breathing*, v. 19, n. 4, p. 1257–1264, 2015.
- LENNON, C. J. et al. **Risk of failure of adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in obese pediatric patients.** *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, v. 92, p. 7-10, 2017.
- LI, A. M. et al. **Epidemiology of obstructive sleep apnoea syndrome in Chinese children: a two-phase community study.** *Thorax*, v. 65, n. 11, p. 991-997, 2010.
- LUMENG, J. C.; CHERVIN, R. D. **Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea.** *Proceedings of the American Thoracic Society*, v. 5, p. 242–252, 2008.
- MARCUS, C. L. et al. **Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome.** *Pediatrics*, v. 130, p. 714-755, 2012.
- MARTÍNEZ-ESPINOSA, R. M. et al. **Evidences from Clinical Trials in Down Syndrome: Diet, Exercise and Body Composition.** *International Journal of Environmental Research and Public Health*, v. 17, n. 12, 4294, 2020. <https://doi.org/10.3390/ijerph17124294>.
- MASPERO, C. et al. **Correlazione tra espansione rapida del palato e funzionalità respiratória.** *Dental CADMOS*, v. 78, n. 5, 2010.
- MIZUKAMI, M. et al. **Investigating factors related to the acquisition of masticatory function in Down syndrome children.** *International Journal of Orofacial Myology*, v. 45, n. 1, p. 46-56, 2019. <https://doi.org/10.52010/ijom.2019.45.1.4>.
- NÆSS, K.-A. B. et al. **The Association between Difficulties with Speech Fluency and Language Skills in a National Age Cohort of Children with Down Syndrome.** *Brain Sciences*, v. 11, 704, 2021.
- OCEJA, E. et al. **Validity and Cost-Effectiveness of Pediatric Home Respiratory Polygraphy for the Diagnosis of Obstructive Sleep Apnea in Children: Rationale, Study Design, and Methodology.** *Methods and Protocols*, v. 4, n. 1, 9, 2021. <https://doi.org/10.3390/mps4010009>.

- PANZARELLA, V. et al. **Paediatric Sleep Questionnaire for Obstructive Sleep Apnoea Syndrome Screening: Is Sleep Quality Worthy of Note?** *Applied Sciences*, v. 11, 1440, 2021. <https://doi.org/10.3390/app11041440>.
- PEREIRA, C. C.; FELÍCIO, C. M. **Os distúrbios miofuncionais orofaciais na literatura odontológica: revisão crítica.** *Revista Dental Press Ortodontia e Ortopedia Facial*, v. 10, n. 4, p. 134-142, 2005.
- PETERSEN, D. B. et al. **Emerging Procedures in Narrative Assessment.** *Topics in Language Disorders*, v. 28, n. 2, p. 115-130, 2008. <https://doi.org/10.1097/01.TLD.0000318933.46925.86>.
- RODRÍGUEZ GUERRERO, K. et al. **Algunas características clinicoepidemiológicas del síndrome de Down y su repercusión en la cavidad bucal.** *MEDISAN*, v. 19, n. 10, p. 1272-1282, 2015.
- SALES, A. V. M. N. et al. **Análise qualitativa e quantitativa da deglutição orofaríngea na Síndrome de Down.** *CoDAS*, v. 29, n. 6, 2017. <https://doi.org/10.1590/2317-1782/20172017005>.
- SANTOS-SILVA, R. et al. **Validation of a portable monitoring system for the diagnosis of obstructive sleep apnea syndrome.** *Sleep*, v. 32, n. 5, p. 629–636, 2009.
- SATIR, S. **Determination of mandibular morphology in a TURKISH population with Down syndrome using panoramic radiography.** *BMC Oral Health*, v. 19, 36, 2019. <https://doi.org/10.1186/s12903-019-0722-8>.
- SHOTT, S. R. **Down syndrome: Common otolaryngologic manifestations.** *American Journal of Medical Genetics Part C: Seminars in Medical Genetics*, v. 142C, p. 131–140, 2006.
- SILVA, K. V. et al. **Risco da síndrome de apneia obstrutiva do sono.** *Arquivos Brasileiros de Cardiologia*, v. 106, n. 6, p. 474-480, 2016.
- SINHA, D.; GUILLEMINAULT, C. **Sleep disordered breathing in children.** *Indian Journal of Medical Research*, v. 131, p. 311–320, 2010.
- SOARES, C. N. R. **Depressão e ansiedade em adultos e idosos com síndrome Down: Resultados preliminares de um estudo prospectivo no Brasil.** *Alzheimer's & Dementia*, v. 16, supl. 7, e047615, 2020. <https://doi.org/10.1002/alz.047615>.

- STORES, G.; STORES, R. **Sleep disorders and their clinical significance in children with Down syndrome.** *Developmental Medicine & Child Neurology*, v. 55, p. 126–130, 2013. PMID: 22937986.
- SUBRAMANI, Y. et al. **Understanding phenotypes of obstructive sleep apnea: applications in anesthesia, surgery, and perioperative medicine.** *Anesthesia & Analgesia*, v. 124, n. 1, p. 179-191, 2017.
- SZYSZKA-SOMMERFELD, L. et al. **Electromyographic Study of Masticatory Muscle Function in Children with Down Syndrome.** *Journal of Clinical Medicine*, v. 11, 506, 2022. <https://doi.org/10.3390/jcm11030506>.
- TAVASOLI, A. et al. **Sleep symptoms and polysomnographic patterns of obstructive sleep apnea in obese children.** *Iranian Journal of Child Neurology*, v. 10, n. 1, p. 14-20, 2016.
- TUFIK, S. et al. **Obstructive sleep apnea syndrome in the Sao Paulo Epidemiologic Sleep Study.** *Sleep Medicine*, v. 11, n. 5, p. 441-446, 2010.
- USMAN, T. et al. **Feeding and Swallowing Difficulties in Children with Down Syndrome.** *Journal of Health and Rehabilitation Research*, v. 3, n. 2, 2023.
- VELOSO, I. L. et al. **Unsupervised type III polygraphy in children undergoing adenotonsillectomy: a technical and economic report.** *Sleep Science*, v. 2, p. 1, 2021.
- VICENTE, A. et al. **Craniofacial morphology in down syndrome: a systematic review and meta-analysis.** *Scientific Reports*, v. 10, 2020. <https://doi.org/10.1038/s41598-020-72793-y>.
- VILLA, M. P. et al. **Sleep clinical record: an aid to rapid and accurate diagnosis of pediatric sleep disordered breathing.** *European Respiratory Journal*, v. 41, p. 1355-1361, 2013.
- VILLA, M. P. et al. **Use of the sleep clinical record in the follow-up of children with obstructive sleep apnea (OSA) after treatment.** *Sleep and Breathing*, v. 20, n. 1, p. 321-329, 2016.
- VON LUKOWICZ, M. et al. **Effect of a 1-week intense myofunctional training on obstructive sleep apnoea in children with Down syndrome.** *Archives of Disease in Childhood*, v. 104, p. 275-279, 2019.
- WEBER, S. A. et al. **Unattended sleep studies in children: Is it worth?** *European Respiratory Journal*, v. 46, OA1482, 2015. <https://doi.org/10.1183/13993003.congress-2015.OA1482>.

ZHAN, X. et al. **A Retrospective Study to Compare the Use of the Mean Apnea-Hypopnea Duration and the Apnea-Hypopnea Index with Blood Oxygenation and Sleep Patterns in Patients with Obstructive Sleep Apnea Diagnosed by Polysomnography.** *Medical Science Monitor*, v. 24, p. 1887-1893, 2018. <https://doi.org/10.12659/msm.909219>.

ZINCHUK, A. V. et al. **Phenotypes in obstructive sleep apnea: A definition, examples and evolution of approaches.** *Sleep Medicine Reviews*, v. 35, p. 113-123, 2017. <https://doi.org/10.1016/j.smrv.2016.10.002>.

APÊNDICES

ARTIGO	TÍTULO	SITUAÇÃO
ARTIGO I	Caracterização miofuncional e polissonográfica de crianças com Síndrome de Down: um estudo piloto	PUBLICADO CODAS -2024;36(3):e20230119 DOI: 10.1590/2317-1782/20242023119pt
ARTIGO II	Acurácia da triagem miofuncional orofacial e autoavaliação na identificação de risco para apneia obstrutiva do sono moderada e grave em crianças com síndrome de Down	EM SUBMISSÃO
ARTIGO III	Análise da validação do <i>Short Evaluation of Orofacial Myofunctional protocol</i> em crianças com síndrome de Down e apneia obstrutiva do sono	EM ELABORAÇÃO

Danielle Barreto e Silva¹ 
Camila de Castro Corrêa¹ 
Silke Anna Theresa Weber¹ 

Características miofuncionais orofaciais e polissonográficas de crianças com Síndrome de Down e apneia obstrutiva do sono: estudo piloto

Orofacial myofunctional and polysomnographic characteristics of children with Down Syndrome and obstructive sleep apnea: a pilot study

Descritores

Apneia Obstrutiva do Sono
Criança
Síndrome de Down
Polissonografia
Fonoaudiologia
Sistema Estomatognático

Keywords

Sleep Apnea, Obstructive
Child
Down Syndrome
Polysomnography
Speech, Language and Hearing
Sciences
Stomatognathic System

Endereço para correspondência:

Danielle Barreto e Silva
Programa de Pós-graduação em
Cirurgia e Medicina Translacional
(Doutorado), Departamento de
Oftalmologia, Otorrinolaringologia e
Cirurgia de Cabeça e Pescoço, Hospital
das Clínicas, Faculdade de Medicina
de Botucatu, Universidade Estadual
Paulista – UNESP
Av. Prof. Mário Rubens Guimarães
Montenegro, s/n, Botucatu (SP), Brasil,
CEP: 18618-687.
E-mail: daniellebarretofono@gmail.com

Recebido em: Maio 26, 2023
Aceito em: Setembro 05, 2023

RESUMO

Objetivo: Investigar as estruturas e funções orofaríngeas de uma população pediátrica com Síndrome de Down (SD) e apneia obstrutiva do sono (AOS) e correlacionar com o índice de apneia/hipopneia (IAH) e questionários do sono. **Método:** 12 Crianças com SD e AOS, entre 4 e 12 anos, foram submetidas à polissonografia (PSG); questionários do sono, Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ) e Obstructive Sleep Apnea-18 (OSA-18); e triagem fonoaudiológica por meio do Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol (ShOM). **Resultados:** Verificou-se uma correlação positiva entre pontuações mais elevadas no ShOM e o índice de apneia hipopneia (IAH) e entre o ShOM e número de hipopneias. As alterações miofuncionais orofaciais observadas no grupo estudado foram: respiração oral, alteração no tônus e competência labial, na postura de língua em repouso e na deglutição e alteração oclusal. Verificou-se também, um risco aumentado para AOS conforme os questionários do sono, bem como presença de obesidade e sobrepeso, mas sem correlação com a gravidade da AOS. **Conclusão:** Todas as crianças apresentaram alterações miofuncionais orofaciais, sendo que escores mais altos no ShOM, ou seja, um maior comprometimento miofuncional orofacial, estavam associados à maior gravidade de AOS, sugerindo que a avaliação miofuncional orofacial dentro de uma abordagem multidisciplinar pode auxiliar na identificação de fatores de risco para AOS em crianças com SD.

ABSTRACT

Purpose: To investigate oropharyngeal structures and functions in a pediatric population with Down Syndrome (DS) and obstructive sleep apnea (OSA) and to correlate with the apnea/hypopnea index (AHI) and sleep questionnaires. **Methods:** 12 Children with DS and OSA, between the age of 4 and 12 years old, underwent polysomnography (PSG); sleep questionnaires, Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ) and Obstructive Sleep Apnea-18 (OSA-18); and speech-language evaluation using the Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol (ShOM). **Results:** There was a positive correlation between ShoM higher scores and the apnea-hypopnea index (AHI) and between ShoM and the number of hypopneas. The orofacial myofunctional alterations observed in the studied group were: oral breathing, alteration in lip tonus and competence, tongue posture at rest and in swallowing, and occlusal alteration. There was also an increased risk for OSA according to the sleep questionnaires, as well as the presence of obesity and overweight, but without correlation with the severity of OSA. **Conclusion:** All DS children show alterations in orofacial characteristics, higher scores being associated to severe OSA. Orofacial myofunctional evaluation may help to identify different phenotypes in Down syndrome children with Obstructive sleep Apnea, enhancing the need for a multidisciplinary approach.

Trabalho realizado na Universidade Estadual Paulista – UNESP - Botucatu (SP), Brasil.

¹ Programa de Pós-graduação em Cirurgia e Medicina Translacional (Doutorado), Hospital das Clínicas, Faculdade de Medicina de Botucatu, Universidade Estadual Paulista – UNESP - Botucatu (SP), Brasil.

Fonte de financiamento: nada a declarar.

Conflito de interesses: nada a declarar.



Este é um artigo publicado em acesso aberto (Open Access) sob a licença Creative Commons Attribution, que permite uso, distribuição e reprodução em qualquer meio, sem restrições desde que o trabalho original seja corretamente citado.

INTRODUÇÃO

A Síndrome de Down (SD), ou T21 (Trissomia do 21) está entre as condições genéticas mais prevalentes na população mundial. Estima-se que a incidência é de 1 em 800 a 1792 casos de nascidos vivos^(1,2). Indivíduos com SD apresentam características fenotípicas relacionadas a mais de 200 genes codificadores de proteínas do cromossomo 21 (HSA21-*Homo sapiens chromosome 21*), com ação direta ou indireta na homeostase celular, nos tecidos, órgãos e sistemas⁽³⁾.

As características craniofaciais, hipotonia da musculatura, presença de distúrbios miofuncionais orofaciais (DMOs), alterações metabólicas, hipotireoidismo e uma maior tendência à obesidade na SD configuram importantes fatores de risco para o desenvolvimento da apneia obstrutiva do sono (AOS)^(3,4), um transtorno respiratório do sono crônico, progressivo, caracterizado por obstrução total (apneias) ou parciais (hipopneias) da via aérea superior (VAS). As apneias/hipopneias obstrutivas do sono são intermitentes e recorrentes durante o período de sono, sendo acompanhadas de quedas na saturação de oxihemoglobina com breves despertares eletroencefalográficos que fragmentam o sono, promovendo alterações metabólicas, hormonal, cardiovascular, cognitivo e comportamental^(5,6).

É estimada uma prevalência de AOS entre 1 a 4% das crianças com idade entre 2 e 8 anos⁽⁷⁾, principalmente associada a fatores obstrutivos em (VAS) e obesidade⁽⁸⁾. Em crianças obesas esse número pode aumentar para 13% a 59%, devido ao acúmulo de gordura na VAS⁽⁹⁾. Em crianças com SD a prevalência varia entre 31% a 72%^(4,10,11), evidenciando assim, um aumento significativo da AOS na SD em relação à população sem a condição genética.

A configuração da VAS associada à hipoplasia mandibular e de terço médio da face, maloclusões, classe III esquelética, mordida cruzada, sobremordida, apinhamentos dentários e hipotonia da musculatura orofacial e cervical está relacionada à maior prevalência da AOS na SD⁽⁴⁾. No entanto, estudos demonstram que distúrbios miofuncionais orofaciais (DMOs) como, tônus da musculatura orofacial rebaixado, reduzida coordenação dos músculos mastigatórios e da deglutição, e respiração oral (RO) ou mista são achados frequentes na população em geral que apresenta AOS, mesmo sem a T21⁽¹²⁻¹⁴⁾. Apesar das alterações miofuncionais orofaciais serem achados frequentes em indivíduos com AOS, na população com SD, os DMOs podem cursar em uma pior condição devido à associação entre as alterações do desenvolvimento craniofacial, morfologia da VAS e hipotonia global^(4,12-14).

A associação frequente entre as duas condições, SD e AOS, e a elevada presença de comorbidades corroboram a importância do diagnóstico e assertividade no tratamento⁽⁴⁾. Entretanto, a identificação precoce da AOS em indivíduos com SD, especialmente na infância, pela polissonografia (PSG), exame padrão para o diagnóstico dos distúrbios do sono, é prejudicada em razão do alto custo; dificuldade de acesso a serviços que ofereçam o exame; e critérios específicos em relação aos equipamentos e equipes especializadas na monitoração de crianças^(4,7).

Instrumentos de rastreio como questionários, escalas e protocolos são considerados de baixo custo, fácil e rápida aplicação, auxiliando na investigação do sono e risco de distúrbios. Os questionários *Pediatric Sleep Questionnaire* (PSQ)⁽¹⁵⁾ e *Obstructive Sleep*

Apnea-18 (OSA-18)^(16,17), relacionados à qualidade do sono da criança, assim como, o *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol* (ShOM), protocolo de triagem fonoaudiológica para identificação dos DMOs em indivíduos com AOS, buscam analisar a presença de sintomas, frequência, repercussões físicas e comportamentais em indivíduos com risco de AOS.

Até o momento, não há estudos que analisam os protocolos citados em crianças com SD e a associação com dados polissonográficos. Hipotetiza-se que a identificação das condições craniofaciais e musculares de crianças com SD poderiam auxiliar na identificação de risco e gravidade da AOS. Assim, a proposta deste estudo é investigar as estruturas e funções orofaciais em crianças com SD correlacionando-as com a presença e gravidade da AOS e com os resultados dos questionários do sono PSQ e OSA-18.

MÉTODO

A pesquisa foi aprovada pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Faculdade de Medicina de Botucatu/UNESP, sob o número do protocolo CAAE: 47939721.8.0000.5411.

A amostra selecionada é considerada uma amostra de conveniência composta por pacientes do Ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB -UNESP/Botucatu. O grupo recrutado foi submetido à consulta e avaliação médica anterior, em que dados antropométricos e os questionários PSQ e OSA-18, relacionados à investigação do sono, foram coletados como parte da rotina do serviço. A triagem fonoaudiológica das condições miofuncionais orofaciais se deu por meio do protocolo ShOM após assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido. A amostra foi composta de 12 crianças com SD e AOS. Todas as crianças realizaram estudo do sono no Hospital das Clínicas da FMB -UNESP/Botucatu, com o equipamento Polígrafo tipo III, marca Philips, componentes: cânula e termistor de fluxo aéreo, cinta tórax e abdômen, oximetria de pulso e sensor de posição

Critério de inclusão

Crianças com SD e AOS, entre 4 e 12 anos acompanhadas no Ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB -UNESP/Botucatu, com resultado de exame polissonográfico e após assinatura de Termo de Consentimento.

Critério de exclusão

Crianças com distúrbios neurológicos, distúrbios neuromusculares ou uso de drogas que deprimem o sistema respiratório, conforme determinado por exame médico e anamnese.

O critério de diagnóstico de AOS foi realizado por meio do índice de apneia/hipopneia (IAH), classificando a AOS na criança como: a) AOS leve: IAH - 1.1 a 5 eventos/hora de sono (e/h); b) AOS moderada: IAH - 5.1 a 10 e/h; c) AOS grave: IAH - acima de 10 e/h⁽¹⁸⁾.

Para a avaliação subjetiva do sono, foram utilizados os questionários PSQ e OSA-18.

***Pediatric Sleep Questionnaire* (PSQ)** – direcionado a crianças de 2 a 18 anos. Contém 22 itens distribuídos em 3 domínios que questionam sobre a frequência do ronco, ronco alto,

apneias observadas, dificuldade para respirar durante o sono, sonolência diurna, comportamento desatento ou hiperativo e outras características pediátricas da AOS. A resposta média nos itens não omissos é a pontuação, que pode variar de 0 a 1. A pontuação acima de 7 se relaciona à presença de um distúrbio respiratório do sono^(15,19)

OSA-18 (OSA-18- Versão portuguesa) - consiste em um questionário de 18 itens agrupados em cinco domínios: a) distúrbio do sono, b) sofrimento, c) sofrimento emocional, d) problemas diurnos e e) preocupações dos pais ou responsáveis. Os itens são pontuados em escala de 1 a 7 pontos. A pontuação do OSA-18 pode variar de 18 a 126 pontos e são categorizados em três grupos, de acordo com o impacto na qualidade de vida: pequeno – menor que 60; moderado – entre 60 e 80; e grande – acima de 80; quanto mais frequente é o item em cada do domínio, maior a pontuação final e pior é o impacto na qualidade de vida^(16,17).

A triagem miofuncional orofacial foi realizada por meio do protocolo *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol* (ShOM), um protocolo para Triagem Miofuncional Orofacial em crianças com AOS. Originalmente, foi estruturado considerando: modo e tipo respiratório, competência labial, tônus labial, postura da língua no repouso e na deglutição, tônus do dilatador da asa do nariz, oclusão dentária, teste de Glatzel e teste de Rosenthal, totalizando 10 itens. Foram pontuados de 0 (normal) a 1 (alteração); uma soma de 10 significa o maior número de alterações miofuncionais orofaciais possíveis dentro deste protocolo⁽²⁰⁾. Foi realizada uma adaptação do protocolo para a população selecionada, sendo considerado 7 dos 10 itens, excluindo a avaliação do tipo respiratório, tônus do dilatador da asa do nariz e teste de *Glatzel*.

A triagem fonoaudiológica foi realizada por meio da análise de vídeos gravados durante as consultas no ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB -UNESP/ Botucatu, após autorização específica informada no Termo de Consentimento. A gravação foi realizada por uma pessoa treinada pelas fonoaudiólogas responsáveis a partir de um roteiro pré-estabelecido, de maneira que fosse possível avaliar cada item que compõe o protocolo ShOM. A análise das filmagens foi

realizada posteriormente por duas fonoaudiólogas, separadamente, com experiência na especialidade de Motricidade Orofacial, de acordo com critérios já estabelecidos na clínica fonoaudiológica. A triagem foi realizada sem o conhecimento prévio dos resultados da polissonografia e dos questionários do sono.

Análise dos dados

Foi realizada análise descritiva, apresentando a frequência, média e desvio padrão. Os dados dos questionários/protocolos PSQ, OSA-18 e ShOM foram comparados entre si e com os dados polissonográficos, índice de apneia e hipopneia (IAH), apneias obstrutivas, hipopneias, apneias centrais e saturação de oxihemoglobina, por meio do programa *Jamovi* (versão 1.2.2.5), utilizando o teste de correlação de *Spearman*. Foi adotado o nível de significância de < 0,05 (*).

RESULTADOS

O grupo foi composto de 12 crianças com SD e AOS; sendo 6 do sexo masculino, com idade média de 8,08 anos ($\pm 2,75$), idade mínima de 4 anos e máxima de 12 anos. Os dados referentes a cada variável individual analisada estão descritos na Tabela 1.

Em relação aos dados nutricionais, foi utilizado o critério que considera o Índice de Massa Corpórea (IMC = peso [kg]/estatura [m²]), sexo e idade. Os pontos de corte formam escores de IMC por idade em crianças (*escore-Z*)⁽²¹⁾, tendo sido observada obesidade em 6 crianças e sobrepeso em 3 (Tabela 1).

Na triagem miofuncional orofacial, foi possível analisar 7 dos 10 itens que compõem o protocolo ShOM por meio das gravações realizadas durante as consultas no ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB -UNESP/ Botucatu. Foram avaliados os seguintes itens: modo respiratório, competência labial, tônus labial, posição da língua, posição da língua na deglutição, oclusão dentária, Teste de Rosenthal, conforme descrito na tabela 2. A média do grupo foi de 5,42 ($\pm 1,4$), sendo observada pontuação mínima = 4 e máxima = 7. Todos os indivíduos apresentaram alterações miofuncionais orofaciais. Quanto maior a pontuação alcançada, maior o comprometimento miofuncional orofacial (Tabelas 1 e 2).

Tabela 1. Dados individuais de crianças com SD e AOS

N	Idade	Sexo	IMC	Escore-z	IAH	AO	AC	HIPO	%SPO ₂ MIN	%SPO ₂ MÉD	%SPO ₂ <90	PSQ	OSA-18	ShOM
01	7	F	27,3	obesidade	1,7	1,2	0,3	0,2	92	97	0,0	14	94	4
02	10	M	27,3	obesidade	6,3	0,6	1,8	3,9	81	93	9,3	8	67	5
03	9	F	20,5	sobrepeso	6,8	1,4	3,7	1,7	90	97	0,0	3	31	6
04	10	F	18,4	eutrofia	8,4	3,1	4,3	0,9	89	98	0	11	100	2
05	5	F	15,4	eutrofia	8,6	0	2,5	6,1	87	95	0,1	6	45	5
06	11	M	26	obesidade	9,7	0,7	1,8	7,1	85	96	0,1	7	38	6
07	7	M	24	obesidade	11	4,3	0,2	6,5	88	97	0,0	9	84	7
08	12	F	29	obesidade	11,2	11,2	3	0	74	94	4,7	2	41	5
09	11	M	16,2	eutrofia	18,6	0,1	4	14,5	89	96	0,0	8	60	6
10	5	F	20,4	sobrepeso	20,4	2,8	0	17,6	82	95	0,2	18	107	7
11	4	M	17,2	sobrepeso	21,8	11,6	0	10,1	78	94	5,1	9	38	6
12	6	M	23,9	obesidade	25,1	0,9	6,7	17,5	76	96	1,0	20	97	6

Legenda: SD = Síndrome de Down; AOS = apneia obstrutiva do sono; N = indivíduo; IMC = índice de massa corpórea; IAH = índice de apneia e hipopneia; AO = apneia obstrutiva; AC = apneia central; HIPO = hipopneias; %SPO₂ MIN = porcentagem de saturação de oxigênio mínima; %SPO₂ MÉD = porcentagem de saturação de oxigênio média; %SPO₂ <90 = porcentagem de tempo com saturação de oxigênio abaixo de 90; PSQ = *Pediatric Sleep Questionnaire*; OSA-18 = Protocolo OSA-18; ShOM = *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol*

Tabela 2. Resultados dos itens avaliados pelo protocolo ShOM

ShOM	SD (N=12)	
Pontuação máxima = 7	Alterado	Normal
Modo Respiratório	10 (83,33%)	2 (16,66%)
Competência de lábios	6 (50%)	6 (50%)
Tônus dos lábios	10 (83,33%)	2 (16,66%)
Posição da língua	12 (100%)	0
Posição da língua na deglutição	12 (100%)	0
Oclusão	5 (41,66%)	7 (58,33%)
Teste de Rosenthal	10 (83,33%)	2 (16,66%)

Legenda: ShOM = Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol; SD = Síndrome de Down; N= número de indivíduos

Quanto aos dados polissonográficos, o IAH médio encontrado foi de 12,5 eventos por hora de sono ($\pm 7,24$), sendo que 1 criança (8,33%) foi diagnosticada com AOS Leve (1,1 – 5 e/h), 5 crianças (41,66%) com AOS Moderada (5,1 – 10 e/h), e 6 crianças (50%) com AOS Grave (> 10 e/h) (Tabela 3). Além das apneias obstrutivas e hipopneias, também foram observadas apneias centrais, em que o esforço respiratório está ausente ou diminuído, com valor médio de 2,36 eventos por hora de sono ($\pm 2,09$), podendo se relacionar a outras condições de saúde como as alterações cardiovasculares, comorbidades frequentes nesta população. A média do percentual de saturação de oxigênio (SpO_2) mínima foi 84,3 ($\pm 5,94$), para SpO_2 média foi 95,7 ($\pm 1,5$), e percentual de tempo abaixo de 90% de SpO_2 foi 1,71 ($\pm 3,02$) (Tabela 3).

Nos questionários relacionados ao sono, a pontuação média para o PSQ foi de 10,1 ($\pm 4,94$) e OSA-18 foi de 66,8 ($\pm 28,3$). A pontuação alcançada nos dois questionários sugere risco aumentado para AOS (Tabela 3).

Após a aplicação do teste de coeficiente de correlação de *Spearman*, foi possível observar uma correlação positiva entre o ShOM e IAH ($p=0,038$), e entre o ShOM e número de hipopneias ($p=0,005$) conforme consta na Tabela 3. A correlação entre as variáveis descritas evidenciou que pontuações mais altas no ShOM se relacionam com maior gravidade da AOS.

DISCUSSÃO

AAOS acomete entre 31% e 71% das crianças com SD^(4,10,11), enquanto na população pediátrica com desenvolvimento típico, a prevalência é de 1% a 4%⁽⁷⁾. O risco aumentado de AOS em crianças com SD se deve, especialmente, aos fenótipos relacionados à hipotonia e características craniofaciais como a hipoplasia de terço facial médio e base craniana.

Na SD, a condição muscular e as funções orofaciais e faríngeas contribuem para o colapso completo ou parcial da VAS durante as apneias e/ou hipopneias obstrutivas durante o sono, influenciando assim, no IAH, um dos parâmetros de gravidade da AOS⁽²²⁾. Os resultados obtidos nesse estudo com crianças com SD e AOS evidenciaram a presença de alterações miofuncionais orofaciais em todas as crianças, com níveis variados de comprometimento das estruturas orais quanto à postura, tônus de lábios e língua e alterações nas funções de respiração, mastigação e deglutição. Apesar da reduzida casuística, foi verificada uma correlação positiva ($p=0,038$) entre a pontuação alcançada no protocolo de ShOM e o IAH, e entre o ShOM e o número de hipopneias

($p=0,005$), sugerindo assim, que quanto maior a pontuação no ShOM, ou seja, quanto maior o comprometimento miofuncional orofacial, maior a gravidade da AOS.

A identificação de marcadores clínicos com potencial de predição da AOS em crianças com SD facilitaria o diagnóstico precoce e tratamento, bem como a prevenção de morbidades. No entanto, até o momento, a literatura apresenta associação inconsistente ou frágil entre preditores clínicos e biomarcadores para a presença de AOS na referida população⁽²³⁾.

No presente estudo foram considerados 7 dos 10 itens que compõem o protocolo ShOM original. Tal fato se deu pela dificuldade na compreensão dos comandos pelos indivíduos da amostra para execução dos 3 testes excluídos (tipo respiratório, tônus nasal e espelho de Glatzel, ou pela dificuldade de análise exclusiva por meio dos vídeos. Ressalta-se que este protocolo possibilita avaliar as alterações miofuncionais orofaciais frequentes na população pediátrica com alterações respiratórias obstrutivas do sono de forma rápida e padronizada. Entretanto, ainda não foi realizada sua validação, bem como não foi estabelecida uma pontuação de corte como parâmetro de identificação de AOS. Novos estudos com maior casuística deverão mensurar o potencial e peso de cada item isoladamente.

A média do escore geral foi de 5,42 ($\pm 1,4$), correspondendo a 77% da pontuação máxima de 7, sendo observada respiração predominantemente oral ou mista, alteração no tônus e competência labial, alteração na postura de língua em repouso e postura de língua na deglutição, assim como alteração na oclusão dentária e no Teste de Rosenthal. No estudo multicêntrico de Corrêa et al.⁽¹³⁾, crianças brasileiras e italianas típicas com AOS foram avaliadas por PSG e submetidas aos protocolos ShOM, OSA-18 e *Sleep clinical Record* (SCR), protocolo italiano que analisa parâmetros clínicos e sintomas para estimar o risco para a AOS. Foram identificadas alterações miofuncionais orofaciais semelhantes a este estudo piloto, como alterações do tônus labial, modo respiratório (oral), má oclusão dentária, alteração de postura de língua no repouso e na deglutição, incompetência dos lábios, alteração no teste de Rosenthal e alteração no teste de Glatzel. A média no ShOM foi de $5,64 \pm 2,27$, correspondente a 54% da pontuação máxima de 10. No entanto, uma vez que foram considerados os 10 itens originais do protocolo, as crianças típicas com AOS expressaram uma pontuação mais baixa do que as crianças com SD e AOS deste estudo, sugerindo um maior comprometimento miofuncional orofacial das crianças deste estudo, o que é compatível com a literatura por se tratar de crianças com SD^(4,6,11,23).

Tabela 3. Correlação entre ShOM e IAH, ShOM e hipopneias

Correlação de Spearman*															
	M ± DP		IDADE	IMC	IAH	AO	AC	AM	HIPO	%SPO ₂ MIN	%SPO ₂ MED	%SPO ₂ <90	PSQ	OSA-18	ShOM
IDADE	8.08 (± 2,75)	Rho de Spearman	—												
		p-valor	—												
IMC	22,1 (± 4,73)	Rho de Spearman	0.462	—											
		p-valor	0.13	—											
IAH	12.5 (± 7,24)	Rho de Spearman	-0.289	-0.319	—										
		p-valor	0.363	0.313	—										
AO	3.16 (± 4,06)	Rho de Spearman	-0.13	0.207	0.273	—									
		p-valor	0.687	0.519	0.391	—									
AC	2.36 (± 2,09)	Rho de Spearman	0.454	-0.118	-0.018	-0.333	—								
		p-valor	0.138	0.716	0.957	0.29	—								
AM	0,01 (± 0,034)	Rho de Spearman	-0.098	-0.065	0.259	0.194	-0.39	—							
		p-valor	0.762	0.841	0.416	0.545	0.21	—							
HIPO	7,17 (± 6,46)	Rho de Spearman	-0.44	-0.473	0.734**	-0.189	-0.168	0.259	—						
		p-valor	0.152	0.121	0.007	0.557	0.601	0.416	—						
%SPO ₂ MIN	84,3 (±5,94)	Rho de Spearman	0.074	-0.218	-0.62*	-0.235	0.081	-0.26	-0.277	—					
		p-valor	0.819	0.497	0.032	0.463	0.803	0.415	0.384	—					
%SPO ₂ MED	95,7 (± 1,5)	Rho de Spearman	0.097	-0.093	-0.306	0.064	0.321	-0.231	-0.192	0.767**	—				
		p-valor	0.765	0.774	0.333	0.843	0.308	0.471	0.55	0.004	—				
%SPO<90	1,71 (± 3,02)	Rho de Spearman	-0.165	0.229	0.36	0.105	-0.235	0.303	0.189	-0.899***	-0.9***	—			
		p-valor	0.609	0.474	0.251	0.745	0.462	0.339	0.557	<.001	<.001	—			
PSQ	10,1 (± 4,94)	Rho de Spearman	-0.355	0.132	0.396	0.396	-0.116	-0.163	0.263	-0.213	0.138	0.102	—		
		p-valor	0.257	0.683	0.202	0.202	0.719	0.614	0.409	0.507	0.67	0.752	—		
OSA-18	66.8 (± 28,3)	Rho de Spearman	-0.22	0	0.088	0.007	0.028	-0.519	0.207	0.049	0.244	-0.115	0.8**	—	
		p-valor	0.491	1	0.787	0.983	0.931	0.084	0.519	0.879	0.444	0.723	0.002	—	
ShOM	5.42 (± 1,38)	Rho de Spearman	-0.291	-0.165	0.604*	0.154	-0.369	0.203	0.75**	-0.176	-0.061	0.019	0.064	-0.059	—
		p-valor	0.358	0.608	0.038	0.633	0.238	0.526	0.005	0.584	0.849	0.953	0.843	0.856	—

*p < .05; **p < .01; ***p < .001

Legenda: M = média; DP = Desvio Padrão; IMC = índice de massa corpórea; IAH = índice de apneia e hipopneia; AO = apneia obstrutiva; AC = apneia central; AM = apneia mista; HIPO = hipopneias; %SPO₂ MIN = percentagem de saturação de oxigênio mínima; %SPO₂ MED = percentagem de saturação de oxigênio média; %SPO₂ <90 = percentagem de tempo com saturação de oxigênio abaixo de 90; PSQ = *Pediatric Sleep Questionnaire*; OSA-18 = Protocolo OSA-18; ShOM = *Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol*

Estudos demonstram dificuldade ou não conseguem comprovar que fatores como idade, sexo, exposição ao cigarro, achados clínicos, dados antropométricos e presença de comorbidades, a não ser a doença cardíaca congestiva, sejam considerados preditivos da severidade da AOS em crianças com SD^(23,24). Entretanto, até o momento, nunca fora investigada e identificada a correlação apresentada nesse estudo piloto entre alterações nos aspectos miofuncionais orofaciais e a gravidade da AOS.

Quanto ao período de maior incidência da AOS na criança, estudos apontam a idade entre 2 e 8 anos de idade⁽⁷⁾. Diez et al.⁽²⁴⁾ descrevem como fatores preditivos para a AOS, crianças com idade abaixo de oito anos, do sexo masculino e com hipertrofia adenotonsilar. A idade média do grupo estudado foi de 8,08 anos ($\pm 2,75$), sendo 6 crianças do gênero masculino e 6 do feminino. 25% das crianças apresentaram sobrepeso e 50%, obesidade, mas sem correlação estatística com o IAH. Dyken et al.⁽²⁵⁾ afirmam haver uma associação entre IMC mais elevado em crianças mais velhas e AOS severa. A correlação entre sobrepeso e obesidade já é comprovada na população adulta, no entanto, ainda há controvérsias quando se trata de crianças⁽²³⁾. Há que se considerar que o grupo estudado possui outras características influenciadoras na gravidade do distúrbio além do IMC elevado, quais sejam a própria condição genética e comprometimento da morfologia e funcionalidade das estruturas orofaríngeas e do trato respiratório^(12,23). Em estudo conduzido por Hizal et al.⁽²⁴⁾, não foram encontradas correlações entre AOS, idade, IMC e tamanho das tonsilas, assim como os achados deste estudo referente à idade e IMC⁽²⁵⁾.

AAOS na SD, embora muito prevalente, ainda é subdiagnosticada e apresenta uma grande variedade de comorbidades como disfunções neurocognitivas e de aprendizagem, alterações comportamentais, cardiovasculares e metabólicas. O desenvolvimento das comorbidades pode estar associado não somente ao IAH e dessaturações de oxigênio, mas à presença de apneias centrais, como identificada nesse estudo, média de 2,36 eventos por hora de sono ($\pm 2,09$), interferindo, assim, no crescimento e o desenvolvimento infantil, fato que reforça a importância do diagnóstico precoce^(24,25).

A Academia Americana de Pediatria recomenda a investigação da AOS na SD precocemente aos 6 meses, quando há queixas como respiração “pesada”, roncos, posição incomum ao dormir, sonolência diurna, paradas respiratórias e problemas comportamentais⁽²⁶⁾. Na ausência de queixas durante as visitas pediátricas de rotina, é sugerida a realização da polissonografia (PSG) – exame padrão-ouro para diagnóstico de distúrbios do sono – entre 3 e 4 anos de idade para todas as crianças com SD^(11,24,26). Entretanto, mesmo em um ambiente acadêmico, como o local de desenvolvimento deste estudo, a acessibilidade da criança com SD à PSG ainda é restrito e mais tardio do que o recomendado. Este fato se relaciona ao elevado custo do exame, reduzida oferta de serviços com equipamentos e equipe especializada na realização da PSG na população pediátrica^(4,7,15,27).

Além da PSG, instrumentos de rastreamento relacionados ao sono da criança como o PSQ⁽¹⁵⁾ e OSA-18^(16,17) fazem parte da rotina de investigação de indivíduos com transtornos do sono, auxiliando na identificação de risco para o diagnóstico da AOS. São ferramentas importantes na impossibilidade da realização da PSG. São considerados de fácil e rápida aplicação e buscam analisar a presença de sintomas, frequência, repercussões físicas

e comportamentais. No entanto, a validação desses questionários na criança é limitada, uma vez que somente de 13% a 27% dos pais/responsáveis reconhecem a existência de problemas relacionados ao sono das suas crianças⁽²⁸⁾.

O PSQ investiga diferentes aspectos da qualidade do sono, roncos e questões comportamentais como desatenção e hiperatividade. Possui sensibilidade e especificidade avaliada em 78% e 72%, respectivamente⁽¹⁹⁾, demonstrando que a avaliação da qualidade de sono pode ser um importante parâmetro na identificação de crianças com potencial de risco para AOS⁽²⁹⁾. Nesse estudo, a pontuação média do PSQ foi de 9,6 ($\pm 5,5$), evidenciando risco aumentado para AOS nas crianças com SD, mas sem correlação com a gravidade da AOS.

O OSA-18 reflete o impacto do sono na qualidade de vida das crianças, considerando o sofrimento físico, sofrimento emocional, problemas diurnos e preocupação dos pais. No entanto, na amostra estudada, não foi identificada uma correlação entre a pontuação média de 66,8 ($\pm 28,6$), que significa impacto moderado na qualidade de vida, e o IAH, confirmando dados já descritos nos *guidelines* do *European Respiratory Society Task Force*, que sugerem que o questionário possui baixa sensibilidade e especificidade^(29,30). Também não foi verificada correlação entre as condições miofuncionais orofaciais e a pontuação obtida nesses instrumentos de rastreamento do sono infantil.

No estudo de Corrêa et al.⁽¹³⁾, foi demonstrada uma correlação entre alteração na posição da língua em repouso e na deglutição com um maior IAH em crianças típicas com AOS, corroborando assim, com o resultado observado neste estudo piloto que evidenciou relação entre alterações posturais e funcionais das estruturas orofaríngeas e um maior número de apneia/hipopneias obstrutivas do sono.

Embora a reduzida casuística seja fator de ressalvas aos resultados apontados por esse estudo piloto, foi possível comprovar a hipótese que a identificação das condições miofuncionais orofaciais de crianças com SD pode auxiliar na identificação de risco e gravidade da AOS. Assim, considerando que os distúrbios miofuncionais orofaciais (DMOs) estão presentes em menor ou maior grau em indivíduos com SD, é imprescindível a identificação e quantificação das alterações da postura, mobilidade e tônus da musculatura orofacial, assim como nas funções de respiração, sucção, deglutição, mastigação e fala por meio da inserção do fonoaudiólogo nas equipes multidisciplinares de especialistas do sono^(4,6,11-13).

Esse é um estudo piloto de forma que mais pesquisas são necessárias contendo uma população determinada por um cálculo amostral a fim de compreender a relação entre as alterações miofuncionais orofaciais em crianças com SD e a presença e gravidade da AOS, bem como validar os questionários utilizados nessa população.

Por fim, a busca por instrumentos e métodos auxiliares no diagnóstico dos distúrbios respiratórios obstrutivos do sono na criança objetiva otimizar a identificação de risco e gravidade da AOS em situações de dificuldade e ou impossibilidade de acesso à PSG, exame padrão ouro para diagnóstico de distúrbios do sono. O diagnóstico assertivo e precoce possibilita minimizar comorbidades, identificando de maneira objetiva os padrões respiratórios obstrutivos e centrais durante o sono que impactam negativamente na saúde física, cognitiva e comportamental das crianças com SD e AOS.

CONCLUSÕES

A avaliação da condição miofuncional orofacial pode ser considerada um recurso importante para aplicação clínica na investigação de risco para AOS em crianças com SD, sendo observada uma correlação positiva entre o ShOM e o IAH, e ShOM e número de hipopneias, ou seja, quanto maior a pontuação, e, portanto, pior condição miofuncional orofacial, maior a gravidade da AOS. No entanto, é possível inferir a importância em adotar a avaliação fonoaudiológica como parte integrante da investigação de risco para os distúrbios respiratórios do sono.

AGRADECIMENTOS

CNPq nível 2, processo 314365/2021-4, vigência 2022 a 2025

REFERÊNCIAS

1. Agarwal Gupta N, Kabra M. Diagnosis and management of Down syndrome. *Indian J Pediatr*. 2014;81(6):560-7. <http://doi.org/10.1007/s12098-013-1249-7>. PMID:24127006.
2. Kaczorowska N, Kaczorowski K, Laskowska J, Mikulewicz M. Down syndrome as a cause of abnormalities in the craniofacial region: a systematic literature review. *Adv Clin Exp Med*. 2019;28(11):1587-92. <http://doi.org/10.17219/acem/112785>. PMID:31778604.
3. Antonarakis SE, Skotko BG, Raffi MS, Strydom A, Pape SE, Bianchi DW, et al. Down syndrome. *Nat Rev Dis Primers*. 2020;6(1):9. <http://doi.org/10.1038/s41572-019-0143-7>. PMID:32029743.
4. Lee CF, Lee CH, Hsueh WY, Lin MT, Kang KT. Prevalence of obstructive sleep apnea in children with Down syndrome: a meta-analysis. *J Clin Sleep Med*. 2018;14(5):867-75. <http://doi.org/10.5664/jcsm.7126>. PMID:29734982.
5. Berry RB, Brooks R, Gamaldo CE, Harding SM, Lloyd RM, Marcus CL, et al. The AASM manual for the scoring of sleep and associated events: rules, terminology and technical specifications, version 2.2 [Internet]. Darien: American Academy of Sleep Medicine; 2015 [citado em 2023 Maio 26]. Disponível em: www.aasmnet.org
6. Gulotta G, Iannella G, Vicini C, Polimeni A, Greco A, de Vincentiis M, et al. Risk Factors for Obstructive Sleep Apnea Syndrome in Children: state of the Art. *Int J Environ Res Public Health*. 2019;16(18):3235. <http://doi.org/10.3390/ijerph16183235>. PMID:31487798.
7. Lumeng JC, Chervin RD. Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea. *Proc Am Thorac Soc*. 2008;5(2):242-52. <http://doi.org/10.1513/pats.200708-135MG>. PMID:18250218.
8. Arens R, Sin S, Nandalike K, Rieder J, Khan UI, Freeman K, et al. Upper airway structure and body fat composition in obese children with obstructive sleep apnea syndrome. *Am J Respir Crit Care Med*. 2011;183(6):782-7. <http://doi.org/10.1164/rccm.201008-1249OC>. PMID:20935105.
9. Tavasoli A, Jalilolghadr S, Lotfi S. Sleep symptoms and polysomnographic patterns of obstructive sleep apnea in obese children. *Iran J Child Neurol*. 2016;10(1):14-20. PMID:27057182.
10. Stores G, Stores R. Sleep disorders and their clinical significance in children with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol*. 2013;55(2):126-30. <http://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2012.04422.x>. PMID:22937986.
11. Goffinski A, Stanley MA, Shepherd N, Duvall N, Jenkinson SB, Davis C, et al. Obstructive Sleep apnea in young infants with Down syndrome evaluated in a Down syndrome specialty clinic. *Am J Med Genet A*. 2015;167(2):324-30. <http://doi.org/10.1002/ajmg.a.36903>. PMID:25604659.
12. Felício CM, Folha GA, Ferreira CL, Medeiros AP. Expanded protocol of orofacial myofunctional evaluation with scores: validity and reliability. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2010;74(11):1230-9. <http://doi.org/10.1016/j.ijporl.2010.07.021>. PMID:20800294.
13. Corrêa CC, Weber SAT, Evangelisti M, Villa MP. The short evaluation of orofacial myofunctional protocol (ShOM) and the sleep clinical record in pediatric obstructive sleep apnea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2020;137:110240. <http://doi.org/10.1016/j.ijporl.2020.110240>. PMID:32896353.
14. Giannasi LC, Dutra MTS, Tengan VLS, Mancilha GP, Silva GRC, Fillietaz-Bacigalupo E, et al. Evaluation of the masticatory muscle function, physiological sleep variables, and salivary parameters after electromechanical therapeutic approaches in adult patients with Down syndrome: a randomized controlled clinical trial. *Trials*. 2019;20(1):215. <http://doi.org/10.1186/s13063-019-3300-0>. PMID:30975204.
15. Martins CAN, Deus MM, Abile IC, Garcia DM, Anselmo-Lima WT, Miura CS, et al. Translation and cross-cultural adaptation of the pediatric sleep questionnaire (PSQ*) into Brazilian Portuguese. *Rev Bras Otorrinolaringol*. 2022;88(Suppl 1):S63-9. PMID:33972191.
16. Fernandes FMVS, Teles RCVV. Application of the Portuguese version of the obstructive sleep apnea-18 survey to children. *Rev Bras Otorrinolaringol*. 2013;79(6):720-6. PMID:24474484.
17. Bitners AC, Arens R. Evaluation and management of children with obstructive sleep apnea syndrome. *Lung*. 2020;198(2):257-70. <http://doi.org/10.1007/s00408-020-00342-5>. PMID:32166426.
18. Kaditis AG, Alonso Alvarez ML, Boudewyns A, Alexopoulos EI, Ersu R, Joosten K, et al. Obstructive sleep disordered breathing in 2- to 18-year-old children: diagnosis and management. *Eur Respir J*. 2016;47(1):69-94. <http://doi.org/10.1183/13993003.00385-2015>. PMID:26541535.
19. Chervin RD, Hedger K, Dillon JE, Pituch KJ. Pediatric sleep questionnaire (PSQ): validity and reliability of scales for sleep: disordered breathing, snoring, sleepiness, and behavioral problems. *Sleep Med*. 2000;1(1):21-32. [http://doi.org/10.1016/S1389-9457\(99\)00009-X](http://doi.org/10.1016/S1389-9457(99)00009-X). PMID:10733617.
20. Villa MP, Sujanska A, Vitelli O, Evangelisti M, Rabasco J, Pietropaoli N, et al. Use of the sleep clinical record in the follow-up of children with obstructive sleep apnea (OSA) after treatment. *Sleep Breath*. 2016;20(1):321-9. <http://doi.org/10.1007/s11325-015-1287-7>. PMID:26564170.
21. Bertapelli F, Agiovlasitis S, Machado MR, do Val Roso R, Guerra-Junior G. Growth charts for Brazilian children with Down syndrome: birth to 20 years of age. *J Epidemiol*. 2017;27(6):265-73. <http://doi.org/10.1016/j.je.2016.06.009>. PMID:28320584.
22. Jayaratne YSN, Elsharkawi I, Macklin EA, Voelz L, Weintraub G, Rosen D, et al. The facial morphology in Down syndrome: A 3D comparison of patients with and without obstructive sleep apnea. *Am J Med Genet A*. 2017;173(11):3013-21. <http://doi.org/10.1002/ajmg.a.38399>. PMID:28815893.
23. Hanna N, Hanna Y, Blinder H, Bokhaut J, Katz SL. Predictors of sleep disordered breathing in children with Down syndrome: a systematic review and meta-analysis. *Eur Respir Rev*. 2022;31(164):220026. <http://doi.org/10.1183/16000617.0026-2022>. PMID:35768130.
24. Hizal M, Satirer O, Polat SE, Tural DA, Ozsezen B, Sunman B, et al. Obstructive sleep apnea in children with Down syndrome: is it possible to predict severe apnea? *Eur J Pediatr*. 2022;181(2):735-43. <http://doi.org/10.1007/s00431-021-04267-w>. PMID:34562164.
25. Dyken ME, Lin-Dyken DC, Poulton S, Zimmerman MB, Sedars E. Prospective polysomnographic analysis of obstructive sleep apnea in down syndrome. *Arch Pediatr Adolesc Med*. 2003;157(7):655-60. <http://doi.org/10.1001/archpedi.157.7.655>. PMID:12860786.
26. Bull MJ, Trotter T, Santoro SL, Christensen C, Grout RW. Health supervision for children and adolescents with Down syndrome. *Pediatrics*. 2022;149(5):e2022057010. <http://doi.org/10.1542/peds.2022-057010>. PMID:35490285.
27. Veloso IL, Corrêa CC, Tagliarini JV, Weber SAT. Unsupervised type III polygraphy in children undergoing adenotonsillectomy: a technical and economic report. *Sleep Sci*. 2021;14(4):370-4. <http://doi.org/10.5935/1984-0063.20200094>. PMID:35087635.
28. Cavaleiro MG, Corrêa CC, Maximino LP, Weber SAT. Sleep quality in children: questionnaires available in Brazil. *Sleep Sci*. 2017;10(4):154-60. <http://doi.org/10.5935/1984-0063.20170027>. PMID:29410747.
29. Panzarella V, Giuliana G, Spinuzza P, La Mantia G, Maniscalco L, Pizzo G, et al. Paediatric sleep questionnaire for obstructive sleep apnoea syndrome screening: is sleep quality worthy of note? *Appl Sci*. 2021;11(4):1440. <http://doi.org/10.3390/app11041440>.
30. Borgström A, Nerfeldt P, Friberg D. Questionnaire OSA-18 has poor validity compared to polysomnography in pediatric obstructive sleep apnea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2013;77(11):1864-8. <http://doi.org/10.1016/j.ijporl.2013.08.030>. PMID:24055180.

Contribuição dos autores

DBS participou da idealização do estudo, da coleta de dados, análise, interpretação dos dados, redação e revisão do artigo; CCC participou da análise e interpretação dos dados e redação do artigo; SATW participou da idealização do estudo, redação e revisão do artigo.

ARTIGO II

Protocolo miofuncional orofacial melhora a predição de AOS moderada a grave em crianças com síndrome de Down

As crianças com síndrome de Down (DS) estão em alto risco de AOS devido à combinação de fatores de risco como obesidade, hipotonia muscular, macroglossia e distúrbios craniofaciais. Os instrumentos de triagem tradicionais mostram baixa precisão. Nós levantamos a hipótese de que a avaliação miofuncional orofacial melhora a identificação da criança em risco. O objetivo foi avaliar a acurácia do protocolo miofuncional orofacial curto ShOM isoladamente e combinado com PSQ e OSA-18, prevendo AOS moderada-grave em crianças DS.

Métodos: Crianças SD, 3 a 15 anos, realizaram polissonografia e avaliação do protocolo ShOM (móbio respiratório, tônus e competência dos lábios, posição da língua em repouso e durante a deglutição, oclusão dentária, teste de Rosenthal. Os pais responderam aos questionários PSQ e OSA-18. A correlação foi testada entre ShOM, IA e IA obstrutiva (Spearman). Acurácia e a curva ROC para predição de OSA moderada-grave foram calculadas para ShOM, PSQ e OSA-18. Resultados: participaram 20 crianças. ShOM e AHI ($p=0,007$) e oAI ($p=0,014$) foram correlacionados. Para previsão de AOS moderada-grave, a sensibilidade e a especificidade de ShOM foram de 88,24% e 66,67%, respectivamente, acurácia 85%. O PSQ apresentou 60%, 60% e 55% de especificidade de sensibilidade e acurácia, respectivly. A OSA-18 apresentou valores semelhantes (56,50,55%, respectivamente). Combinando ShOM com os questionários, a precisão do PSQ melhorou para 80%, enquanto a OSA-18 mudou para 60%.

Conclusão: A avaliação dos caracterisios miofuncionais orofaciais por ShOM melhora a acurácia da predição de AOS grave moderada nessa população.

Notas de rodapé

ERJ Open Research 2025; 11: Suppl. 16, 67.

ARTIGO III

Avaliação miofuncional Orofacial em crianças com Síndrome de Down e apneia obstrutiva do sono

Introdução: A Síndrome Obstrutiva da Apneia do Sono (SAO) é altamente prevalente em crianças com síndrome de Down, devido à sua posição craniofacial específica (hipoplasia da maxila), além de obesidade e macroglossia relativa. No entanto, as funções orofaciais não são avaliadas rotineiramente. O estudo teve como objetivo avaliar o protocolo miofuncional orofacial curto (OPAS) em crianças com síndrome de Down e correlacioná-lo com resultados polissonográficos.

Materiais e Métodos: O estudo foi aprovado pela comissão de ética local. Todas as crianças do ambulatório pediátrico foram convidadas a realizar polissonografia de noite inteira, independentemente das queixas respiratórias como ronco ou apneias observadas. No momento do exame, todas as crianças realizavam o protocolo do exame ShOM, que classifica o padrão respiratório, a competência e o tônus dos lábios, a posição da língua, a deglutição, o teste Rosenthal, com escore variando de 0 a 7, o maior com os distúrbios mais intensos.

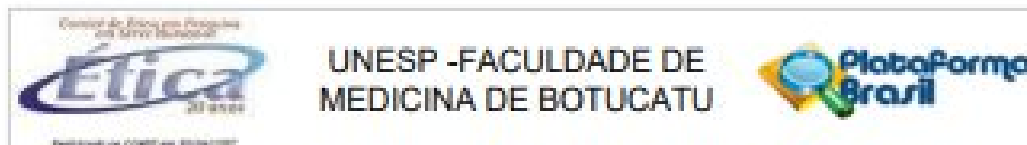
Resultados: Foram incluídas 15 crianças com síndrome de Down, 8 meninas, com idade entre 4 e 15 anos, média de 9,2 anos. Todos, exceto um, foram diagnosticados AOS, 8 tinham AOS grave e 5 moderada. O escore médio de ShOM foi de 5,9 +/- 1,4. 14 crianças apresentaram respiração oral, 13 teste Rosenthal positivo, 8 apresentaram palato arqueado alto, 9 apresentaram distúrbios na competência dos lábios e 14 no tônus labial, a postura da língua foi errônea em 14, mastigação em 15 e deglutição em 15. Taxas de pontuação 6 e 7 correlacionaram-se com AOS grave.

Conclusões: A avaliação miofuncional orofacial pode ajudar a identificar diferentes fenótipos em crianças com síndrome de Down com AOS, como em não sindrômicas, potencializando a necessidade de uma abordagem multidisciplinar.

Notas de rodapé

Eur Respir J 2022; 60: Suppl. 66, 2049.

ANEXO I - PARECER CEP



PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

DADOS DO PROJETO DE PESQUISA

Título da Pesquisa: CARACTERIZAÇÃO MIOFUNCIONAL OROFACIAL E PERFIL POLISSONOGRÁFICO DE CRIANÇAS COM SÍNDROME DE DOWN

Pesquisador: DANIELLE BARRETO E SILVA

Área Temática:

Versão: 2

CAAE: 47939721.8.0000.5411

Instituição Proponente: Departamento de Oftalmologia/Otorrinolaringologia e de CCP

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 4.891.477

Apresentação do Projeto:

As informações descritas nos campos "Apresentação do Projeto", "Objetivo da Pesquisa" e "Avaliação dos Riscos e Benefícios" foram retiradas dos documentos e arquivo - Informações Básicas da Pesquisa.

Apresentação do Projeto: Os pesquisadores pretendem investigar as estruturas e funções miofuncionais orofaciais de uma população pediátrica com SD como fatores preditivos da AOS e correlacionar com resultados obtidos por meio de instrumentos de screening tests e dados polissonográficos. Serão incluídas cerca de 50 participantes caracterizados por crianças com SD, entre 4 e 11 anos, com exames de Polissonografia (PSG) tipo III, acompanhadas no ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB-UNESP. Critérios de elegibilidade adequados. Os participantes serão submetidos à avaliação médica e fonoaudiológica, exame de polissonografia e à screening tests relacionados ao sono que buscam analisar a presença de sintomas, frequência, repercussões físicas e comportamentais, além da inspeção física das estruturas e funções orofaciais. Os instrumentos de screening que serão utilizados são: - Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocolol – ShOM - protocolo para Triagem Miofuncional Orofacial em crianças com AOS; - Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ) – questiona sobre a frequência do ronco, ronco alto, apneias observadas, dificuldade para respirar durante o sono, sonolência diurna, comportamento desatento ou hiperativo e outras características pediátricas da AOS; -

Endereço: Chácara Bagagnoli, s/n

Bairro: Rubião Junior

CEP: 13.618-970

UF: SP

Município: BOTUCATU

Telefone: (14)3883-1839

E-mail: cep@fmb.unesp.br



UNESP -FACULDADE DE
MEDICINA DE BOTUCATU



Continuação do Parecer: 4.891.477

Versão Portuguesa do OSA-18 (OSA-18-pv) - analisa sintomas relacionados ao sono e qualidade do sono; Destaque Primário: É esperado que os resultados obtidos no protocolo ShOM a partir da caracterização miofuncional orofacial aumentem a especificidade e sensibilidade dos demais questionários de forma a auxiliar no diagnóstico da AOS em crianças com SD.

METODOLOGIA Projeto submetido e aguardando a autorização do CEP. As etapas descritas a seguir somente serão iniciadas mediante autorização expedida pelo Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos (CEP).

Etapas
Etapas 1 – Casuística Critério de inclusão: crianças com SD, entre 4 e 11 anos acompanhadas no ambulatório dos Distúrbios do Sono do Hospital das Clínicas da FMB-UNESP e após assinatura de Termo de Consentimento. Critério de exclusão: Crianças com distúrbios neurológicos, distúrbios neuromusculares ou uso de drogas que deprimem o sistema respiratório, conforme determinado por exame médico e anamnese.

Etapas 2 – Procedimentos A amostra selecionada será submetida à avaliação médica, fonoaudiológica e a instrumentos de screening relacionados à investigação do sono e às condições miofuncionais orofaciais. Será realizada polissonografia (PSG) tipo III, que é caracterizada por não ter a supervisão de técnico durante a noite inteira de monitorização do sono. A interpretação da PSG e divisão da casuística, será realizada de acordo com dois critérios: a) Crianças sem AOS (IAH5,6) (ALONSO-ÁLVAREZ et al., 2015). b) Grupos/percentil pelo Índice de Apnéia e Hipopnéia (IAH): Grupo 1 - ronco primário e AOS leve; Grupo 2 – AOS moderada e AOS grave. Os instrumentos de screening e de avaliação miofuncional orofacial que serão utilizados nesse estudo são: PSQ, OSA-18, SCR, ShOM e teste de fluência verbal. Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol - ShOM - é um protocolo para Triagem Miofuncional Orofacial em crianças com AOS.

Etapas 3 – Análise Estatística Será realizada análise descritiva e comparativa dos dados obtidos nos questionários/protocolos PSQ, OSA-18, SCR, ShOM e teste de fluência verbal com os dados polissonográficos (Polissonografia tipo III). Após levantamento dos dados, será feita análise estatística, por meio do programa Jamovi, para: • Calcular a frequência e especificar, por meio de dados descritivos, as alterações miofuncionais orofaciais e de fluência verbal em crianças com SD. • Calcular sensibilidade, especificidade e acurácia do ShOM para diagnóstico de AOS e AOS moderada/grave. • Calcular sensibilidade, especificidade e acurácia do ShOM associado aos questionários: PSQ, OSA-18, SCR para diagnóstico de AOS e AOS moderada/grave.

Endereço: Chácara Bagatelli, s/n

Bairro: Rubião Junior

CEP: 18.618-670

UF: SP

Município: BOTUCATU

Telefone: (14)3883-1833

E-mail: cep@fmb.unesp.br

Objetivo da Pesquisa:

Objetivos Gerais Investigar as estruturas e as funções miofuncionais orofaciais em crianças com Síndrome de Down como fator preditivo de apneia obstrutiva do sono.

Objetivos específicos 1. Avaliar as estruturas e funções miofuncionais orofaciais de uma amostra de crianças com Síndrome de Down, entre 4 e 11 anos, a partir da aplicação do protocolo Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol – ShOM, e comparar com dados obtidos em crianças sem SD, pareadas por idade. 2. Analisar a sensibilidade e especificidade dos questionários de screening mais utilizados para a identificação de AOS na população pediátrica em geral e aplicar em crianças com SD: PSQ, OSA-18, SCR comparando com os dados objetivos obtidos na polissonografia. 3. Analisar se os aspectos miofuncionais orofaciais de crianças com Síndrome de Down e AOS obtidos por meio do ShOM influenciam a sensibilidade e especificidade dos questionários/screening tests: PSQ, OSA-8, Sleep Clinical Record (SCR) comparando com os dados polissonográficos. 4. Comparar se crianças com SD e AOS tem pior desempenho nos testes de fluência verbal e fonarticulação em crianças com SD sem AOS.

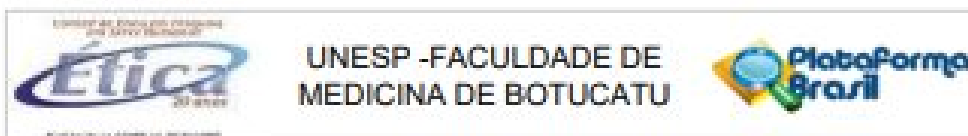
Avaliação dos Riscos e Benefícios:

Avaliação dos riscos e benefícios: RISCOS: A criança poderá apresentar cansaço, no entanto, as avaliações poderão ser interrompidas a qualquer momento conforme sua disposição e com consentimento dos responsáveis. Enfatiza-se que as crianças e os responsáveis terão total liberdade para continuar ou interromper os testes, sem que haja qualquer prejuízo para os mesmos. BENEFÍCIOS: A criança terá uma avaliação ampla das suas condições respiratórias, de sono e fonoaudiológicas e, caso necessário, será encaminhada para o tratamento sugerido.

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa:

Projeto de Danilo Luis Ruzafa, candidata a doutorado, sob orientação de Silke Anna Theresa Weber, da Disciplina de Otorrinolaringologia da Faculdade de Medicina de Botucatu-FMB- Unesp, cujo objetivo é investigar as estruturas e funções miofuncionais orofaciais de uma população pediátrica com Síndrome de Down como fatores preditivos da Apneia Obstrutiva do sono. O projeto está escrito de forma clara e apresenta todos os dados de identificação dos autores, identificação de onde será realizado, descrição dos objetivos, detalhamento da metodologia, bem como as referências que fundamentam e justificam a importância do desenvolvimento do tema abordado.

Endereço: Chácara Batignoli, s/n	
Bairro: Rubião Junior	CEP: 13.618-970
UF: SP	Município: BOTUCATU
Telefone: (14)3882-1629	E-mail: cesp@fmb.unesp.br



Continuação do Parecer: 4.891.477

Trata-se de um projeto factível. O pesquisador informa que haverá um custo de R\$ 3500,00. Haverá financiamento próprio.

Cronograma de execução: Recrutamento da amostra 01/12/2021 a 01/07/2023. finalização da pesquisa: 15/07/2024

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória:

Foram apresentados: • Folha de rosto- Termo de anuência institucional • Projeto na íntegra • Cronograma adequado e apresenta coerência entre brochura e plataforma • Questionários adequadamente anexados • TCLE e TALE aos participantes da pesquisa

Recomendações:

-

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações:

Após análise em REUNIÃO ORDINÁRIA, o Colegiado deliberou APROVADO o projeto de pesquisa apresentado.

Considerações Finais a critério do CEP:

Conforme deliberação do Colegiado, em REUNIÃO ORDINÁRIA do Comitê de Ética em Pesquisa FMB/UNESP, realizada em 02/08/2021, o Projeto de Pesquisa encontra-se APROVADO.

A coleta de dados deverá ser iniciada após data de aprovação do CEP.

Apresentar relatório final de atividades após finalização da pesquisa.

Att.

CEP-FMB

Este parecer foi elaborado baseado nos documentos abaixo relacionados:

Tipo Documento	Arquivo	Postagem	Autor	Situação
Informações Básicas do Projeto	PE_INFORMACOES_BASICAS_DO_P ROJETO_1782750.pdf	15/07/2021 19:35:06		Aceito
Outros	CARTARESPOSTA.docx	15/07/2021 17:00:11	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito
TCLE / Termos de Assentimento / Justificativa de Ausência	TCLEcorrigido.docx	15/07/2021 16:58:07	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito

Endereço: Chácara Batignoli, s/n

Bairro: Rubião Junior

CEP: 13.616-970

UF: SP

Município: BOTUCATU

Telefone: (14)3880-1609

E-mail: cep@fmb.unesp.br

Continuação do Parecer: 4.881.477

Outros	TermoDeAnuencialInstitucional.pdf	01/06/2021 14:11:23	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito
Outros	AnuencialHcSipe1632021.pdf	01/06/2021 14:10:41	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito
Folha de Rosto	FolhaDeRostoAssinada.pdf	01/06/2021 14:09:12	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito
Declaração de Instituição e Infraestrutura	AnuencialOtominis.pdf	27/05/2021 12:25:19	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito
Projeto Detalhado / Brochura Investigador	PROJETO.pdf	27/05/2021 10:03:52	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito
Cronograma	CRONOGRAMA.pdf	27/05/2021 09:58:23	DANIELLE BARRETO E SILVA	Aceito

Situação do Parecer:

Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:

Não

BOTUCATU, 07 de Agosto de 2021

Assinado por:
SILVANA ANDREA MOLINA LIMA
(Coordenador(a))

Endereço: Chácara Botucatu II, s/n

Bairro: Rubião Junior

UF: SP

Telefone: (14)3880-1609

Município: BOTUCATU

CEP: 13.618-070

E-mail: cep@fmb.unesp.br

PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

DADOS DA EMENDA

Título da Pesquisa: CARACTERIZAÇÃO MIOFUNCIONAL OROFACIAL E PERFIL POLISSONOGRAFICO DE CRIANÇAS COM SÍNDROME DE DOWN

Pesquisador: DANIELLE BARRETO E SILVA

Área Temática:

Versão: 3

CAAE: 47939721.8.0000.5411

Instituição Proponente: Departamento de Oftalmologia/Otorrinolaringologia e de OCP

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 5.238.710

Apresentação do Projeto:

Trata-se de emenda para correção de parecer onde consta "Projeto de Danilo Luis Ruzafa, candidata a doutorado, sob orientação de Silke Anna Theresa Weber...", leia-se " Projeto de DANIELLE BARRETO E SILVA, candidata a doutorado, sob orientação de Silke Anna Theresa Weber.....".

Objetivo da Pesquisa:

Não alterados.

Avaliação dos Riscos e Benefícios:

Não alterados.

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa:

Trata-se de emenda exclusiva para correção do nome do pesquisador no parecer.

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória:

Já avaliados anteriormente.

Recomendações:

-

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações:

Conforme deliberação do Colegiado, em REUNIÃO ORDINÁRIA do Comitê de Ética em

Endereço: Chácara Botucatu II, s/n

Bairro: Rubião Junior

CEP: 13.010-970

UF: SP

Município: BOTUCATU

Telefone: (14)3880-1609

E-mail: cep@fmb.unesp.br

ANEXO II

Short Evaluation of Orofacial Myofunctional Protocol (ShOM)

(VILLA et al., 2013; VILLA et al., 2016a; VILLA et al., 2016b).

<i>ShOM aspects</i>	<i>Normal (0)</i>	<i>Alteration (1)</i>
<i>Breathing mode</i>		
<i>Breathing type</i>		
<i>Lips Competence</i>		
<i>Lips tonus</i>		
<i>Tongue position</i>		
<i>Deglutition tongue</i>		
<i>Noise tonus</i>		
<i>Occlusion</i>		
<i>Glatzel test</i>		
<i>Rosenthal test Score</i>		
<i>Total ShOM</i>		

Escore de 1 a 10: 0 (normal) a 1 (alteração); uma soma de 10 significa o maior número de alterações miofuncionais orofaciais possíveis dentro deste protocolo

ANEXO III

ROTEIRO E MODELO DO VÍDEO– ORIENTAÇÕES PARA A GRAVAÇÃO DO VÍDEO - APLICAÇÃO DO SHOM-

Posicionar a câmera/telefone a 30 cm (mais ou menos) do rosto da criança!

Sempre buscar o foco na região da face (BOCA) e pescoço!!

Comandos:

1. Você pode me falar seu nome e quantos anos você tem?
2. “Você vai fazer um bico e depois um sorriso pra mim”. Fazer um bico (como se fosse mandar um beijo) e segurar 5s (contar até 5) Fazer um sorriso bem largo e aberto e manter por 5s.
3. “Você pode abrir a boca e deixar eu ver o dente lá de trás? Filmar a região mais ao fundo da boca e depois pedir para elevar a cabeça e filmar o céu da boca.
4. “Abrir a boca e fechar como se estivesse mordendo um biscoito com o dente lá de traz”. Deixar dentes aparentes de frente e depois filmar os dentes mais posteriores na lateral. Para a filmagem dos dentes posteriores, afastar a bochecha lateralmente de ambos os lados.
5. “Agora você vai deixar a boca bem fechada”. Desafio é não abrir a boca até eu contar de 1 a 20. Obs.: Não tem nenhum problema se não conseguir ficar todo o tempo com a boca fechada!
6. “Você vai ficar de boca bem fechada e vai puxar o ar bem forte só pelo nariz sem abrir a boca. Inspirar forte 3 vezes (pode auxiliar, mantendo a boca fechada levemente com as mãos)
7. “Você vai mastigar esse biscoito (alimento de preferência). Pode tentar distrair a criança para que a mastigação seja o mais natural possível
8. “Você vai tomar um gole de água (ou suco), abaixar o copo, segurar o líquido um pouco na boca e só vai engolir quando eu disser que pode”.

ANEXO IV

AAMIOFE-E- Protocolo de Avaliação Miofuncional com escores Expandido (FELÍCIO et al, 2010; FOLHA et al, 2015).

a) Item - Mastigação

a) Mordida. Pontuação máxima = 4

Mastigação – Mordida		Escores
Incisivos	Normal	(4)
Caninos-pré-molares		(3)
Molares		(2)
Não Morde		(1)

b) Tipo de mastigação de acordo com os golpes mastigatórios. Pontuação máxima = 10

Bilateral	Alternada (50%/50% até 40%/60%)		(10)
	Simultânea (vertical)		(8)
Unilateral	Preferencial –grau 1 – (61% a 77%)		(6)
	Preferencial –grau 2 – (78% a 94%)		(4)
	Crônica (95% a 100%)		(2)
Lado da preferência	Direito	Esquerdo	
Anterior (Frontal)			(2)
Não realiza a função	Não tritura		(1)

c) Outros comportamentos – Pontuação máxima = 8

Outros comportamentos e sinais de alteração	Escores	
	Presente	Ausente
Movimentos incoordenados de mandíbula	(1)	(2)
Postura alterada (cabeça ou outras partes do corpo)	(1)	(2)
Escape de alimento	(1)	(2)
Movimentação da cabeça ou outras partes do corpo	(1)	(2)

b) Item deglutição

a) Deglutição comportamento

Deglutição: Comportamento dos lábios - Pontuação = 6		Escores
Vedam a Cavidade Oral	Sem aparentar esforço	(6)
Vedam a Cavidade Oral, mas apresentam contração além do normal ou interposição labial.	Leve	(4)
	Moderada	(3)
	Severa	(2)
Não vedam a Cavidade Oral	Não cumpre a função	(1)
Resultado do sujeito avaliado		
Deglutição - Pontuação = 4		
Comportamento da Língua		Escores
Contida na cavidade oral	Normal	(4)
Interposta aos dentes (ou rebordos)	DVO reduzida (limite das faces incisais)	(3)
	DVO normal (limite das faces incisais)	(2)
	Ultrapassa as faces incisais e /ou cúspides vestibulares	(1)
Interposta aos dentes, com trespasse vertical negativo (“overbite”) ou trespasse horizontal positivo (“overjet”)	Limite das faces incisais	(3)
	Ultrapassa as faces incisais e /ou cúspides vestibulares	(2)
	Ultrapassa muito as faces incisais	(1)

b) Outros comportamentos

Outros comportamentos e sinais de alteração - Pontuação = 12		Escores	
		Presente	Ausente
Movimentação da cabeça ou outras partes do corpo		(1)	(2)
Deslize da mandíbula		(1)	(2)
Tensão da musculatura facial		(1)	(2)
Escape de alimento		(1)	(2)
Engasgo		(1)	(2)
Ruído		(1)	(2)

ANEXO V

PSQ – *Pediatric Sleep Questionnaire* -Versão final do questionário PSQ, traduzido para Português -Brasil (Martins et al, 2022)

PSQ- versão em português Brasil	Sim	Não	Não sei
<i>Durante o sono, seu filho:</i>			
A1. ronca mais que a metade do tempo A2. sempre ronca A3. ronca alto A4. tem a respiração profunda ou ruidosa A5. Tem dificuldade em respirar ou se esforça para respirar? A6. <i>Você alguma vez já viu seu filho (ou filha) parar de respirar durante o sono?</i>			
<i>O seu filho (ou filha):</i>			
A7. tende a respirar com a boca aberta durante o dia A8. acorda com a boca seca A9. Faz xixi na cama de vez em quando			
<i>O seu filho (ou filha):</i>			
B1. Acorda cansado de manhã? B2. em problema de sonolência durante o dia? B3. <i>Algum(a) professor(a) ou outra pessoa já comentou que seu filho parece sonolento durante o dia?</i> B4. <i>É difícil acordar seu filho de manhã?</i> B5. <i>Seu filho acorda com dor de cabeça de manhã?</i> B6. <i>Seu filho parou de crescer normalmente em algum momento desde o nascimento?</i> B7. <i>Seu filho está acima do peso?</i>			
<i>Seu filho com frequência:</i>			
C1. Parece não ouvir quando falam diretamente com ele C2. Tem dificuldade em organizar tarefas e atividades C3. É facilmente distraído por estímulos alheios C4. Fica com as mãos ou pés inquietos ou fica agitado quando sentado C5. Não para quieto ou frequentemente age como se estivesse ligado na tomada C6. Interrompe as pessoas ou se intromete em conversas ou brincadeiras			

ANEXO VI

Versão Portuguesa do OSA-18 (OSA-18-pv) (FERNANDES E TELES, 2013).

OSA-18 Versão Portuguesa (OSA-18-pv) Data: ____/____/____

Nome: _____

Em cada uma das questões seguintes, faça por favor um círculo à volta do número que melhor descreve a frequência de cada sintoma ou problema nas últimas 4 semanas. Assinale apenas um número por questão. Obrigado.

A	Nunca	Quase Nunca	Poucas Vezes	Algumas Vezes	Bastantes vezes	Quase Sempre	Sempre
Distúrbio do Sono							
Nas últimas 4 semanas, com que frequência o seu filho teve...							
... ressonar alto?	1	2	3	4	5	6	7
... paragens na respiração durante a noite?	1	2	3	4	5	6	7
... engasgos ou respiração ofegante enquanto dormia?	1	2	3	4	5	6	7
... sono agitado ou despertares frequentes do sono?	1	2	3	4	5	6	7
Sintomas Físicos							
Nas últimas 4 semanas, com que frequência o seu filho teve...							
... respiração bucal por obstrução nasal?	1	2	3	4	5	6	7
... resfriados ou infecções das vias aéreas superiores?	1	2	3	4	5	6	7
... secreção e congestão nasal?	1	2	3	4	5	6	7
... dificuldade em engolir alimentos?	1	2	3	4	5	6	7
Problemas emocionais							
Nas últimas 4 semanas, com que frequência o seu filho teve...							
... alterações do humor ou acessos de raiva?	1	2	3	4	5	6	7
... comportamento agressivo ou hiperativo?	1	2	3	4	5	6	7
... problemas disciplinares?	1	2	3	4	5	6	7
Problemas do cotidiano							
Nas últimas 4 semanas, com que frequência o seu filho teve...							
... sonolência diurna excessiva?	1	2	3	4	5	6	7
... episódios de falta de atenção ou concentração?	1	2	3	4	5	6	7
... dificuldade ao levantar da cama de manhã?	1	2	3	4	5	6	7
Opinião do Informante							
Nas últimas 4 semanas, com que frequência os problemas acima descritos...							
... causaram preocupação com a sua saúde?	1	2	3	4	5	6	7
... preocuparam-no pelo seu filho não poder respirar ar suficiente?	1	2	3	4	5	6	7
... interferiram com as suas atividades diárias?	1	2	3	4	5	6	7
... deixaram-no frustrado?	1	2	3	4			

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

Eu, _____, pai/ mãe, documento _____ (responsável) pelo menor _____, documento _____, após ter sido convidado (a) a participar do estudo “**Caracterização miofuncional orofacial e perfil polissonográfico de crianças com Síndrome de Down**”, de autoria de Danielle Barreto e Silva sob orientação da Dra Silke Anna Theresa Weber, autorizo a participação do meu filho (a) neste estudo.

Fui esclarecido(a) que a pesquisa tem o objetivo de entender melhor os aspectos da respiração, das estruturas do rosto e da linguagem em crianças com Síndrome de Down e relacionar com aspectos associados como roncos noturnos, pausas respiratórias, com ou sem arroxamento dos lábios e/ou das mãos, engasgos a noite. Tenho consciência que meu filho(a) será submetido(a) à avaliação otorrinolaringológica e fonoaudiológica, além de serem verificados o peso, altura e circunferência do pescoço, bem como responderei a questionários para investigação do sono.

O médico otorrinolaringologista irá avaliar a orelha, garganta e nariz do meu filho, verificando se há alterações nessas estruturas.

A fonoaudióloga irá fazer avaliações de linguagem e de motricidade orofacial, que serão gravadas em vídeo para análise posterior. Quanto à linguagem, meu filho irá manusear um livro do começo ao fim para, em seguida, utilizar este mesmo material para elaborar uma história. Assim, essa amostra de fala será filmada e gravada por meio de uma câmera e, posteriormente, a pesquisadora transcreverá a narrativa que será analisada de forma a avaliar as habilidades para compreender e expressar a linguagem. Para a investigação miofuncional orofacial, serão avaliados os dentes, músculos e estruturas do rosto, as funções de respiração e de fala. Para isso, será realizada gravação em vídeo da investigação e observação dos lábios, língua e a respiração. A respiração será avaliada com o uso de um espelho milimetrado para avaliar o fluxo de ar nasal, sendo que a criança também será orientada a nomear figuras enquanto o espelho é usado para analisar o fluxo de ar durante a fala.

Também estou ciente que responderei a questionários (direcionado aos pais/responsáveis) para verificar a qualidade de vida e do sono da criança, e se observo que existem sinais de alteração no sono que interfiram nas atividades diárias da criança.

Em seguida, meu filho (a) fará exames adicionais que incluem a monitorização do sono. Autorizo a realização da monitorização do sono, sabendo que a criança deverá permanecer uma noite com um gravador preso à cintura, um cateter nasal e um sensor no dedo que analisarão o ronco e as paradas da respiração, além de ver o nível de oxigênio no sangue.

Fui orientado (a) e concordo que os dados do prontuário do meu filho (a) serão avaliados durante o estudo, os resultados e as imagens obtidas nesse projeto serão publicados em revista de caráter científico, tendo sido

garantido sigilo com relação aos dados pessoais. As gravações em vídeo serão utilizadas apenas para análise fonoaudiológica e para fins acadêmicos.

Os gastos com o transporte para as avaliações serão de responsabilidade dos pais ou responsáveis dos sujeitos.

Desconfortos e riscos – A criança poderá apresentar cansaço e/ou desconforto na inspeção clínica de orelhas, nariz e cavidade oral, no entanto, as avaliações poderão ser interrompidas a qualquer momento conforme sua disposição e com consentimento dos responsáveis. Enfatiza-se que as crianças e os responsáveis terão total liberdade para continuar ou interromper os testes, sem que haja qualquer prejuízo para os mesmos.

Benefícios esperados – A criança terá uma avaliação ampla das suas condições respiratórias, de sono e fonoaudiológicas e, caso necessário, será encaminhada para o tratamento sugerido. Assim, o diagnóstico precoce de distúrbios respiratórios do sono, bem como o tratamento adequado poderão prevenir ou minimizar as comorbidades relacionadas à associação de apneia do sono e Síndrome de Down, tais como: alterações cardiovasculares, metabólicas, cognitivas e comportamentais.

Será garantido o direito à assistência integral e gratuita a você em caso de quaisquer danos decorrentes da participação nessa pesquisa. Você tem direito de buscar indenização diante de eventuais danos decorrentes desta pesquisa.

Em caso de dúvida ou desistência, poderei me dirigir à pesquisadora responsável pelo telefone (14) 38116256, pelo email: daniellebarretofono@gmail.com, ou pelo Comitê de Ética (CEP) da FMB/UNESP - Endereço: Chácara Butignolli , s/n , Rubião Junior, BOTUCATU, São Paulo, e-mail: cep@fmb.unesp.br, telefone: (14)3880-1609.

Assino abaixo o presente termo de consentimento em 2 vias, uma para mim e outra para a pesquisadora responsável.

Botucatu, ____ de _____ de 20 ____ .

Pesquisadora: Dra Silke A. T. Weber
Tel:(14) 3811 6256

Pesquisadora: Danielle Barreto e Silva
CRFa 5 -7172 Tel: (14) 3811 6256

Responsável pelo paciente

TERMO DE ASSENTIMENTO

Projeto de Pesquisa: “**Caracterização miofuncional orofacial e perfil polissonográfico de crianças com Síndrome de Down**”

Querida criança,

Você está sendo convidada a participar desta pesquisa para testar como está dormindo, falando e respirando. O médico e eu (fonoaudióloga) iremos realizar alguns testes em você, se concordar:



O médico irá olhar as suas orelhas, seu nariz e sua boca.



Você irá dormir no hospital uma noite em uma cama confortável e com alguns fios no seu corpo.



A fonoaudióloga irá mostrar algumas figuras para você falar o nome e outras para você apenas apontar. Depois, você contará uma história.



Por último, você irá mexer os seus lábios, língua e céu da boca. Você vai respirar normalmente com um espelho embaixo do seu nariz e vai assoprar um tubo.

Fique tranquilo (a)! Nenhum desses testes irá doer.

Você concorda com o que foi explicado e aceita participar?



Por este documento, eu _____, de _____ anos, concordo em participar da pesquisa.

Botucatu-SP, _____ de _____ de _____.

Pesquisadora: Danielle Barreto e Silva
CRFa 5 -7172 Tel:14 3811 6256 / daniellebarretofonoa@gmail.com

Responsável pelo paciente