UNIVERSIDADE DE SÃO PAULO
HOSPITAL DE REABILITAÇÃO DE ANOMALIAS CRANIOFACIAIS

JOSE FRANCISCO MATEO CASTILLO

**Estudo radiográfico dos fenótipos odontológicos na Sequência de
Pierre Robin Isolada**

**BAURU
2016**

JOSE FRANCISCO MATEO CASTILLO

**Estudo radiográfico dos fenótipos odontológicos na Sequência de
Pierre Robin Isolada**

Dissertação apresentada ao Hospital de
Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da
Universidade de São para obtenção do título de
Mestre em Ciências da Reabilitação.

Área de Concentração: Fissuras Orofaciais e
Anomalias Relacionadas.

Orientadora: Profa. Dra. Lucimara Teixeira das
Neves

**BAURU
2016**

**UNIVERSIDADE DE SÃO PAULO
HOSPITAL DE REABILITAÇÃO DE ANOMALIAS CRANIOFACIAIS**

R. Silvio Marchione, 3-20
Caixa Postal: 1501
17012-900 - Bauru – SP – Brasil
Telefone: (14) 3235-8000

Prof. Dr. Marco Antonio Zago – Reitor da USP

Dra. Regina Célia Bortoleto Amantini – Superintendente do HRAC /USP

Autorizo, exclusivamente, para fins acadêmicos e científicos, a
reprodução total ou parcial desta Tese.

Jose Francisco Mateo Castillo

Bauru, ____ de _____ de ____.

Mateo Castillo, Jose Francisco
M417e Estudo Radiográfico dos Fenótipos Odontológicos
na Sequencia de Pierre Robin Isolada /Jose Francisco
Mateo Castillo. Bauru, 2016.
90p.; A4.= 30cm.

Dissertação (Mestrado/Fissuras Orofaciais e
Anomalias Relacionadas) – Hospital de Reabilitação de
Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo.

Orientador: Profa. Dra. Lucimara Teixeira das Neves
Descritores: Anormalidades Dentárias;
Radiografia; Sequência de Pierre Robin; Fissura
Palatina.

FOLHA DE APROVAÇÃO

Jose Francisco Mateo Castillo

Dissertação apresentada ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo para obtenção do título de Mestre em Ciências da Reabilitação.

Área de Concentração: Fissuras Orofaciais e Anomalias Relacionadas

Aprovado em: 29/02/2016

Banca Examinadora

Profa. Dra. Izabel Maria Marchi de Carvalho

Instituição: Hospital de Anomalias Craniofaciais/Universidade de São Paulo

Profa. Dra. Ana Lucia Alvares Capelozza

Instituição Faculdade de Odontologia de Bauru/ Universidade de São Paulo

Profa. Dra. Renata Rodrigues de Almeida Pedrin

Instituição Universidade Sagrado Coração

Profa. Dra. Lucimara Teixeira das Neves. (Orientadora)

Instituição Hospital de Anomalias Craniofaciais/Universidade de São Paulo

Profa. Dra. Daniela Gamba Garib Carreira.

Presidente da Comissão de Pós-Graduação do HRAC-USP

Data de depósito da dissertação junto à SPG: 07/12/2015

DEDICATÓRIA

A Deus:

Por ser minha força, meu guia e provedor de tudo o que preciso nessa vida.

À minha família e amigos:

Por ser o motor que motiva todos os meus dias, por me apoiar em todos momentos e circunstâncias.

AGRADECIMENTOS

Aos meus pais: **Maria Adelfa Castillo e Antonio Mateo**, por ter me dado a vida e tudo o que sou hoje. Não há palavras para lhes agradecer tudo o que fazem por mim.

A todos meus irmãos: Por que além de irmãos são meus melhores amigos e ponto de apoio. De forma particular a **Fernelis e Oscar Mateo** por serem meu apoio a todo momento.

A todos meus amigos: que sem fazer menção em particular, lhes expresso toda a gratidão por serem minha segunda família e estarem comigo quando mais precisei. Especialmente **Bianca Sanchez, Evelyn Rodriguez e Otavio Rodrigues de Lara**, pela ajuda e força nos momentos da finalização deste estudo; obrigado por estar dispostos a ter aprendido tauro, hipo, meso e hiper junto comigo.

AGRADECIMENTOS ESPECIAIS

À minha orientadora **Profa. Dra. Lucimara Teixeira das Neves**: por me acolher e depositar sua confiança em mim desde o primeiro dia, sempre com um sorriso e boa vontade.

Aos meus professores: **Prof. Dr. Celso Kenji Nishiyama**, por toda a força proporcionada ao longo deste caminho e ser um exemplo seguir. **Profa. Dra. Lidiane Castro Pinto** e **Profa. Dra. Claudia Ramos Pinheiros**, **Prof. Ms. Tulio Olano Dextre**, pela grande amizade, ajuda e apoio em todo momento.

À Profa. **Dra. Izabel Marchi de Carvalho**: por sua disponibilidade e por dividir seus conhecimentos sempre com muita alegria.

Aos meus colegas da pós-graduação: por ser parte deste caminho. De forma particular à **Thais Garbieri**, à **Mahyara Jacob** e à **Giovana Weckwerth**. Obrigado pela parceria e amizade ao longo da nossa trajetória na pós-graduação.

Aos colegas do setor de **Endodontia HRAC/USP**: os residentes e Edninha, pelo convívio ao longo desta trajetória.

AGRADECIMENTOS PARTICULARES E INSTITUCIONAIS

Ao **Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais/Universidade de São Paulo**. É uma imensa honra poder me formar neste grande centro de estudo.

À Comissão de Pós-Graduação do HRAC-USP e sua Presidente **Profa. Dra. Daniela Gamba Garib Carreira**. E às funcionárias da secretaria da pós-graduação **Maria José Bento** e **Tatiana Alonso**: por toda a ajuda fornecida e o auxílio constante.

Às Professoras da banca examinadora, composta por **Profa. Dra. Izabel Maria Marchi de Carvalho**, **Profa. Dra. Ana Lúcia Alvares Capelozza** e **Profa. Dra. Renata Rodrigues de Almeida Pedrin**, pelo esforço exercido, assim como também considerações pertinentes para a melhora deste estudo, Muito Obrigado.

Aos funcionários da seção de arquivos do **HRAC-USP**, por me ajudarem com todos os dados necessários para o desenvolvimento deste estudo.

À **CAPES** pelo apoio financeiro recebido.

Por fim agradeço, sem fazer menção, a todos que me ajudaram e colaboraram para que este sonho seja realidade.

Muito Obrigado.

*A vida é uma peça de teatro que não permite ensaios.
Por isso, cante, chore, dance, ria e viva intensamente, antes
que a cortina se feche e a peça termine sem aplausos.*

Charles Chaplin.

RESUMO

Mateo-Castillo. Estudo radiográfico dos fenótipos odontológicos na Sequência de Pierre Robin Isolada [dissertação]. Bauru: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo; 2015.

A sequência de Pierre Robin (SPR) é definida como um defeito congênito, caracterizado por três anomalias principais: micrognatia, glossoptose e fissura de palato, apresentando uma prevalência aproximada de 1/8500 nascimentos e de etiologia considerada altamente variável e amplamente discutida na literatura. Pode se apresentar associada a alguma síndrome ou malformação (SPR sindrômica) ou na forma isolada (SPR não sindrômica ou isolada). Por ser uma alteração que compromete diretamente o terço médio da face, a cavidade bucal pode estar comprometida. Desta forma, **o objetivo** deste estudo foi investigar os fenótipos odontológicos, determinando especificamente a prevalência de anomalias dentárias em um grupo de indivíduos brasileiros com SPRI do HRAC/USP. **Material e método:** Foi realizado um estudo retrospectivo com radiografias panorâmicas de 110 indivíduos cadastrados no HRAC-USP, com idade superior a 11 anos. Essas radiografias foram digitalizadas e avaliadas para o diagnóstico de taurodontismo, agenesias dentárias, dilaceração radicular, transposição dentária, dentes supranumerários macrodontia e microdontia. Para o diagnóstico preciso do taurodontismo foram realizadas medições lineares dos molares por meio do Software Image J. Para comparação entre os gêneros e os tipos de fissuras foi utilizado o teste exato de fisher. **Resultados:** Dos 110 indivíduos com SPRI incluídos neste estudo, 94,54% apresentou pelo menos um tipo de anomalia dentária. A mais prevalente foi o taurodontismo, observado em 92,72% da população estudada, seguido pela agenesia dentária e a dilaceração radicular, com 22,72% e 15,45% respectivamente. Em menor proporção foi observada prevalência de 0,91% para a transposição dentária, constatado nenhum caso de dente supranumerário, microdontia e nem macrodontia. **Conclusão:** Dos fenótipos odontológicos investigados, o taurodontismo e a agenesia dentária foram as anomalias dentárias mais prevalentes, sendo o arco superior e molares superiores os mais acometidos pelo taurodontismo, e no arco inferior e os pré-molares inferiores os mais atingidos pela agenesia dentária. Não foram observadas diferenças significativas entre os tipos de fissura e entre os gêneros, com exceção

da dilaceração radicular, a qual apresentou predileção pelo gênero feminino. Demonstrando assim que em indivíduos brasileiros com SPRI existe uma alta frequência de anomalias dentárias, o que pode determinar implicações clínicas consideráveis na abordagem e execução do tratamento odontológico reabilitador destes indivíduos.

Palavras Chaves: Anormalidades Dentárias; Radiografia; Fissura Palatina; Síndrome Pierre Robin.

ABSTRACT

Mateo-Castillo. Radiographic study of the dental phenotypes on the isolated Pierre Robin sequence [Master Dissertation]. Bauru: Hospital of Rehabilitation of Craniofacial Abnormalities. University of São Paulo; 2015.

The Pierre Robin sequence (PRS) is considered a congenital disease, characterized by three main anomalies: micrognathia, glossoptosis and palate cleft, showing a prevalence of over 1/8500 birth with a variable etiology, widely discussed on literature. It can be associated to some other syndrome or malformation (syndromic PRS) or to the isolated type (no syndromic or isolated PRS). Because it is an alteration that affects the medium third section of the face, the oral cavity may be involved. Thus, the **aim** of this study was to investigate the dental phenotypes, determining specifically the prevalence of the dental abnormalities on a Brazilian group with IPRS from HRAC/USP. **Material and methods:** A retrospective study was done with panoramic radiographs from 110 individuals of HRAC/USP, with superior age to 11 years old. These radiographs were digitalized and evaluated to the diagnostic of taurodontism, dental agenesis, root dilacerations, dental transposition, supernumerary teeth, macrodontia and microdontia. In order to get a precise diagnostic of taurodontism, linear measurements from molars were performed using Software Image J. The Fisher's exact test was employed for the comparison between the genders and the types of clefts. **Results:** From the 110 individuals with IPRS on this study, 94.54% showed at least one type of dental abnormality, being taurodontism, the most prevalent, observed in 92.72% from the studied population, followed by dental agenesis and the root dilacerations, with 22.72% and 15.45%, respectively. In a lower proportion a prevalence of 0.91% for dental transportation was observed and no case found of supranumerary teeth, microdontia or macrodontia. **Conclusion:** From the dental phenotypes investigated, taurodontism and dental agenesis were the most prevalent dental abnormalities, being the superior arcade and molars the most injured by dental agenesis. It was not observed significant differences among the cleft types and the gender, except the root dilacerations, with a higher prevalence to the female gender. Therefore, IPRS Brazilian individuals have a high frequency of dental abnormalities, with considerable clinical implications on the dealing and managing the rehabilitation treatment of these individuals.

Key words: Dental abnormalities, Radiography, Cleft Palate, Pierre Robin

LISTA DE ANEXOS

ANEXOS

- Anexo 1** - Parecer do Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC-USP)87
- Anexo 2** - Ficha de avaliação elaborada pelos autores, utilizada no estudo.89
-

LISTA DE ILUSTRAÇÕES

- Figura 1** - Relação entre tecido ósseo, tecido mole e as vias aéreas numa criança com SPR. Grave hipoplasia mandibular, glossoptose e obstrução das vias aéreas.23
- Figura 2** - Ilustração de taurodontismo e sua classificação, preconizada por Shifman; Chanannel (1978), modificada Mateo-Castillo; Olano-Dextre; Neves (2015).37
- Figura 3** - Prevalência do tipo de fissura de palato na população estudada.43
- Figura 4** - Distribuição do número de anomalias presente em cada indivíduo.....45
- Figura 5** - Número de dentes acometidos pelas anomalias dentárias em cada sujeito da amostra.46
- Figura 6** - Prevalência do taurodontismo na população estudada.....48
- Figura 7** - Número de dentes acometidos pelos diferentes tipos de taurodontismos (hipo – hipotaurodontismos; meso- mesotaurodontismo e hiper – hipertaurodontismo).50
- Figura 8** - Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas indicam a presença de taurodontismo: (Mesotaurodontismo no dente 17 e Hipotaurodontismo no dente 46) entre outras alterações presentes na radiografia.....50
-

Figura 9 - Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas indicam a presença de taurodontismo no arco superior: Hipertaurodontismo no (dente 27) e agenesia dentária no arco inferior, especificamente do dente 35. Entre outros distúrbios presentes na radiografia.	51
Figura 10 - Prevalência da Agenesia Dentária na população estudada.....	52
Figura 11 - Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas indicam a presença de agenesia dentária bilateral dos dentes segundo pré-molar inferior esquerdo (dente 35) e segundo pré-molar inferior direito (dente 45). Além de outras anomalias observadas na radiografia.....	52
Figura 12 - Prevalência da dilaceração radicular na população estudada.	54
Figura 13 - Distribuição da amostra quanto a ocorrência de dilaceração radicular com relação ao gênero.....	54
Figura 14 - Prevalência a transposição dentária na população estudada.	56
Figura 15 - Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas amarelas indicam a presença de transposição dentária entre os dentes 23 e 24 no arco superior. No arco inferior mostra ausência incisivos centrais inferiores (dentes 31 e 41), entre outras anomalias presente na radiografia.	56

LISTA DE TABELAS

Tabela 1	- Distribuição dos gêneros com relação ao tipo de fissura.	43
Tabela 2	- Distribuição do número de anomalias dentárias por indivíduo e a descrição do tipo de anomalia(s) específica(s) presente(s) em cada um dos 104 casos que apresentaram 1 ou mais anomalias.	44
Tabela 3	- Distribuição do número de dentes acometidos pelas anomalias dentárias entre os indivíduos do grupo total.	45
Tabela 4	- Distribuição geral de todos os dentes acometidos por algum tipo de anomalia dentária.	47
Tabela 5	- Distribuição do número indivíduos que apresentaram um ou mais tipo de taurodontismo.	49
Tabela 6	- Distribuição do número de dentes acometidos por diferentes graus de taurodontismo.....	49
Tabela 7	- Distribuição dos dentes acometidos pela agenesia dentária população avaliada neste estudo.....	53
Tabela 8	- Distribuição dos dentes acometidos pela dilaceração radicular isolada e em associação com o taurodontismo.	55

LISTA DE ABREVIATURA E SIGLAS

SPR	Sequência de Pierre Robin
SPRI	Sequência de Pierre Robin Isolada
FP	Fissura palatina
HRAC	Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais
USP	Universidade de São Paulo
CPD	Centro de Processamento de dados
RP	Radiografia Panorâmica.
TAC	The Tooth Agenesis Code.

LISTA DE SIMBOLOS

- V1** Distância entre o ponto mais baixo do teto da câmara pulpar ao ponto mais alto do assoalho da câmara pulpar.
- V2** Distância que vai do ponto mais baixo do teto da câmara pulpar até o ápice radicular da maior raiz do dente.

SUMÁRIO

1	INTRODUÇÃO E REVISÃO DA LITERATURA	19
2	OBJETIVO E OBJETIVOS ESPECIFICO	29
3	CASUÍSTICA, MATERIAL E MÉTODO	33
4	RESULTADOS	43
5	DISSCUSSÃO	59
6	CONCLUSÃO	73
	REFERÊNCIAS	77
	ANEXOS.....	87

Introdução e Revisão da Literatura

1 INTRODUÇÃO E REVISÃO DA LITERATURA

A sequência de Pierre Robin (SPR) foi inicialmente descrita em 1923 pelo estomatologista francês de mesmo nome (ROBIN, 1923; ROBIN, 1934; GANGOPADHYAY et al., 2012). A SPR é definida como um defeito congênito caracterizado pela tríade: micrognatia, glossoptose e fissura de palato (FP). (NUNES e MATIAS, 2014). Clinicamente essas anomalias podem determinar obstrução das vias aéreas e dificuldades de alimentação principalmente na etapa neonatal da vida (TRINDADE, 2007, GENTHER, et al., 2015). A prevalência da SPR varia de acordo com o relatado na literatura, segundo Gorlin (1990) pode variar entre 1/2000 a 1/30000 nascimentos, no entanto Genther e colaboradores (2015) apontaram uma prevalência variando de 1/8500 a 1/20000 nascimentos em nível mundial.

A hipótese embrionária para a SPR ainda não foi totalmente esclarecida, no entanto existe um consenso na literatura de que a patologia seria o resultado de uma cadeia sequencial de anomalias, uma antecedendo a outra, determinando desta forma várias malformações em estruturas diferentes (WOLF et al., 2014; GENTHER et al., 2015).

Uma das hipóteses mais aceitas, expressa que a micrognatia pode ser considerada o defeito primário da cascata, causando como eventos posteriores, o mal posicionamento da língua e a fissura de palato (GANGOPADHYAY et al., 2012; WOLF et al., 2014). A explicação embriológica é que, devido à severa micrognatia, a língua ocuparia um volume maior na orofaringe, trazendo como resultado a glossoptose. Além disso, durante o desenvolvimento embrionário, inicialmente a língua se encontra posicionada entre os processos palatinos, que nessa fase se desenvolvem verticalmente e lateralmente à língua. Por volta da oitava semana do desenvolvimento é esperado que ocorra abaixamento e reposicionamento lingual com consequente acomodação da mesma no soalho bucal, permitindo dessa forma a horizontalização e posterior fusão dos processos palatinos. Várias teorias têm sido sugeridas para explicar a etiologia da fissura de palato em indivíduos com SPR e, nessa linha, a fissura realmente seria o último evento, considerando a cronologia de formação das estruturas da face na fase embrionária. Uma dessas teorias define

que a língua, seria relativamente grande, sem a possibilidade de acomodação no assoalho bucal, devido a uma mandíbula micrognata, interpondo-se entre os processos palatinos e poderia servir como uma barreira física para toda a movimentação necessária, impedindo a fusão dos processos palatinos, resultando na fissura de palato. (GANGOPADHYAY et al., 2012; JOHNSTON E NASH, 1982; ANTONIADES et al., 1995; DUDAS et al, 2004; PRICE; HADDAD , FAKHOURI, 2015).

Numa segunda hipótese formulada sobre a sequência de eventos que levam à SPR, alguns autores acreditam que o evento primário seja a fissura de palato e não a micrognatia como outro grupo de autores hipotetiza, já que este tipo de fissura pode induzir a um atraso na morfogênese da musculatura envolvida na deglutição e mastigação, e talvez isto poderia alterar o crescimento do corpo mandibular, podendo resultar na SPR. (COHEN, 1994; MARQUES et al., 1998; MARQUES et al., 2005). Contudo, um aspecto questionável dessa hipótese é que a fissura de palato não é considerada por alguns pesquisadores como uma característica clínica obrigatória para o diagnóstico e pode não estar presente em uma pequena parcela de casos (SATO et al., 2007).

De acordo com dados clínicos, a micrognatia está presente na maioria dos casos, aproximadamente em 90%, e caracteriza-se por uma retração de 10mm a 12mm em relação com a maxila, resultando então, em um corpo mandibular pequeno com o côndilo posicionado posteriormente (SATO et al., 2007). A glossoptose foi considerada por Holder-Espinasse et al (2001) como uma alteração resultante da presença da micrognatia associada a fissura, que juntas poderiam ocasionar um defeito no processo de sucção/deglutição fetal, sendo que esta se apresenta em aproximadamente 70 a 85% dos casos de SPR, e é esta condição que no período pós-natal pode levar a obstrução respiratória (SATO et al., 2007). Além da micrognatia e glossoptose, a terceira característica comumente relatada nos casos de SPR é a fissura de palato que, quando presente, pode apresentar formato de U ou V, sendo o primeiro o mais encontrado e além disso, pode comprometer toda a extensão do palato, na forma de fissura completa ou acometer somente o palato mole, na forma de uma fissura incompleta (CAYRES, 2012).

Os pacientes com SPR além das três anomalias comumente presentes na sequência podem apresentar outras alterações sistêmicas dentre as quais estão as alterações de audição, principalmente a atresia dos condutos auditivos, agenesia dos canais laterais semicirculares, e também alterações na morfologia nasal e da orofaringe (GRUEN et al., 2005; SATO et al., 2007).

A etiologia da SPR têm sido amplamente discutida pela literatura internacional e ainda hoje é desconhecida, sendo considerada altamente variável. Em geral, alguns autores expressam teorias sobre posições anômalas na vida intrauterinas, resultando na tríade característica da sequência (SATO et al., 2007; SELVI et al., 2013). Geneticamente foram descritas mutações, deleções, translocações e duplicações nos cromossomos do 1 ao 6, 10,13 e do 16 ao 18. Segundo Wolf e colaboradores (2014) a SPR pode apresentar ocorrência familiar e entre gêmeos, sugerindo uma provável etiologia genética associada ao quadro.

Atualmente, alguns genes têm sido investigados e associados a etiologia da SPR, sendo consideradas variações de genes únicos e rearranjos cromossômicos, especialmente envolvendo o gene SOX9. (AMARILLO; DIPPLE, QUINTERO-RIVERA, 2013).

Nessa linha de investigação genética molecular, Selvi e Mukunda Prianka (2013), realizaram um estudo molecular e citogenético a fim de verificar o papel do gene SOX9 na etiologia da SPR. Os resultados mostraram que dos 27 pacientes analisados, 1 caso apresentou deleção no éxon 1 e, em outros 2 casos foram encontradas alterações no éxon 2 desse gene. Quanto às análises citogenéticas, todas apresentaram resultados normais, sem qualquer alteração numérica ou estrutural no conjunto de cromossomos. Os autores concluíram que o gene SOX9 pode ser considerado particularmente importante na etiologia da SPR. No entanto, até o momento, não foram definidas conclusões definitivas que esclareçam diretamente a ligação de genes específicos com esse defeito congênito, ressaltando que assim como para as fissuras labiopalatinas não sindrômicas, pode haver uma interação multifatorial envolvida na etiologia.

Outro aspecto interessante relacionado ao fator genético foi levantado no estudo realizado por Marques e colaboradores (1998), no qual dos 36 sujeitos com

SPR avaliados no estudo, 27% apresentavam história familiar positiva não para a sequência de Pierre Robin especificamente, e sim para a fissura palatina isolada, atentando assim para uma possível etiologia genética para ambas as patologias.

Devido à grande variabilidade fenotípica e diferentes contribuições genéticas para cada uma, Cohen (1976) classificou a sequência de Pierre Robin em três grupos: o primeiro grupo, a SPR Sindrômica, quando ocorrem em associação com uma síndrome conhecida, como por exemplo, a síndrome de Stickler, síndrome de Treacher Collins e síndrome Velocardiofacial; o segundo grupo, a SPR associada a outras anomalias, quando se apresenta concomitante a uma ou mais anomalias que não correspondem a uma síndrome específica e o terceiro grupo, SPR Isolada (SPRI), quando acontece sem associação a outras malformações ou síndromes.

Investigando a apresentação clínica da SPR e sua associação ou não com síndromes e outras malformações, o estudo conduzido por Marques e colaboradores (2005) no HRAC/USP avaliou 159 crianças com SPR e os autores verificaram que 84 apresentavam SPRI e os outros 75 casos representavam SPR sindrômica ou associada a outras malformações, não definida como síndrome. Desses 75 casos, 36 apresentavam síndrome de Stickler, 14 SPR associada a outras malformações, 10 SPR associada a problemas neurológicos, 2 SPR associada a síndrome de Treacher Collins, 2 casos de SPR associada com síndrome de Richieri Costa Pereira, 4 casos apresentavam associação com a síndrome de Moebius, 2 com a síndrome Velocardiofacial, 4 com Espectro óculo-aurículo-vertebral e 1 com a síndrome de Nager. Por fim, os autores concluíram que várias síndromes e outras malformações podem estar relacionadas à SPR (MARQUES, 2005).

A SPRI ou clássica, de acordo com dados da literatura internacional, ocorre em 20-40% dos casos (JAMSHIDI et al., 2004) e alguns deles apresentam histórico familiar positivo (CARROLL et al., 1971), embora diferentes autores não aceitem a hereditariedade como fator predominante para a ocorrência da sequência, e os mesmos autores também discordam em relação às teorias acerca do posicionamento intrauterino anormal como fator desencadeante para essa patologia (COCKE, 1966; POSWILLO, 1986; EDWARDS e NEWALL, 1985; FRASER et al., 1956; WALKER, 1959; HARRIS, 1964; SHEFFIELD et al., 1987; SATO et al., 2007).

Do ponto de vista clínico quanto ao desenvolvimento físico, Marques (1995) acredita que a deficiência de crescimento e desenvolvimento geral, normalmente observados nas crianças com SPRI, provavelmente esteja relacionada à gravidade da obstrução das vias aéreas, pois esta pode causar dificuldades alimentares e problemas respiratórios (Figura 1). Nos sujeitos com SPR é típico que esta obstrução das vias aéreas ocorra na base das vias aéreas e a progressividade do quadro pode ser percebida com mais facilidade a partir do segundo mês de vida (WILSON et al., 2000).

Figura 1. Imagem que mostra a relação entre tecido ósseo, tecido mole e as vias aéreas numa criança com SPR. Severa hipoplasia mandibular, glossoptose e obstrução das vias aéreas. (Ilustração de Eden Palmer). (Fonte da imagem: EVANS et al., 2011).

Além desse período pós-natal inicial cercado de algumas dificuldades, o indivíduo com SPR fica sobrecarregado com uma série de alterações, além das dificuldades respiratórias, alimentares e da fala, o que mais se destaca é a aparência física facial, que pode levar a dificuldades psicossociais (MARQUES et al., 2005; SATO et al., 2007; NEVILLE et al., 2009).

A SPR de maneira geral, por apresentar um grupo heterogêneo de desordens que afetam a face e a cavidade bucal, incluindo alguns distúrbios na formação dos dentes, e desordens no mecanismo normal durante o desenvolvimento embrionário facial, apresentam uma diversidade fenotípica das estruturas envolvidas no defeito,

ou seja, tanto a face como a cavidade bucal e estruturas adjacentes podem apresentar características anômalas (RANTA e RINTALA, 1983; RINTALA, RANTA e STEGARS, 1984).

Como seria de se esperar, os indivíduos com SPRI apresentam características faciais diferentes da população em geral e dos indivíduos com fissura de palato isolada principalmente devido à redução do tamanho da mandíbula pela micrognatia. Segundo Laitinen e Ranta (1998), os arcos dentários dos adultos jovens com SPR, são certamente menores quando comparados aos arcos dentários de adultos jovens com fissura de palato isolada, e esse fato ocorre como consequência de diferentes fatores, como a falha de crescimento intrínseco do tecido ósseo, a presença da fissura de palato, tamanho ou alteração da posição da língua, cirurgias reabilitadoras palatinas e também devido às agenesias dentárias. (LAITINEN e RANTA, 1998).

A maloclusão é outra característica bucal mencionada, possivelmente acompanhada de ausências dentárias, dentes supranumerários ou ambos (NEVILLE et al., 2009; ANTONARAKIS e SURI, 2014; SURI; ROSS, TOMPSON, 2006). Visto que os traços faciais e os arcos dentários são significativamente afetados nos pacientes com SPRI, por consequência, a cavidade bucal e os elementos dentários podem ser também acometidos pela presença de variações específicas nos fenótipos dentários (ANTONARAKIS e SURI, 2014; SURI; ROSS, TOMPSON, 2006).

Quanto à avaliação dos arcos dentários, o estudo de Antonarakis e Suri (2014) observou que indivíduos com SPR apresentam uma elevada prevalência de hipodontia mandibular e que a associação da SPRI e agenesia pode determinar um encurtamento do arco mandibular. Segundo Suri; Ross, Tompson (2006) essa deficiência no tamanho mandibular na pré-adolescência vai aumentando com o passar dos anos até a chegada da adolescência (SURI; ROSS, TOMPSON, 2006).

Na literatura são poucos os trabalhos publicados que descrevem os fenótipos odontológicos e a prevalência das anomalias dentárias nos indivíduos com SPRI. Atualmente, Antonarakis e Suri (2014) realizaram um estudo, em que, por meio de avaliação radiográfica, analisaram somente a prevalência de agenesia dentária em

um grupo de 146 pacientes com SPRI. Obtendo como resultado uma prevalência de agenesia de 32% e ressaltando que estas frequentemente acometem os dentes do arco inferior, sugerindo que essas agenesias poderiam estar relacionadas à redução das dimensões mandibulares (ANTONARAKIS e SURI, 2014).

Considerando-se que os fenótipos odontológicos têm sido pouco estudados nesse grupo com Sequência de Pierre Robin Isolada (SPRI), a proposta deste estudo foi investigar esses fenótipos dentários diagnosticados radiograficamente num grupo de sujeitos com a SPRI matriculados no Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC-USP).

Este estudo pode contribuir no esclarecimento dos fenótipos odontológicos que podem estar associados à SPRI, auxiliando no diagnóstico clínico da sequência de Pierre Robin Isolada (SPRI), e favorecendo o plano de tratamento e consequentemente o sucesso da abordagem terapêutica clínica nessa população com SPRI.

Objetivos

2 OBJETIVO GERAL

Identificar os fenótipos odontológicos, determinando especificamente, a prevalência das anomalias dentárias diagnosticadas radiograficamente, em um grupo de indivíduos com Sequência de Pierre Robin Isolada do HRAC/USP.

OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- Conhecer a distribuição da prevalência das anomalias dentárias entre os gêneros;
 - Conhecer a distribuição da prevalência das anomalias dentárias entre os tipos de fissuras de palato, completa e incompleta;
 - Conhecer a distribuição da prevalência das anomalias dentárias entre os arcos dentários superior e inferior;
 - Definir os dentes mais acometidos pelas anomalias dentárias.
-

Casuística, Material e Método

3 CASUÍSTICA, MATERIAL E MÉTODOS

Casuística

Este estudo transversal retrospectivo de caráter exploratório foi realizado segundo princípios éticos, após aprovação do Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais-Universidade de São Paulo (HRAC/USP), conforme o parecer consubstanciado número 1.135.841. (Anexo I).

Método para a Seleção dos sujeitos para compor a casuística

Inicialmente foi solicitada uma listagem, ao Centro de Processamento de Dados (CPD) do HRAC/USP, de todos os pacientes cadastrados com diagnóstico clínico de Sequência de Pierre Robin Isolada (SPRI) e com idade superior a 11 anos. De acordo com a listagem fornecida, até o mês de junho de 2015, havia 332 indivíduos com essas características matriculados na Instituição.

Para compor a casuística foram analisados os dados retrospectivos destes 332 sujeitos, por meio do prontuário arquivado no setor de Arquivo de Prontuários do HRAC/USP, com o objetivo de confirmar o diagnóstico de SPRI e verificar se o paciente apresentava uma ou mais radiografias ortopantomográficas (radiografias panorâmicas) arquivadas no Setor de Radiologia do HRAC/USP, para a análise dos fenótipos odontológicos propostos.

Durante a análise dos prontuários para seleção dos sujeitos para compor a casuística, foram utilizados os seguintes critérios de exclusão:

- Indivíduos com idade abaixo de 11 anos;
- Indivíduos com sequência de Pierre Robin Sindrômica (SPR);
- Indivíduos com outras malformações associadas;
- Indivíduos sem diagnóstico estabelecido de SPRI;
- Indivíduos que não apresentassem uma ou mais radiografias arquivadas do Setor de Radiologia do HRAC/USP.

Para compor a casuística deste estudo, os pacientes deveriam ter no mínimo 11 anos de idade, uma vez que, o diagnóstico da SPRI já teria sido confirmado, e descartada, especialmente, a síndrome de Stickler, que é uma das possibilidades de SPR sindrômica e que, geralmente, não é diagnosticada precocemente, pois depende de avaliação oftalmológica para definição do quadro clínico. Além disso, nessa faixa etária, segundo o protocolo do HRAC/USP, os sujeitos já teriam realizado uma radiografia panorâmicas, e a maioria dos dentes permanentes já estariam formados e/ou irrompidos na cavidade bucal, possibilitando a análise radiográfica dos fenótipos odontológicos propostos.

Método para a seleção das radiografias panorâmicas.

Para a seleção, todas as radiografias panorâmicas de cada caso foram analisadas utilizando negatoscópio com luz homogênea em sala com iluminação adequada para tal. Como critério para a seleção das radiografias panorâmicas, estas deveriam apresentar boa qualidade de imagem para serem escaneadas e analisadas com precisão. E, como critérios de exclusão dos exames radiográficos, foram utilizados os seguintes padrões:

- Exames com problemas de processamento e técnica;
- Exames em que a maioria dos dentes apresentasse restaurações extensas ou próteses que inviabilizassem a observação completa da câmara pulpar e da porção radicular;
- Exames em que a maioria dos dentes estivesse com rizogênese incompleta.

Seguindo os critérios de exclusão estabelecidos para seleção dos sujeitos e para a seleção da amostra de radiografias, dos 332 casos analisados, foram excluídos 222. Destes 222, 89 não apresentavam diagnóstico definido de SPRI, 37 apresentavam SPR associadas a outras síndromes, 93 não possuíam radiografias panorâmicas como parte da documentação individual arquivada no HRAC e 3 casos apresentavam somente uma radiografia, na qual a maioria dos dentes encontrava-se na fase de rizogênese incompleta, impossibilitando a análise, especialmente, das dilacerações radiculares e do taurodontismo. Ao final da triagem foram selecionados 110 casos com uma amostra total de 302 radiografias panorâmicas para análise,

pois cada sujeito, na maioria dos casos, apresentava mais do que uma radiografia em idades diferentes.

Método

Após triagem e seleção, as radiografias foram digitalizadas em um scanner para digitalização de imagens radiográficas *Epson (Epson Perfection: V75 PRO)* com resolução de 300 ppp (pontos por polegadas), visualizadas em um monitor LG (LG, Flatron, E2060) e salvas em arquivo JPEG.

Antes do início das análises dos fenótipos odontológicos da amostra, o examinador (JFMC) foi previamente treinado e calibrado por um radiologista com experiência neste tipo de estudo. O treinamento inicial foi dividido em duas etapas. A primeira etapa consistiu na análise de um caderno de radiografias periapicais acompanhado de uma apostila que descrevia as anomalias do estudo e as mesmas eram visualizadas no negatoscópio. A segunda parte do treinamento consistiu na análise de 60 radiografias panorâmicas de sujeitos que não pertenciam à casuística do estudo, ou seja, pacientes em rotina no setor de radiologia do HRAC/USP, selecionadas aleatoriamente por conveniência. Este treinamento teve uma duração de aproximadamente 15 dias.

Após o treinamento, foi iniciada a calibração por meio de um estudo piloto em que utilizou-se um site (www.randomization.com), para selecionar de forma randômica 20 radiografias, que compunham a amostra do estudo. Essas radiografias selecionadas foram analisadas duas vezes, com intervalo de 15 dias entre as avaliações, por dois examinadores diferentes, o pesquisador principal (o examinador que foi treinado) e o radiologista experiente. Os resultados dessas avaliações foram tabulados em planilhas do Microsoft Excel e submetidos ao teste de Kappa, em que a concordância intra-examinador foi 0,85 e a concordância inter-examinador foi 0,74. Ambos os resultados do teste foram classificados como concordância boa, segundo os parâmetros estabelecidos por Landis & Koch (1977), indicando que o (pesquisador principal – JFMC) estava devidamente treinado e calibrado para dar início às análises para o diagnóstico dos fenótipos odontológicos radiograficamente diagnosticados.

As imagens na tela foram analisadas para o diagnóstico das anomalias dentárias em uma sala com luz adequada para esse tipo de avaliação, sendo avaliados todos os dentes permanentes exceto os terceiros molares, que por si só são dentes anômalos com morfologia e de aspecto diferenciados, o que poderia acarretar dificuldades e dúvidas quanto ao seu diagnóstico e classificação. Os critérios diagnósticos utilizados para determinar a presença das anomalias dentárias: dentes supranumerários, agenesias dentárias, macrodontia, microdontia, dilacerações radiculares e transposição dentária seguiu os parâmetros definidos pela literatura, descritos a seguir:

Taurodontismo: Na avaliação e medição para o diagnóstico de taurodontismo, por se tratar de um método de diagnóstico objetivo a partir de medidas lineares, as imagens radiográficas digitalizadas foram transferidas para um programa, o *Software Image J*, que possibilita a realização dessas medições lineares das imagens digitalizadas. Antes da realização das medidas das câmaras pulpares dos dentes, foi realizada uma calibração no programa (Image J), em uma escala de 10 mm para que as medidas de todos os dentes seguissem a mesma escala. Cabe destacar que, para o taurodontismo, nem todas as câmaras pulpares de todos os dentes puderam ser avaliadas, pois em alguns casos os dentes não haviam irrompido, estavam com aparelho ortodôntico, apresentavam cáries profundas, restaurações extensas, rizogênese incompleta ou mesmo estavam ausentes devido a extrações, impossibilitando assim a perfeita visualização da estrutura dentária, sendo estes dentes, nessas situações descritas, excluídos da análise. O critério para o diagnóstico de taurodontismo está descrito a seguir:

Para o diagnóstico do taurodontismo foi utilizado um critério objetivo a partir de medida linear mensurada pelo software mencionado e utilização de uma fórmula matemática. Os dentes foram considerados taurodônticos quando aplicando a fórmula $TI = V1 / V2 \times 100$ (Figura 2), que avalia a média de tamanho entre câmara pulpar e a raiz, o resultado de **TI** fosse ≥ 20 , segundo o padrão preconizado por Shifman e Chanannel, (1978), modificado por Mateo-Castillo JF. Olano-Dextre TL. Para estabelecer essa medida média de relação entre coroa e raiz foi realizada medição de V1 e V2, com o *Software Image J*, a partir da imagem digitalizada conforme mostra a Figura 2.

Figura 2. Ilustração preconizada por Shifman; Chanannel (1978). Modificada Mateo-Castillo; Olano-Dextre; Neves (2015).

Para avaliar a presença de taurodontismo foram analisados somente os primeiros e segundos molares, sendo excluídos das análises para o taurodontismo os pré-molares devido à impossibilidade de definição precisa do tamanho das raízes, impedindo a utilização da fórmula proposta, assim como também devido à sua anatomia na radiografia panorâmica que dificulta sua íntegra visualização (TIKO et al., 2003). De acordo com o índice proposto por Shifman e Chanannel, (1978) o dente foi considerado como taurodôntico quando, dividindo a distância entre o ponto mais baixo do teto da câmara pulpar ao ponto mais alto do assoalho da câmara pulpar (**V1**) pela distância desde o ponto mais baixo do teto da câmara pulpar ao ápice radicular (**V2**) e multiplicando por 100, resultasse num valor maior ou igual a 20. Sendo classificado em três graus diferentes de taurodontismo (hipotaurodontismo, mesotaurodontismo e hipertaurodontismo) de acordo com os parâmetros do diagrama mostrado na figura 2 e similares aos descritos por Shaw JC. (1928). Na avaliação desta anomalia foram excluídos todos os dentes que apresentaram rizogênese incompleta.

Para a classificação do taurodontismo os resultados das medidas lineares foram transferidos para uma planilha do *Microsoft Office Excel 2013 (Microsoft Corp.)* e aplicada à fórmula descrita acima pelo próprio programa *Microsoft Office Excel 2013 (Microsoft Corp.)*.

Agenesia dentária (Hipodontia): A agenesia dentária foi diagnosticada quando constatada ausência de qualquer tecido diferencialmente calcificado (apontando para o esmalte ou dentina) na área do dente correspondente. Foram avaliadas radiografias sequenciais disponíveis que foram utilizadas para confirmar a agenesia do dente e somente confirmada com a presença do dente decíduo. Embora a odontogênese de pré-molares, se inicie na maioria das crianças por volta de 3 anos a 3,5 anos, isto pode variar amplamente. Portanto, a agenesia desses dentes é mais precisamente confirmada na idade de 8 ou 9 anos, sendo que neste estudo a proposta foi avaliar sujeitos com idade mínima de 11 anos (ANTONARAKIS e SURI, 2014).

Dilaceração Radicular: foram considerados dentes com dilaceração radicular, aqueles que apresentaram alteração na angulação apical entre o ápice radicular e o longo eixo da raiz, à mesial ou à distal, com angulação igual ou superior a 90 graus. Nos dentes multirradiculares foram considerados com dilaceração radicular, quando apresentasse pelo menos uma das raízes com a característica descrita anteriormente. (MALCIC et al., 2006; MILOGLU et al., 2010).

Transposição dentária: a transposição dentária foi considerada quando dois dentes adjacentes ou não, no mesmo quadrante do arco dentário estivessem irrompidos em posições trocadas (AL JAMAL; HAZZA'A, RAWASHDEH, 2010).

Supranumerários: foram classificados como dentes supranumerários aqueles que excedessem o número esperado para a dentadura permanente. Considerados como eumorfos quando se assemelhavam aos dentes dos grupos normais e dismorfos quando com morfologia anormal. Quanto a localização, o mais frequente é o mesiodens, localizado na linha média, seguido do quarto molar, distomolar ou paramolar localizado distal ou vestibularmente ao terceiro molar; e o terceiro grupo mais frequente, os pré-molares inferiores, normalmente eumorfos e

também chamados como terceiros pré-molares. (Cerqueira; Oliveira, Pagnoncelli, 2002; Neville et al., 2004).

Macrodonτία: foram definidos com macrodonτία aqueles dentes cujo volume dental fosse superior ao normal. Podendo ser localizada ou generalizada (ALVARES; TAVANO, 2009). Excluindo os casos de fusão e geminação dentárias.

Microdonτία: foram classificados com microdonτία os dentes apresentando tamanho inferior ao normal. Esta avaliação foi restrita a incisivos superiores devido à dificuldade de definir um padrão para os outros grupos de dentes por meio de exame radiográfico. (SEABRA et al., 2008).

Todos os dados referentes à análise de cada radiografia foram anotados em fichas próprias contendo, além do diagnóstico das anomalias dentárias, informações sobre identificação, idade, gênero, data em que foi realizada a radiografia, tipo de fissura, assim como também observações relevantes (Anexo II). Além disso, quando constatada a ocorrência de qualquer uma dessas anomalias, as mesmas foram descritas minuciosamente na ficha elaborada para esta finalidade, contendo o tipo de anomalia e os dentes acometidos.

FORMA DE ANÁLISE DOS RESULTADOS

Análise Estatística

Os dados foram tabulados no programa *Microsoft Office Excel 2013* (*Microsoft Corp.*) e analisados por meio de estatísticas descritivas. Para as comparações entre os gêneros e os tipos de fissuras foi utilizado o teste exato de Fisher. O nível de significância adotado foi de p menor que 0,05.

Resultados

4 RESULTADOS

Caracterização da casuística

Na população de 110 indivíduos avaliados que compuseram a casuística havia 57 pessoas do gênero feminino e 53 do gênero masculino. A idade média do grupo total foi de 15 anos e 6 meses, sendo de 16 anos para o gênero feminino e 15 anos para o masculino.

Em relação ao tipo de fissura, 66 indivíduos (60%) apresentavam fissura de palato incompleta e os outros 44 (40%) apresentavam fissura de palato completa (Figura 3). A distribuição dos tipos de fissura entre os gêneros está descrita na (Tabela 1).

Tabela 1. Distribuição dos gêneros com relação ao tipo de fissura.

Tipo de Fissura	Gênero Masculino	Gênero Feminino	Total dos Grupos
Completa	21	23	44
Incompleta	32	34	66
Total	53	57	110

Figura 3. Representação da prevalência do tipo de fissura de palato na população estudada.

Prevalência Geral das Anomalias Dentárias

A prevalência total das anomalias dentárias na população estudada foi de 94,54% correspondendo a 104 indivíduos apresentando fenótipos odontológicos com variações, diagnosticados radiograficamente, sendo 50,9% (n=56) do gênero feminino e 49,1% (n=48) do gênero masculino. Essa diferença entre os gêneros foi estatisticamente analisada e não foi encontrada diferença significativa ($p=0,104$).

Em relação aos diferentes tipos de fissuras observados, no grupo com fissura completa (n=44), 40 sujeitos (90,9%) apresentaram uma ou mais anomalias dentárias e no grupo com fissura incompleta (n=66), 64 (96,96%) apresentaram uma ou mais anomalias. A diferença entre as prevalências de anomalias em relação aos tipos de fissuras foi testada estatisticamente e também não foi encontrada diferença significativa ($p=0,215$).

Quanto ao número de anomalias dentárias diagnosticadas em cada sujeito, de acordo com a (Tabela 2), e a representação gráfica (Figura 4) foi possível observar que a maioria (66,35%) dos sujeitos apresentou somente um tipo de anomalia dentária em um ou mais dentes. Na tabela 2 estão descritos com detalhes os tipos de anomalias que ocorreram isoladamente e as que foram constatadas em associação.

Tabela 2. Distribuição do número de anomalias dentárias por indivíduo e a descrição do tipo de anomalia(s) específica(s) presente em cada um dos 104 casos que apresentaram 1 ou mais anomalias.

	1 TIPO DE ANOMALIA	2 TIPOS DE ANOMALIAS	3 TIPOS DE ANOMALIAS
No. de Pessoas	1	18	3
(tipos de anomalias)	(DL) 1 (AG)	(TAURO+AG) 13 (TAURO+DL)	(TAURO+DL+AG) 1 (TAURO+DL+TRA)
	67 (TAURO)		
TOTAL DE PESSOAS:	69 Pessoas 66,35%	31 Pessoas 29,81%	4 Pessoas 3,84%

Legenda da tabela: Taurodontismo (TAURO), Dilaceração Radicular (DL), Agenesia Dentária (AG), Transposição Dentária (TRA).

Figura 4. Distribuição do número de anomalias presente em cada indivíduo.

Quanto ao número de dentes atingidos pelas alterações, dos 104 sujeitos acometidos por uma ou mais anomalias, observou-se que houve uma grande variação no número de dentes acometidos por essas anomalias em cada sujeito (Tabela 3). Essa variação foi de 1 único dente atingido, que ocorreu em 13 pacientes (11,82%) à 14 dentes acometidos, situação que ocorreu em somente 1 caso (0,91%). O maior percentual de pacientes, 21,82%, apresentou 3 dentes com algum tipo anomalia dentária (Tabela 3) e (Figura 5).

Tabela 3. Distribuição do número de dentes acometidos pelas anomalias dentárias entre os indivíduos do grupo total.

No. de Dentes Acometidos	No. de Sujeitos	%
Nenhum Dente	6	5,45
1 Dente	14	12,73
2 Dentes	15	13,64
3 Dentes	24	21,82
4 Dentes	17	15,45
5 Dentes	12	10,91
6 Dentes	12	10,91
7 Dentes	3	2,73
8 Dentes	5	4,54
10 Dentes	1	0,91
14 Dentes	1	0,91
Total	110	100%

Figura 5. Representação gráfica do número de dentes acometidos pelas anomalias dentárias em cada sujeito da amostra.

Em relação ao número de dentes, foram avaliados na população total deste estudo 2.897 dentes. Sendo 1.450 deles no arco superior e 1.447 no arco inferior. Desses 2.897 dentes avaliados 51,84% (1.502 dentes) pertenciam ao gênero feminino e 48,16% (1.395 dentes) ao gênero masculino. Foi observado que dos 2.897 dentes avaliados, 401 dentes (13,84%) foram acometidos por algum tipo de anomalia dentária e em alguns casos em um mesmo dente foi constatado dois tipos de anomalias, esses dados em detalhes estão demonstrados na (Tabela 4).

Ao analisar a diferença numérica e percentual entre os arcos para o número de dentes acometidos por anomalias, observa-se que o arco superior foi o mais acometido, apresentando anomalias em 230 dentes (57,36%), contra 171 dentes (42,64%) com alteração do fenótipo no arco inferior (Tabela 4). Sendo os dentes mais acometidos por qualquer tipo de anomalia dentárias o segundo molar superior esquerdo (dente 27) seguido do primeiro molar superior esquerdo (dente 26).

Tabela 4. Distribuição geral de todos os dentes acometidos por algum tipo de anomalia dentária.

	Taurodontismo	Agenesia Dentária	Dilaceração Radicular	Transposição Dentária	Tauro+ Dilaceração	TOTAL
Dentes	Dentes atingidos	Dentes atingidos	Dentes atingidos	Dentes atingidos	Dentes atingidos	Dentes atingidos
Dente17	46	1	-	-	-	47
Dente16	52	-	2	-	-	54
Dente15	-	2	2	-	-	4
Dente14	-	-	1	-	-	1
Dente13	-	-	-	-	-	0
Dente12	-	1	-	-	-	1
Dente11	-	-	-	-	-	0
Dente21	-	-	1	-	-	1
Dente22	-	3	1	-	-	4
Dente23	-	-	-	1	-	1
Dente24	-	-	-	1	-	1
Dente25	-	2	-	-	-	2
Dente26	53	-	1	-	1	55
Dente27	55	1	-	-	3	59
Arco Superior	206	10	8	2	4	230
Dente37	35	2	3	-	1	41
Dente36	26	-	1	-	-	27
Dente35	-	17	1	-	-	18
Dente34	-	-	-	-	-	0
Dente33	-	-	-	-	-	0
Dente32	-	-	-	-	-	0
Dente31	-	3	-	-	-	3
Dente41	-	3	-	-	-	3
Dente42	-	2	-	-	-	2
Dente43	-	-	-	-	-	0
Dente44	-	1	1	-	-	2
Dente45	-	14	1	-	-	15
Dente46	22	-	2	-	-	24
Dente47	34	1	1	-	-	36
Arco Inferior	117	43	10	-	1	171
TOTAL:	323	53	18	2	5	401

Descrição das prevalências por tipo de anomalia dentária

Taurodontismo

Da população global avaliada neste estudo foi possível observar uma prevalência de taurodontismo de 92,72%, representado por 102 indivíduos, dos 110 que compuseram a amostra total (Figura 6). E deste grupo acometido por taurodontismo (n=102), 53,9% (n=55) eram do gênero feminino e 46,1% (n=47) do gênero masculino. Ao comparar estatisticamente os gêneros em relação ao número de sujeitos acometidos não foi constatada diferença significativa ($p=0,259$).

Em relação ao tipo de taurodontismo, dos 102 indivíduos acometidos, a maioria (62,75%) apresentou somente um tipo, o hipotaurodontismo (hipo), contudo nenhum dos sujeitos apresentou somente hipertaurodontismo (hiper). Uma proporção menor de sujeitos apresentou dois ou mais tipos de taurodontismo associados, o que está demonstrado na (Tabela 5).

Figura 6. Prevalência do taurodontismo na população estudada.

Tabela 5. Distribuição do número indivíduos que apresentaram um ou mais tipo de taurodontismo.

GRAU DE TAUDONTISMO	NUMERO DE INDIVÍDUOS	%
HIPO	64	62,75%
HIPO + MESO	21	20,59%
HIPO + MESO + HIPER	9	8,82%
HIPO + HIPER	4	3,92%
MESO	3	2,94%
MESO + HIPER	1	0,98%
HIPER	0	0
TOTAL	102	100%

De um total de 697 dentes molares analisados 47,05% (328 dentes molares) foi acometido pelo taurodontismo isoladamente ou associado à dilaceração radicular. Quanto à classificação dos tipos de taurodontismo, verificou-se que o hipotaurodontismo foi o grau de severidade da anomalia que acometeu a maioria dos dentes analisados (Tabela 6).

No geral, os dentes mais acometidos pelo taurodontismo, independente da classificação (hipo, meso ou hiper) foram os molares superiores, sendo o mais acometido, o 2º molar superior esquerdo (dente 27), seguido do 1º molar superior esquerdo (dente 26), do 1º molar superior direito (dente 16) e pelo 2º molar superior esquerdo (dente 17). Os molares inferiores foram os dentes que apresentaram a anomalia em menor proporção, conforme demonstrado na (Tabela 6 e Figura 7).

Tabela 6. Distribuição do número de dentes acometidos por diferentes graus de taurodontismo.

	Total	Hipo	Meso	Hiper
Dente17	46	28	13	5
Dente16	52	46	5	1
Dente26	54	44	7	3
Dente27	58	38	14	6
<i>Arco Superior</i>	<i>210</i>	<i>156</i>	<i>39</i>	<i>15</i>
Dente37	36	29	6	1
Dente36	26	22	4	0
Dente46	22	19	2	1
Dente47	34	28	5	1
<i>Arco Inferior</i>	<i>118</i>	<i>98</i>	<i>17</i>	<i>3</i>
TOTAL	328	254	56	18

Figura 7. Número de dentes acometidos pelos diferentes tipos de taurodontismos (hipo – hipotaurodontismos; meso- mesotaurodontismo e hiper – hiperturodontismo).

Figura 8. Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas indicam a presença de taurodontismo: (mesotaurodontismo no dente 17 e hipotaurodontismo no dente 46). Entre outras alterações presentes na radiografia como por exemplo taurodontismo nos dentes 16,26,27 e 36.

Figura 9. Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas indicam a presença de taurodontismo no arco superior: Hipertaurodontismo no (dente 27) e agenesia dentária no arco inferior, especificamente do dente 35. Entre outros distúrbios presentes na radiografia.

Agenesia Dentária

A prevalência total de agenesia dentária na população estudada foi de 22,72% equivalente a 25 dos 110 pacientes incluídos neste estudo (Figura 10). Destes 25 sujeitos, 15 eram do gênero feminino e 10 do gênero masculino. Ao avaliar estatisticamente essa diferença numérica entre os gêneros, não foram encontradas diferenças significativas ($p=0,193$).

Quanto ao número de dentes, esta anomalia acometeu um total de 53 dentes, sendo 10 no arco superior e 43 no arco inferior. O dente mais atingido foi o segundo pré-molar inferior esquerdo (dente 35), seguido do segundo pré-molar inferior direito (dente 45), além desses, os outros dentes acometidos estão descritos na (Tabela 7). Ressaltando que, dos casos com agenesia de segundo pré-molar inferior, em 9 casos essa agenesia ocorreu bilateralmente (ilustrado pela figura – radiografia abaixo). E além disso, outros 3 sujeitos apresentaram agenesia bilateral de incisivos centrais inferiores (dentes 31 e 41) (Tabela 7).

Figura 10. Prevalência da Agenesia Dentária na população estudada.

Figura 11. Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas indicam a presença de agenesia dentária bilateral dos dentes segundo pré-molar inferior esquerdo (dente 35) e segundo pré-molar inferior direito (dente 45). Além de outras anomalias observadas na radiografia.

Tabela 7. Distribuição dos dentes acometidos pela Agenesia Dentária na população avaliada neste estudo.

Agenesia Dentária	
Dentes	Dentes atingidos
Dente17	1
Dente15	2
Dente12	1
Dente22	3
Dente25	2
Dente27	1
Dente37	2
Dente35	17
Dente31	3
Dente41	3
Dente42	2
Dente44	1
Dente45	14
Dente47	1
TOTAL:	53

Dilaceração Radicular

A dilaceração radicular ocorreu em 17 pacientes, o que representa uma prevalência de 15,45% (Figura 12), sendo que 13 (76,47%) indivíduos eram do gênero feminino e 4 (23,53%) do gênero masculino (Figura 13). Ao comparar estatisticamente essa diferença entre os gêneros, foi constatada diferença estatisticamente significativa ($p=0,035$).

Figura 12. Prevalência da dilaceração radicular na população estudada.

Figura 13. Distribuição da amostra quanto a ocorrência de dilaceração radicular com relação ao gênero.

Em relação ao total de dentes acometidos, foram observados 22 dentes com presença de dilaceração radicular, destes, 17 apresentavam somente esta anomalia e os outros 5 restantes apresentavam dilaceração radicular associada ao taurodontismo; sendo o 2º molar inferior esquerdo (dente 37) o mais afetado pela dilaceração radicular isolada e o dente mais atingido pela associação de dilaceração radicular com taurodontismo foi o 2º molar superior esquerdo (dente 27). (Tabela 8).

Tabela 8 - Distribuição dos dentes acometidos pela dilaceração radicular isolada e em associação com o taurodontismo.

	Dilaceração Radicular	Tauro+ Dilaceração	
Dentes	Dentes atingidos	Dentes atingidos	Total
Dente16	2	-	2
Dente15	2	-	2
Dente14	1	-	1
Dente21	1	-	1
Dente22	1	-	1
Dente26	1	1	2
Dente27	-	3	3
<i>Arco Superior</i>	8	4	12
Dente37	3	1	4
Dente36	1	-	1
Dente44	1	-	1
Dente45	1	-	1
Dente46	2	-	2
Dente47	1	-	1
<i>Arco Inferior</i>	9	1	10
TOTAL:	17	5	22

Transposição Dentária

A transposição dentária ocorreu em somente 1 uma pessoa do gênero feminino, apresentando uma prevalência de 0,91% (Figura 16), sendo nesta paciente diagnosticada a transposição do canino superior esquerdo (dente 23) com o primeiro pré-molar superior esquerdo (dente 24).

Figura 14. Prevalência a Transposição Dentária na população estudada.

Figura 15. Imagem de uma radiografia panorâmica analisada no estudo. As setas amarelas indicam a presença de transposição dentária entre os dentes 23 e 24 no arco superior. No arco inferior mostra ausência dos incisivos centrais inferiores (dentes 31 e 41), entre outras anomalias presente na radiografia.

Dentes Supranumerários, Macrodonia e Microdonia

Não foi diagnosticado nenhum dente supranumerários, com macrodonia e nem com microdonia na população avaliada neste estudo.

Discussão

5 DISCUSSÃO

A Sequência de Pierre Robin (SPR) é uma condição congênita considerada rara, devido à prevalência com que ocorre, e na qual o indivíduo apresenta várias malformações, sendo a tríade clássica: a micrognatia, a glossoptose e a fissura de palato. (ELLIOTT et al., 1995; SATO et al., 2007; SELVI E MUKUNDA, 2013; NUNES E MATIAS, 2014; ANDREWS et al., 2015). No geral os trabalhos que avaliam esse grupo específico de pacientes analisam os fenótipos mais frequentes, contudo devido à pequena ocorrência da sequência na população, esses trabalhos apresentam casuísticas limitadas e muitas vezes misturam os casos de sequência de Pierre Robin sindrômicos aos casos de SPRI (MARQUES et al., 1998; HOLDER-ESPINASSE et al., 2001; MARQUES et al., 2005; ANTONARAKIS E SURI, 2014). Assim, um primeiro ponto a ser ressaltado neste estudo é o tamanho amostral da casuística, uma vez que foram incluídos todos os sujeitos matriculados no HRAC, com diagnóstico definido de sequência de Pierre Robin Isolada e que apresentavam documentação radiográfica adequada para as análises propostas, num total de 110 casos. Na literatura levantada, nenhum estudo menciona predileção da sequência de Pierre Robin por um gênero específico. No presente estudo, na amostra de 110 casos investigados, a distribuição percentual e numérica entre homens e mulheres foi pareada (próxima).

No presente estudo foi relatada a frequência em que alguns tipos de anomalias dentárias ocorreram num grupo de 110 indivíduos brasileiros com sequência de Pierre Robin Isolada. Como mencionado, a fissura de palato faz parte do quadro para o diagnóstico clínico da sequência de Robin, mas não ocorre obrigatoriamente em todos os casos (SATO et al., 2007). No geral, quando ocorre, este tipo de fissura pode estar na forma de fissura completa ou incompleta. Contudo, dos trabalhos revisados sobre sequência de SPRI, nenhum deles relata o fenótipo específico da fissura de palato, definindo-a em completa ou incompleta. Neste estudo esse dado foi levantado, observando-se que a fissura incompleta ocorreu percentualmente mais (60%) do que a completa (40%), sendo que essa distribuição desigual entre as fissuras de palato completa e incompleta, com maior percentual para as fissuras incompletas, também foi constatada por outros autores em grupos

de sujeitos com fissura, mas que não apresentava Sequência de Pierre Robin (SILVA FILHO E FREITAS, 2007; SCHWARTZ et., al 2014).

Apesar dessa malformação envolver diretamente a cavidade bucal e suas estruturas, especialmente mandíbula, maxila e língua, nenhum trabalho publicado até o momento na literatura investigou os vários fenótipos odontológicos que podem ser diagnosticados radiograficamente em indivíduos com SPRI, dentre eles o taurodontismo, as dilacerações radiculares, as transposições dentárias, as macrodontias, as microdontias e os dentes supranumerários. Nessa linha, o único que investigou alguma característica dentária associada com a SPRI, foi o estudo de Antonarakis e Suri (2014), no entanto esses autores pesquisaram somente a prevalência de agenesias dentárias, resultado que será discutido adiante.

Desta forma, este estudo pioneiro contribui para o detalhamento dos fenótipos dentários associados à sequência de Pierre Robin Isolada, podendo auxiliar no diagnóstico da sequência, além de oportunizar uma adequada abordagem terapêutica, especialmente colaborando no planejamento do tratamento odontológico reabilitador para essa população.

Na presente investigação, a prevalência geral de anomalias dentárias na população estudada foi de 94,54% representando um percentual elevado ao ser comparado com resultados que variaram de 28,85% a 45,1% encontrados em outros estudos, com diferentes populações étnicas sem nenhuma malformação (GUPTA et al., 2011; MENINI et al., 2012; AFIFY et al., 2012). Também foi superior aos percentuais encontrados na população com fissura labiopalatina não sindrômica em que a prevalência relatada em indivíduos brasileiros foi de 32,6% e em sujeitos originários da Jordânia, 66,7%. (SCHWARTZ et al.; 2014; AL JAMAL et al., 2010). Contudo, foi similar ao observado no trabalho de Moraes e colaboradores (2007) em indivíduos com Síndrome de Down onde a ocorrência dessas alterações foi de 95.92%.

No presente estudo ao investigar a diferença de prevalências entre os gêneros, apesar de desigualdade percentual, estatisticamente não foi encontrada diferença, o que diverge do trabalho de Scarpim e colaboradores (2006) que investigaram uma população brasileira sem fissura ou outras malformações e

relataram diferença estatisticamente significativa na prevalência entre homens e mulheres.

Ao considerar a prevalência das anomalias dentárias distribuídas entre os dois tipos de fissuras de palato (completa e incompleta), observa-se que os sujeitos com fissura incompleta apresentaram prevalência ligeiramente superior (96,96%) quando comparados aos sujeitos com fissura completa (90,9%). Esses resultados diferem dos constatados por Schwartz e colaboradores (2014), que avaliaram brasileiros com fissura de palato isolada não síndrômica, em que o percentual de prevalência de anomalias foi maior para os sujeitos com fissuras completas 34,14% contra os 30,27% das fissuras incompletas (SCHWARTZ et al., 2014). Essa divergência provavelmente pode ser atribuída à presença da sequência de Pierre Robin na presente amostra, em que a fissura faz parte de um quadro clínico mais amplo, com envolvimento especialmente da mandíbula em fase precoce do desenvolvimento, o que possivelmente determina uma interferência em ambos os arcos, com a ocorrência de anomalias dentárias muito mais relacionada à sequência do que ao tipo de fissura em si.

É importante destacar que para a definição da prevalência geral das anomalias dentárias, cada sujeito da amostra foi computado como apresentando ou não uma ou mais anomalias. Nesse sentido, outros aspectos importantes pesquisados neste trabalho, além da prevalência, foram os tipos de anomalias presentes (isoladas ou em associação) e o número de dentes acometidos pelas anomalias em cada sujeito, pois esses parâmetros podem indicar a gravidade de acometimento dos fenótipos odontológicos alterados em de cada indivíduo.

Desta forma ao analisar, primeiramente, o número de anomalias em cada indivíduo, é possível notar que a maioria (66,35%) apresentou somente uma anomalia e 29,81% deles expressou uma ou mais alterações dentárias. Estes achados divergem dos detectados por Sá e colaboradores (2015) que avaliaram um grupo de sujeitos brasileiros apresentando fissura labiopalatina não síndrômica, sem relação com a Sequência de Pierre Robin, e verificaram a presença de um único tipo de anomalia em 11,8% da amostra e a presença de duas ou mais em 88,2%. Da mesma forma, os resultados divergem também dos dados identificados por Neves LT. (2015) em um grupo de sujeitos brasileiros com fissura completa de lábio e

palato unilateral encontrou que 60,97% da casuística apresentou duas ou mais anomalias em associação. Estes resultados talvez sejam divergentes entre os estudos devido a característica fenotípica das amostras que, apesar da existência da fissura, divergem em relação à presença ou ausência da sequência de Pierre Robin. Comparando os nossos resultados aos dados encontrados por Moraes e colaboradores (2007) em sujeitos com síndrome de Down, a divergência percentual se mantém, pois esses autores encontraram apenas uma anomalia em 40,8% da amostra e duas a quatro anomalias concomitantes em 55,09%.

Ao explorar os resultados referentes ao número geral de dentes afetados pelas anomalias, constatou-se que 401 de um total de 2897 dentes analisados, o que representa 13,84%, sendo que no arco superior foram afetados 230 dentes (57,36%) e no inferior 171 (42,64%), demonstrando que o arco superior foi o mais atingido. Esse resultado é o oposto dos observados por Menini e colaboradores (2012) que ao avaliar 804 radiografias panorâmicas de sujeitos brasileiros sem nenhum tipo de malformação, e encontraram anomalias dentárias em 108 (46,55%) dentes superiores e 124 (53,45%) dentes inferiores. Esses achados não eram os esperados, uma vez que a sequência de Pierre Robin tem um forte comprometimento do tamanho e desenvolvimento mandibular, o que nos levou a imaginar que o arco inferior seria o mais acometido pelas anomalias. Contudo, no arco superior está presente a fissura palatina, na forma completa ou incompleta, o que provavelmente possa ter interferido na formação dentária, com consequente maior número de dentes com alterações no arco superior.

Ainda em relação aos dentes, em cada sujeito houve uma grande variação em relação ao número de dentes envolvidos nas anomalias, mínimo de 1 e máximo de 14 dentes por sujeito, sendo que mais da metade da amostra (51,82%) apresentou de 2 a 4 dentes acometidos. Ressaltando que no maior percentual individual de casos, 21,82% (representando 24 sujeitos), três dentes foram acometidos por uma ou mais alterações dentárias. Os dentes mais atingidos pelas anomalias, foram o segundo molar superior esquerdo e o primeiro molar superior esquerdo. Essa informação em relação ao dente, no geral, mais acometido pelas anomalias, não pode ser comparado com nenhum trabalho da literatura, uma vez que os trabalhos revisados apresentavam resultados específicos para prevalência e dentes atingidos para cada tipo de anomalia analisada individualmente.

Como apresentado nos resultados as características referentes a cada anomalia dentária serão discutidas separadamente.

Taurodontismo

O taurodontismo é uma anomalia do desenvolvimento no qual ocorre um alargamento da câmara pulpar em direção apical o que produz um encurtamento da porção radicular, causada provavelmente pela falha da bainha epitelial de Hertwing, que alguns autores relacionam a questões genéticas. (MORAES et al., 2004; JAFARZADEH et al., 2008; PORTO; SOUZA, BRÜCKER, 2009).

A prevalência de taurodontismo foi de 92,72%, representado por 102 indivíduos (102/110), e pode ser considerada alta em comparação aos dados dessa alteração encontrados na população em geral (sem alterações sindrômicas ou malformações), na qual a prevalência é muito variável nos diferentes grupos étnicos oscilando entre 0,01%, na população árabe, 0,26%, em sujeitos na Ásia Menor, 2,49%, na população indiana e entre 1,72% a 42,8% em indivíduos brasileiros de diferentes regiões do país (AFIFY E ZAWAWI, 2012; COLAK et al., 2013; GUTTAL et al., 2011; MENINI et al., 2012; MELO FILHO et al., 2015; WECKWERTH et al., 2015).

A comparar os resultados obtidos no presente estudo aos investigados em indivíduos com fissura de palato isolada não sindrômica, confirmou-se uma elevada prevalência desta anomalia em nosso grupo, pois na população brasileira com fissura isolada essa prevalência variou de 40,9% a 67,0% (MELO FILHO et al., 2015; WECKWERTH et al., 2015). Essa disparidade de resultados possivelmente pode ser facultada a dois aspectos. Primeiro, a divergência quanto ao método utilizado para o diagnóstico, que na maioria dos trabalhos investiga essa alteração de forma subjetiva a partir da análise visual da anomalia, o que dificulta a identificação, em particular, do hipotaurodontismo. Por outro lado, o estudo publicado por Weckwerth e colaboradores (2015) faz parte da linha de pesquisa coordenada pelo orientador dessa dissertação, e utilizou o mesmo método para o diagnóstico e classificação do taurodontismo utilizado no presente trabalho. Nesse sentido, a provável explicação para a elevada prevalência de taurodontismo nesse grupo de sujeitos com sequência de Pierre Robin pode estar associada ao

envolvimento genético na etiologia de ambas as condições, ainda pouco investigadas tanto para o taurodontismo como para a sequência de Pierre Robin.

Além disso, no presente estudo não foi constatada diferença significativa entre as prevalências dessa alteração distribuídas entre os gêneros, o que diverge dos resultados testados estatisticamente por Weckwerth e colaboradores (2015), investigando uma população de indivíduos com fissura de palato não sindrômica, comparada a um grupo controle sem nenhum tipo de malformação, em que os autores verificaram que o gênero feminino apresentou prevalência significativamente maior.

Em relação aos dentes acometidos, de um total de 697 dentes molares analisados, 47,05% (328) foi acometido pelo taurodontismo isoladamente ou associado à dilaceração radicular, ou seja, o mesmo dente apresentando as duas anomalias em conjunto. E, nesse grupo de molares houve grande diversidade de graus de severidade de taurodontismo.

Shifman e Chanannel (1978) expressaram que os graus de severidade do taurodontismo poderiam ser classificados em hipotaurodontismo, mesotaurodontismo e hipertaurodontismo, segundo este critério dos 102 indivíduos incluídos neste trabalho, a maioria (62,75%) apresentava hipotaurodontismo, e como normalmente é relatado pelos autores, frequentemente este é o tipo de taurodontismo que se apresenta em maiores porcentagens nas pesquisas deste tipo de anomalia, tanto na população geral (sem alterações sindrômicas ou malformações) 81,5%, como nos indivíduos com fissura palato isolada não sindrômica, 84,1% (PORTO et al., 2009; WECKWERTH et al., 2015). Ainda em relação à prevalência dos tipos de taurodontismo, quanto aos graus individualmente, o segundo mais encontrado neste estudo foi o mesotaurodontismo, especialmente quando associado ao hipotaurodontismo (20,59%) e nesse caso um mesmo indivíduo apresentava dois tipos de taurodontismo em dentes distintos.

Quanto ao arco, independente da classificação (hipo, meso ou hiper), o mais acometido pelo taurodontismo foi o arco maxilar, representado por 210 dentes atingidos, o que equivale à 64%, sendo o dente mais afetado, o 2º molar superior esquerdo (dente 27), o que está em consonância com outros trabalhos publicados

(Porto et al 2009; Weckwerth et al.,2015). No entanto, esse resultado discorda totalmente dos publicados por outros grupos de pesquisadores (FANTASIA, 2014; MELO FILHO et al, 2015) que encontraram uma frequência mais elevada de dentes acometidos pelo taurodontismo nos dentes inferiores, especificamente no Primeiro Molar inferior esquerdo (dente 36). No presente estudo, na sequência, os dentes mais acometidos foram o Primeiro molar superior esquerdo (dente 26) seguido do Primeiro molar superior direito (dente 16). Reforçando que, coincidentemente, neste estudo, o arco mais acometido por este tipo de anomalia foi o arco superior e apesar de não haver uma relação direta entre o dente mais acometido e arco mais atingidos, nos trabalhos acima descritos, os dentes mais acometidos se encontravam nos arcos mais afetados. Assim nos estudos de Porto e colaboradores (2014) analisando indivíduos sem fissuras e Weckwerth e colaboradores (2015) avaliando sujeitos com fissuras, investigando diferentes populações, o arco mais atingido foi o superior, e nos trabalhos de Fantasia (2014) com pessoas com síndromes e Melo Filho et al., (2015) com indivíduos com fissuras o mais afetado foi o arco inferior.

Agnesia Dentária

A agnesia dentária é definida como a ausência de um ou mais dentes e ocorre tanto na dentadura decídua como na permanente. Tem sido postulado que este fenótipo odontológico seja resultado de um transtorno da lâmina dentária impedindo a formação do germe dentário, constituindo a anomalia de desenvolvimento dentário mais comum da dentição humana (PEREZ E NAVARRETE, 2009; GARIB, et al 2009; GARIB, et al 2010).

Relatos da literatura confirmam que a prevalência de agnesia dentária na população geral varia entre 3,2% até 15,9%, excluindo o terceiro molar que representa o dente mais afetado por este tipo de anomalia apresentando uma prevalência de aproximadamente 20,7% na população geral. (POLDER et al., 2004; GARIB et al., 2009; GARIB et al., 2010; MENINI et al., 2012; AFIFY E ZAWAWI, 2012; ANTONARAKIS e SURI 2014). A prevalência total de agnesia dentária na população estudada foi de 22,72%, equivalente a 25 dos 110 sujeitos com sequência de Pierre Robin Isolada incluídos neste estudo, o que representa uma

prevalência elevada ao ser comparada com a prevalência da população geral (sem alterações sindrômicas ou malformações) acima descrita.

Ao comparar a prevalência de 22,72% e 32,9% encontradas respectivamente, neste estudo e no trabalho de Antonarakis e Suri (2014), foi possível observar que houve uma certa divergência nos percentuais, apesar de ambos os trabalhos analisarem um grupo fenotipicamente semelhante com diagnóstico de Sequência de Pierre Robin Isolada, no entanto de diferentes grupos étnicos, o que pode ser uma possível justificativa para a discrepância nas prevalências expostas. Além disso, os métodos de avaliação para o diagnóstico das agenesias foram diferentes, pois, além da análise da radiografia panorâmicas e medição por meio de softwares específicos em ambos estudos, no trabalho Antonarakis e Suri (2014) foi utilizada uma documentação adicional mais objetiva que incluía também sequências radiográficas periapicais e oclusais, assim como, também a análise pelo sistema TAC (Tooth Agensis Code) que utiliza um sistema binário desenvolvido por Wijk E Tan (2006), e empregado para a identificação específica de agenesias dentárias. O estudo de casos conduzido por Larson e colaboradores (1998) investigou agenesias dentárias e irrupção ectópica em 14 pacientes com Sequência de Pierre Robin, com foco na presença de fissura de palato, e encontrou ocorrência de agenesias em 36% do grupo. Todavia, nossos resultados não podem ser comparados aos publicados por esses autores, pois os mesmos não investigaram sujeitos com sequência de Pierre Robin isolada e sim um grupo amplo de sequência de Pierre Robin, com os casos sindrômicos somados ao total, o que faz com que a casuística de ambos seja bastante diferente.

Alguns estudos investigando sujeitos que apresentavam somente fissura de palato não sindrômica encontraram prevalências de agenesias dentárias variando de 30% a 34% (LARSON et al., 1998; SCHWARTZ et al., 2014). E em outro estudo pesquisando as agenesias em uma parcela da população brasileira sem malformações, Menini e colaboradores (2012) encontraram uma frequência de 15,09%, inferior à constatada no presente estudo.

Dentre os 25 sujeitos nos quais foram identificadas agenesias dentárias neste estudo, 15 eram do gênero feminino e 10 do gênero masculino. Ao avaliar estatisticamente essa diferença numérica entre os gêneros, não foram encontradas

diferenças significativas ($p= 0,193$), semelhante ao confirmado por outros estudos em diferentes populações (MENINI et al., 2012; ANTONARAKIS e SURI, 2014).

O arco dentário mais atingido pela agenesia dentária foi o arco inferior, o mesmo foi encontrado por Antonarakis e Suri (2014) em pacientes com SPRI, por Larson et al., (1998) em indivíduos com fissura de palato isolada não sindrômica e por Menini e colaboradores (2012) na população geral, sem alterações sindrômicas ou malformações. O dente mais atingido foi o 2º pré-molar inferior esquerdo (dente 35), seguido do 2º pré-molar inferior direito (dente 45) concordando também com Antonarakis e Suri (2014) que relataram uma maior frequência de agenesias nestes mesmos dentes. Vale ressaltar que esses mesmos autores também relataram casos de sujeitos com SPRI apresentando agenesia bilateral de segundos pré-molares inferiores, assim como observado no presente estudo, em que esse tipo de diagnóstico foi confirmado em 9 casos (ANTONARAKIS E SURI., 2014). Essa constatação é esperada uma vez que a micrognatia é parte do quadro clínico da SPR e determina encurtamento do arco inferior, o que pode predispor a ocorrência de agenesia dentária.

Dilaceração radicular

A dilaceração radicular é uma anomalia dentária caracterizada por uma curvatura anormal e acentuada no eixo da raiz do dente. A etiologia desta anomalia não está claramente definida pela literatura, mas tem sido relatado que o distúrbio acontece no processo de desenvolvimento e irrupção do dente, especificamente ao final da rizogênese, na apicificação, momento no qual a raiz poderia se deparar com uma cortical óssea mais densa ocasionando um desvio na direção de desenvolvimento da raiz. Para um grande número de pesquisadores, quando a raiz de um dente apresenta uma curvatura maior do que 90 graus, pode ser considerada com diagnóstico de dilaceração radicular (MILOGLU et al., 2010; ÇOLAK et al., 2012; NABAVIZADEH et al., 2013; LUDER, 2015; WECKWERTH et al., 2015).

Neste estudo, essa anomalia foi constatada em 15,45%. Esses dados são inferiores aos encontrados em uma população jordaniana de indivíduos com fissuras labiopalatinas não sindrômicas, que foi de 19%, e em uma população de sujeitos brasileiros com fissura de palato isolada não sindrômica, cuja prevalência foi de

29,6%, considerando a população geral de indivíduos sem alterações sindrômicas ou malformações, esses níveis de prevalência apresentam valores que variam de 1,03% a 57,76% em indivíduos brasileiros. (AL JAMAL et al., 2010; Menini et al., 2012; Silva et al., 2012; Nabavizadeh et al., 2013; Weckwerth et al., 2015). Essa ampla divergência de resultados, porventura, poderia ser devido aos distintos métodos diagnósticos utilizados nos diversos estudos analisados.

O gênero feminino foi o mais afetado pela dilaceração radicular neste estudo, o que discorda do trabalho de Silva et al (2012), no qual foi constatada uma maior prevalência no gênero masculino na população geral. Em outros estudos de dilaceração radicular focados em indivíduos com fissuras orofaciais, não foram encontradas diferenças significativas entre ambos os gêneros (AL JAMAL et al., 2010; WECKWERTH et al., 2015). No geral, até o momento, os trabalhos publicados na literatura não têm observado predileção por gênero para essa anomalia.

Em relação ao arco dentário mais acometido pela dilaceração radicular foi verificado que tanto no arco superior como no inferior os números foram parecidos, não sendo definido um arco mais atingido. Quanto ao dente mais afetado, neste grupo investigado, foi o segundo molar inferior esquerdo (dente 37). Estes dados podem ser considerados idênticos aos publicados por Nabavizadeh e colaboradores (2013) os quais expressaram estes mesmos resultados tanto para os arcos dentários como para o tipo de dente mais atingido pela dilaceração radicular.

Transposição Dentária

A transposição dentária é classificada como um tipo de anomalia de irrupção relativamente rara, conceitualmente caracterizada como irrupção ectópica, sendo a sua etiologia controversa e ainda desconhecida. Alguns autores mencionam fatores locais determinantes como a perda precoce ou a retenção prolongada do dente decíduo, assim como inadequado comprimento do arco, não descartando a contribuição de um componente genético (COSTA et al., 2010).

No presente estudo foi encontrado somente 1 caso isolado de transposição dentária dos 110 avaliados, o que representa uma prevalência de 0,91%. Essa frequência foi superior à encontrada por Celikoglu; Miloglu, Oztek, (2010), que

relataram essa anormalidade de irrupção em 0,27% de um total de 6983 radiografias panorâmicas avaliadas de uma população sem nenhuma malformação craniofacial na Turquia, sendo também superior aos 0,32% descrito por Costa et al (2010) em uma população brasileira também sem malformações. No entanto, os resultados diferiram bastante do descrito por Al jamal; Hazza'a, Rawashdeh (2010) que encontraram 30,8% de prevalência dessa anomalia em um grupo de indivíduos jordanianos com diferentes tipos de fissuras labiopalatinas.

Desta forma, através deste estudo foi possível afirmar que nessa amostra brasileira com sequência de Pierre Robin isolada investigada, a transposição dentária apresentou baixa prevalência e poderia ser considerada um fenótipo odontológico incomum.

Dentes Supranumerários, Macrodonτία e Microdonτία

Em relação à presença de dentes supranumerários, com macrodonτία e microdonτία, ao contrário do que é relatado na literatura para a população com fissura labiopalatina não sindrômica, em que se observa prevalências variando de 1,33% e 16,7%, para os supranumerários, 3,2% para macrodonτία e entre 15,5% a 54,3% para as microdonτίas, nesse grupo de sujeitos com Sequência de Pierre Robin Isolada não houve nenhum caso diagnosticado com essas anomalias (AL JAMAL et al., 2010; SCHWARTZ et al., 2014; NEVES, 2015; SÁ et al., 2015; AL-KHARBOUSH; AL-BALKHI, AL-MOAMMAR, 2015).

Entre a população brasileira sem nenhum tipo de malformação facial, o trabalho de Menini e colaboradores (2012) relatou para a microdonτία uma prevalência de 12% e para os dentes supranumerários, uma frequência de 7,33% e não relatou nenhum caso de macrodonτία.

Seria esperado no presente estudo encontrar sujeitos com microdentes, uma vez que a própria condição da malformação define alteração no arco mandibular, pela presença de micrognatía, e no arco maxilar devido à fissura palatina. Contudo, essas alterações na estrutura óssea não interferiram para o aumento da frequência de microdonτία nessa amostra avaliada. O que pode levar à inferência de que a restrição de espaço físico e alterações na anatomia dos arcos para acomodação dos

germes dentários ou mesmo cirurgias reparadoras do palato não determinem uma interferência significativa no tamanho dos dentes, e sim de que, talvez a presença desse fenótipo possa ter uma relação maior com um fator genético predeterminante.

Por fim, pode-se considerar e salientar que devido à elevada frequência com que ocorreram, especialmente o taurodontismo e a agenesia dentária, esses fenótipos odontológicos representem uma característica importante no detalhamento fenotípico da Sequência de Pierre Robin Isolada, e poderiam ser considerados subfenótipos associados a essa patologia.

Ressalta-se ainda, que do ponto de vista odontológico, essas duas anomalias mais frequentes apresentam repercussões importantes no que tange às intervenções cirúrgicas, ortodônticas e endodônticas.

Conclusões

6 CONCLUSÕES

A partir dos resultados levantados nessa amostra brasileira de sujeitos com Sequência de Pierre Robin Isolada matriculados no HRAC, foi possível concluir que:

A prevalência total das anomalias dentárias deste estudo foi de 94,5%. Dos fenótipos odontológicos investigados, o taurodontismo e a agenesia dentária foram as anomalias dentárias mais prevalentes;

No geral, não houve diferença estatística nas prevalências das alterações dentárias entre os gêneros, com exceção da dilaceração radicular que apresentou predileção pelo gênero feminino;

Não houve diferença significativa na prevalência geral das anomalias dentárias entre os tipos de fissura de palato (completa e incompleta);

No geral, o arco superior foi o mais acometido pelos fenótipos odontológicos avaliados. Para o taurodontismo, a dilaceração radicular e a transposição dentária a prevalência foi numericamente superior nos dentes da maxila. Já a frequência de agenesias dentárias foi percentualmente maior na mandíbula.

Quanto aos dentes mais acometidos, para o taurodontismo, foi o 2º. molar superior esquerdo (dente 27), nos casos de agenesia dentária foi o 2º. pré-molar inferior esquerdo (dente 35). Para a dilaceração radicular foi o 2º. molar inferior esquerdo (dente 37).

Demonstrando assim, que em indivíduos brasileiros com SPRI existe uma alta frequência de anomalias dentárias, o que pode determinar implicações clínicas consideráveis na abordagem e execução do tratamento odontológico reabilitador destes indivíduos.

Referencias Bibliográficas

REFERÊNCIAS

1. Afify AR, Zawawi KH. The prevalence of dental anomalies in the Western region of Saudi Arabia. *ISRN Dent*. 2012;2012:1–5.
 2. Al Jamal GA. et al. Prevalence of Dental Anomalies in a Population of Cleft Lip and Palate Patients. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*; 2010; 47(4) 413-20.
 3. Al-Kharboush GH, Al-Balkhi KM, Al-Moammar K. The prevalence of specific dental anomalies in a group of Saudi cleft lip and palate patients. *Saudi Dent J*. 2015;27(2):75-80.
 4. Alvares LC, Tavano O. *Curso de Radiologia em odontologia*. 5ªed. Editora Santos, 2009.
 5. Amarillo IE, Dipple KM, Quintero-Rivera F. Familial microdeletion of 17q24.3 upstream of SOX9 is associated with isolated Pierre Robin sequence due to position effect. *Am J Med Genet A*. 2013;161(5):1167-72.
 6. Andrews S. et al. Surgical management of a large cleft palate in a Pierre Robin sequence: A case report and review of literature. *J Pharm Bioallied Sci*.2015;7(Suppl 2):S718-20.
 7. Antonarakis G, e Suri S. Prevalence and patterns of permanent tooth agenesis in patients with nonsyndromic Pierre Robin sequence. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2014;145: 452-60.
 8. Antoniades K. Pathogenesis of bromodeoxyuridine-induced cleft palate in mice. *J Craniomaxillofac Surg*.1995;23(4):252-5.
 9. Aspinall A. et. al. Expanding the cleft phenotype: the dental characteristics of unaffected parents of Australian children with non-syndromic cleft lip and palate. *Int J Paediatr Dent*. 2013: 10.1111/ipd.12072.
 10. Carroll D. et al. Hereditary factor in the Pierre Robin syndrome. *Br J Plast Surg* 1971; 24: 43-7.
 11. Cayres K. O. *Abordagem Terapêutica na Sequência de Pierre Robin*. [Monografia]. Salvador (Bahia): Curso de Graduação em Medicina. Universidade Federal da Bahia. Faculdade de Medicina da Bahia; 2012.
-

12. Celikoglu, M.; Miloglu, O.; Oztek, O. Investigation of tooth transposition in a non-syndromic Turkish anatolian population: characteristic features and associated dental anomalies. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*, Valencia.2010;15(5):716-72.
 13. Cerqueira, A.; Oliveira, A.S. De; Pagnoncelli, R.M. Múltiplos dentes supranumerários em paciente não sindrômico.R. *APCD*, São Paulo.2002: 56(2):145-147.
 14. Cocke Jr W. Experimental production of micrognathia and glossoptosis associated with cleft palate (Pierre Robin syndrome). *Plast Reconstr Surg* 1966;38:395-403.
 15. Cohen Jr MM. The Robin anomalad: its nonspecificity and associated syndromes. *J Oral Surg*. 1976;34:587-93.
 16. Cohen SR, Chen LL, Burdi AR, Trotman CA. Patterns of abnormal myogenesis in human cleft palates. *Cleft Palate Craniofac J*. 1994;31:345-50.
 17. Colak H. et al. Taurodontism in a central anatolian population. *Dent Res J (Isfahan)*. 2013 Mar;10(2):260-3.
 18. Costa D. et al. Transposição Dentária: Estudo de Prevalência em Escolares na Cidade de João Pessoa, PB Pesquisa Brasileira em Odontopediatria e Clínica Integrada. 2010;10(1):107-112.
 19. Díaz-Pérez R. Echaverry-Navarrete RA. Agenesia en dentición permanente. *Rev. salud pública*. 2009;11(6):961-969,.
 20. Dudas M. Craniofacial defects in mice lacking BMP type I receptor Alk2 in neural crest cells. *Mech Dev*.2004;121(2):173-82.
 21. Dugmore CR. Bilateral macrodontia of mandibular second premolars: a case report. *Int J Paediatr Dent*. 2001 Jan;11(1):69-73.
 22. Edwards JR, Newall DR. The Pierre Robin syndrome reassessed in the light of recent research. *Br J Plast Surg* 1985;38:339-42.
 23. Elliott MA, Studen-Pavlovich DA, Ranalli DN. Prevalence of selected pediatric conditions in children with Pierre Robin sequence. *Pediatr Dent* 1995;17:106-11.
-

-
24. Evans KN. et al. Cunningham ML. Robin sequence:from diagnosis to development of an effective management plan. *Pediatrics*. 2011;127(5):936-48.
 25. Fantasia JE. Syndromes with unusual dental findings or gingival components. *Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am*. 2014;22(2):211-9.
 26. Fraser FC. et al. Congenital malformations produced by amniotic sac puncture. *Science* 1956;124:(18)124:439.
 27. Gangopadhyay N, Mendonca DA, Woo AS. Pierre Robin Sequence. *Semin Plast Surg*; 2012;26:76–82.
 28. Garib DG, Peck S, Gomes SC. Increased occurrence of dental anomalies in patients with second premolar agenesis. *Angle Orthod*. 2009;79(3):436-41.
 29. Garib DG. et al. Anomalias dentárias associadas: o ortodontista decodificando a genética que rege os distúrbios de desenvolvimento dentário. *Dental Press J. Orthod*; 2010;15(2):138-157.
 30. Genther DJ. et al. Airway obstruction after lingual frenulectomy in two infants with Pierre-Robin Sequence. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2015;79(9):1592-4.
 31. Girondi JR. et al. Estudo da prevalência das anomalias dentárias de desenvolvimento em dada população, com o uso de radiografias panorâmicas. *Revista de Odontologia da Universidade Cidade de São Paulo*. 2006;18(1)15-21.
 32. Gorlin, RJ, Cohen, MM, Levin, LS. *Syndromes of the Head and Neck* 3rd Edition. NY: Oxford Univ. Press, 1990.
 33. Gruen PM. et al. Anomalies of the ear in the Pierre Robin triad. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2005;114(8):605-13.
 34. Gupta SK. et al. Prevalence and distribution of selected developmental dental anomalies in an Indian population. *J Oral Sci*. 2011;53:23–238.
 35. Guttal KS. et al. Frequency of developmental dental anomalies in the Indian population. *Eur J Orthod*. 2010;4:263–269.
 36. Harris JWS. Oligohydramnios and costisone induced cleft palate. *Nature*. 1964; 203:5334. 20
-

37. Holder-Espinasse M. et al. Pierre Robin sequence: A series of 117 consecutive cases; *The journal of Pediatrics*; 2001;139: 588-90.
38. Jafarzadeh H, Azarpazhooh A, Mayhall JT. Taurodontism: a review of the condition and endodontic treatment challenges. *Int Endod J*. 2008;41:375–388.
39. Jamshidi N. et al. Isolated Robin sequence associated with a balanced t(2;17) chromosomal translocation. *J Med Genet* 2004;41:1.
40. Johnston L, Nash DJ. Sagittal growth trends of the development of cleft palate in mice homozygous for the "paddle" gene. *J Craniofac Genet Dev Biol*. 1982;2(4):265-76.
41. Larson M, Hellquist R, Jakobsson OP. Dental abnormalities and ectopic eruption in patients with isolated cleft palate. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg*.1998;32(2):203-12.
42. Laitinen SH, Ranta R. Sizes of dental arches in young adult patients with pierre Robin sequence and isolated cleft palate. *Acta Odontol Scand*. 1998: 56(2):85-9.
43. Landis, J. e Koch G. The measurement of observer agreement for categorical data. *Biometrics* 1977;33(1):159-174.
44. Luder HU. Malformations of the tooth root in humans. *Front Physiol*. 2015;27(6):307.
45. Marques IL. Crescimento de crianças portadoras de seqüência de Robin isolada de zero a 1 ano de idade [tese]. Ribeirão Preto: Faculdade de Medicina de Ribeirão Preto, Universidade de São Paulo; 1995.
46. Marques IL. et al. Etiopathogenesis of Isolated Robin Sequence. *Cleft Palate–Craniofacial Journal*;1998; 35(6): 517-25.
47. Marques IL. et al. Sequência de Robin – Protocolo único de tratamento. *Jornal de Pediatria*; 2005;81(1):14-22.
48. Malčić A. Prevalence of root dilaceration in adult dental patients in Croatia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2006 Jul;102(1):104-9.
-

-
49. Melo Filho MR. et al. Taurodontism in patients with nonsyndromic cleft lip and palate in a Brazilian population: a casecontrol evaluation with panoramic radiographs. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2015;120(6):744-50.
50. Menini et al 2012 Radiographic study of prevalence of dental anomalies using panoramic radiographs in different age groups. *Rev. Odontol. Univ. Cid. São Paulo*. 2012; 24(3): 170-7
51. Miloglu O. The prevalence of root dilacerations in a Turkish population. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2010;15(3): 441-4.
52. Moraes LC. et al. Ocorrência de taurodontismo em indivíduos portadores de síndrome de Down. *Rev Inst Ciênc Saúde* 2004; 22(4): 317-22.
53. Moraes MEL. et al. Dental Anomalies in Patients with Down Syndrome. 2007. *Braz Dent J* 18(4).
54. Nabavizadeh M, Sedigh Shamsi M, Moazami F, Abbaszadegan A. Prevalence of root dilaceration in adult patients referred to shiraz dental school (2005-2010). *J Dent (Shiraz)*. 2013;14(4):160-4.
55. Neves LT. Fissura Labiopalatina não sindrômica: detalhamento genético clínico e molecular. [tese]. Bauru: Faculdade de Odontologia de Bauru, Universidade de São Paulo: 2015.
56. Neville W. et al. *Patologia Oral e Maxilofacial*. 3ª ed. Editora: Elsevier, 2009.
57. Neville, B W et al. Anomalias Dentarias. In: Neville, B Wet al. *Palologia Oral e Maxilofacial*. 2ªed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan.2004. cap.2. p.41-103.
58. Nunes da Costa J, Matias J. Isolated Robin sequence in siblings: review of current concepts. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*. 2014;67(11):259-65.
59. O'Sullivan EA. Multiple dental anomalies in a young patient: a case report. *Int J Paediatr Dent*. 2000;10(1):63-6.
60. Polder BJ. et al. A meta-analysis of the prevalence of dental agenesis of permanent teeth. *Community Dent Oral Epidemiol*. 2004;32(3):217-26.
-

61. Porto MT, Souza EC, Brückner MR. Prevalência de taurodontismo em pacientes da Faculdade de Odontologia da PUCRS. R. Ci. méd. biol., Salvador. 2009;8(1):39-45.
62. Poswillo D. The aetiology and surgery of cleft palate with micrognathia. Ann R Coll Surg Engl. 1968;43:61–88.
63. Price KE, Haddad Y, Fakhouri WD. Analysis of the Relationship Between Micrognathia and Cleft Palate: A Systematic Review. Cleft Palate Craniofac J. 2015 Feb 6. [Epub ahead of print].
64. Ranta R, Rintala AE. The Pierre Robin anomaly--comparisons of some disturbances in the formation of the teeth and the lower lip. Proc Finn Dent Soc. 1983;79(4):155-61.
65. Rintala A, Ranta R, Stegars T. On the pathogenesis of cleft palate in the Pierre Robin syndrome. Scand J Plast Reconstr Surg. 1984;18(2):237-40.
66. Robin P. Glossoptosis due to atresia and hypotrophy of the mandible. Am J Dis Child. 1934; 48:541-7.
67. Robin, P. Backward lowering of the root of the tongue causing respiratory disturbances. Bull Acad Med Paris. 1923;89:37–41.
68. Sá J. et al. Dental anomalies inside the cleft region in individuals with nonsyndromic cleft lip with or without cleft palate. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. 2015;30:0. [Epub ahead of print].
69. Santos KCP. et al. Avaliação de radiografias panorâmicas objetivando o cotejamento entre os motivos da solicitação e eventuais achados radiográficos. Rev Inst Ciênc Saúde. 2007; 25(4):419-22.
70. Sato FRL. et al. Sequência de Pierre Robin – Etiopatogenia, características clínicas e formas de tratamento. Revista Portuguesa de Estomatologia, Medicina Dentária e Cirurgia Maxilofacial. 2007;48:161-166.
71. Seabra M. et al. A Importância das Anomalias Dentárias de Desenvolvimento. Acta Pediatr Port 2008. 39(5):195-200.
72. Schwartz JP. et al. Prevalence of dental anomalies of number in different subphenotypes of isolated cleft palate. Dental Press J Orthod. 2014;19(1):55-9.
-

-
73. Scarpim MFP. Prevalence of dental anomalies in pre-orthodontic treatment patients evaluated by panoramic radiograph: a retrospective study. Clin. Pesq. Odontol., Curitiba, v.2, n.3, p. 203-212, jan/mar. 2006.
74. Selvi R. Mukunda Priyanka A. Role of SOX9 in the etiology of Pierre – Robin Syndrome. Iranian Journal of Basic Medical Sciences. 2013; 16: 700-704.
75. Shaw JC. Taurodont teeth in South African races. *J Anat.* 1928;62(part 4):476–498.
76. Sheffield LJ. et al. A genetic follow up study of 64 patients with the Pierre Robin complex. Am J Med Genet. 1987;28:25–36.
77. Shifman, A. Chanannel I. Prevalence of taurodontism found in radiographic dental examination of 1,200 young adult Israeli patients. Community Dent. Epidemiol, Copenhagen. 1978;6(4):200- 203.
78. Silva Filho OG, Freitas JAS. Caracterização morfológica e origem embriológica In: Trindade IEK, Silva Filho OG. Fissuras Labiopalatinas: uma abordagem interdisciplinar. São Paulo: Ed. Santos; 2007. cap. 2, p.17-49.
79. Silva BF. et al. Prevalence assessment of root dilaceration in permanent incisors. Dental Press J Orthod. 2012;17(6):97-102.
80. Suri S, Ross RB, Tompson BD. Mandibular morphology and growth with and without hypodontia in subjects with Pierre Robin sequence. Am J Orthod Dentofacial Orthop. 2006;130:37-46.
81. Trindade IEK, Silva Filho OG. Fissuras labiopalatinas: uma abordagem interdisciplinar. São Paulo: Santos Editora; 2007.
82. Tiku A, Damle SG, Nadkarni UM, Kalaskar RR. Hypertaurodontism in molars and premolars: management of two rare cases. J Indian Soc Pedod Prev Dent. 2003;21(4):131-4.
83. van Wijk AJ, Tan SP. A numeric code for identifying patterns of human tooth agenesis: a new approach. Eur J Oral Sci. 2006;114(2):97-101.
84. Walker BE. Effects on palate development of mechanical interference with the fetal environment. Science.1959; 130:981. 19.
-

85. Weckwerth GM. et al. Taurodontism, Root Dilaceration, and Tooth Transposition: A Radiographic Study of a Population with Nonsyndromic Cleft Lip and/or Palate Cleft Palate Craniofac J. 2015;6. [Epub ahead of print].

86. Wilson AC. et al. Late presentation of upper airway obstruction in Pierre Robin sequence. Arch Dis Child. 2000;83(5):435-8.

87. Wolf ZT. et. al. A LINE-1 Insertion in DLX6 Is Responsible for Cleft Palate and Mandibular Abnormalities in a Canine Model of Pierre Robin Sequence. PLoS Genet. 2014; 3;10(4)e1004257.

Anexos

ANEXO I

PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP**DADOS DO PROJETO DE PESQUISA**

Título da Pesquisa: Estudo Radiográfico dos Fenótipos Odontológicos na Sequência de Pierre Robin Isolada

Pesquisador: Jose Francisco Mateo Castillo

Área Temática:

Versão: 2

CAAE: 38208114.6.0000.5441

Instituição Proponente: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da USP

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 1.135.841

Data da Relatoria: 30/06/2015

Apresentação do Projeto:

Projeto de pesquisa de mestrado o qual avaliará 200 radiografias panorâmicas de indivíduos com sequência de Robin não síndrômica a fim de verificar anomalias dentárias.

Objetivo da Pesquisa:

O objetivo geral deste estudo é investigar as características odontológicas determinando a prevalência das anomalias dentárias diagnosticadas radiograficamente em um grupo de indivíduos com Sequência de Pierre Robin Isolada do HRAC/USP.

 Avaliação dos Riscos e Benefícios:

Não se aplica.

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa:

Apresentação de emenda alterando a idade mínima de 14 anos para 11 anos de idade, devido dificuldade de obtenção de número suficiente de amostra.

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória:

Não se aplica.

Recomendações:

Não há.

Endereço: SILVIO MARCHIONE 3-20
Bairro: VILA NOVA CIDADE UNIVERSITARIA **CEP:** 17.012-900
UF: SP **Município:** BAURU
Telefone: (14)3235-8421 **Fax:** (14)3234-7818 **E-mail:** uep_projeto@centrinho.usp.br

Continuação do Parecer: 1.135.841

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações:

Não há.

Situação do Parecer:

Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:

Não

Considerações Finais a critério do CEP:

O pesquisador deve atentar que o projeto de pesquisa aprovado por este CEP refere-se ao protocolo submetido para avaliação. Portanto, conforme a Resolução CNS 466/12, o pesquisador é responsável por "desenvolver o projeto conforme delineado", se caso houver alterações nesse projeto, este CEP deverá ser comunicado em emenda via Plataforma Brasil, para nova avaliação.

Cabe ao pesquisador notificar via Plataforma Brasil o relatório final para avaliação, assim como os relatórios semestrais, os Termos de Consentimento Livre e Esclarecidos e/ou outros Termos obrigatórios, quando solicitados no parecer.

BAURU, 02 de Julho de 2015

Assinado por:
Sílvia Maria Graziadei
(Coordenador)

Endereço: SILVIO MARCHIONE 3-20
Bairro: VILA NOVA CIDADE UNIVERSITÁRIA CEP: 17.012-900
UF: SP Município: BAURU
Telefone: (14)3235-8421 Fax: (14)3234-7818 E-mail: uep_projeto@centrinho.usp.br

ANEXO II

[illegible]

Data de realização da Radiografia ___/___/___

Data de avaliação da Radiografia ___/___/___

TIPO DE ANOMALIA DENTARIA:

A. Dentes Supranumerários:

B. Taurodontismo:

C. Agenesia dentaria:

D. Macrodontia:

E. Microdontia:

F. Dilaceração dentaria:

G. Transposição dentaria:

OBSERVAÇÕES: