UNIVERSIDADE DE SÃO PAULO FACULDADE DE ODONTOLOGIA DE BAURU

PATRICIA DOMINGUEZ CAMPOS

Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva

PATRICIA DOMINGUEZ CAMPOS

Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva

Tese apresentada à Faculdade de Odontologia de Bauru da Universidade de São Paulo para obtenção do título de Doutora em Ciências no Programa de Fonoaudiologia, na área de concentração Processos e Distúrbios da Comunicação.

Orientadora: Profa. Dra. Adriane Lima Mortari Moret.

Versão corrigida

BAURU 2019 Campos, Patricia Dominguez Campos Caracterização da linguagem de criança com desordem do espectro da neuropatia auditiva / Patricia Dominguez Campos. – Bauru, 2019. 86 p. : il. ; 31cm.

Tese (Doutorado) – Faculdade de Odontologia de Bauru. Universidade de São Paulo

Orientadora: Profa. Dra. Adriane Lima Mortari Moret

Nota: A versão original desta dissertação/tese encontra-se disponível no Serviço de Biblioteca e Documentação da Faculdade de Odontologia de Bauru – FOB/USP.

Autorizo, exclusivamente para fins acadêmicos e científicos, a reprodução total ou parcial desta tese, por processos fotocopiadores e outros meios eletrônicos.

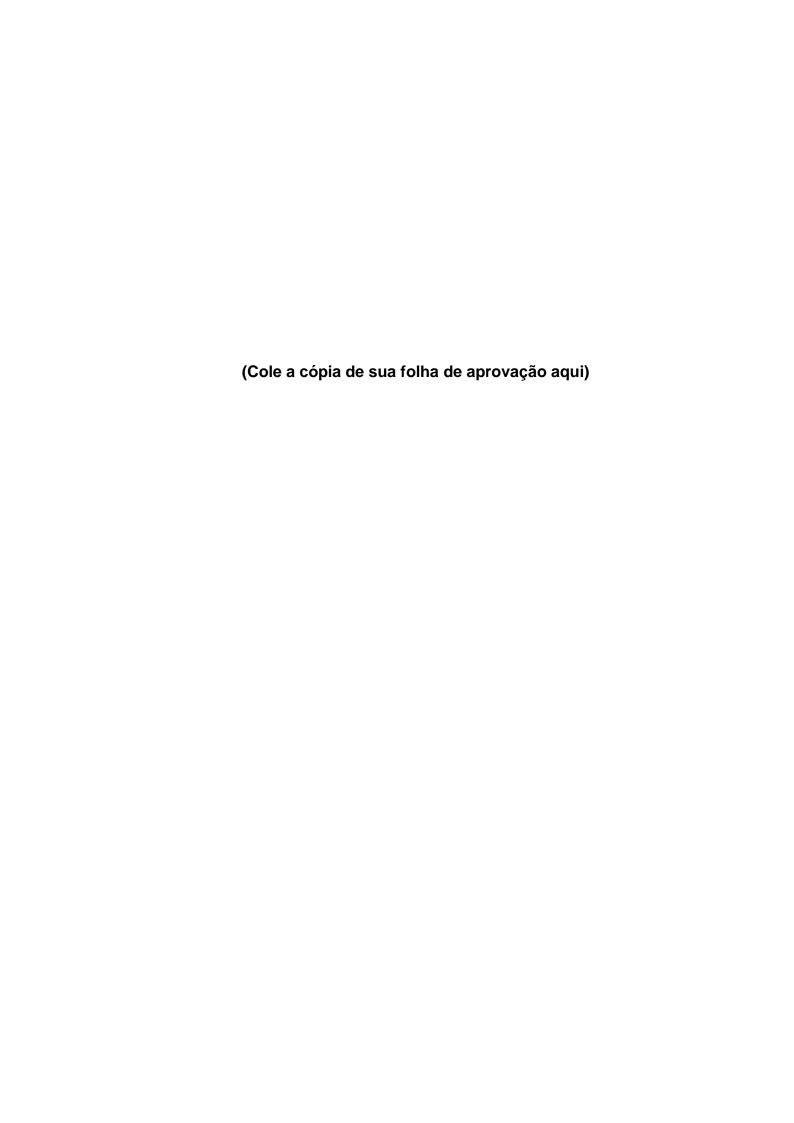
Assinatura:

Data:

Comitê de Ética da HRAC-USP Protocolo nº: 61731616.7.0000.5441

Data: 12/05/2017

ERRATA



DEDICATÓRIA

Dedico os resultados desta tese às crianças com diagnóstico de desordem do espectro da neuropatia auditiva e aos seus familiares que inspiraram a realização deste trabalho.

AGRADECIMENTOS ESPECIAIS

Gostaria de realizar alguns agradecimentos especais para pessoas que se destacaram durante a minha trajetória e que sem eles realmente a realização do doutorado não seria possível.

Primeiramente meus pais, **Nilcéa e Luiz Francisco**, que foram meu porto seguro, que nunca hesitaram em me apoiar quando decidi seguir pelo caminho da carreira acadêmica e que junto da minha irmã, **Letícia**, formaram minha fonte de força emocional para seguir em busca de meus sonhos. Ao longo desses quatro anos de doutorado moramos em cidades, estados e até países diferentes, mas a distância nunca foi uma dificuldade para estarmos presentes na vida um do outro, participando e compartilhando a alegria de cada conquista.

Um agradecimento especial à minha orientadora, **Adriane Mortari**, por me inspirar e incentivar desde a graduação, por ser um exemplo de docente e de pessoa para eu seguir. Professora, agradeço por me mostrar que é possível ter uma carreira acadêmica de sucesso sem deixar de ter uma vida pessoal tão bem sucedida quanto. Sou eternamente grata por você ser uma orientadora que apoiou minhas decisões ao assumir cargos fora do doutorado e que mostra sinceridade ao desejar que eu tenha sucesso como docente.

AGRADECIMENTOS

À **Deus** por me abençoar, me iluminar mostrando os melhores caminhos a seguir e por colocar em minha vida pessoas especiais que ajudaram de alguma forma para que eu obtivesse o título de Doutora.

À minha **família**, minhas avós, Estela e Elza, meus tios, tias e primos(as) que acompanharam minha trajetória e foram compreensivos com minhas ausências, principalmente na fase final do doutorado.

Aos pais e crianças que aceitaram e que disponibilizaram tempo para participar da minha pesquisa.

À minha amiga de graduação, mestrado e doutorado, **Emille Scarabello**, que participou de todo esse processo comigo, dividindo a orientadora, as angustias e os frutos destes anos todos. Agradeço por ajudar a conseguir os pacientes finais da minha coleta, sem você eu não teria conseguido os grupos completos e os resultados que obtive.

Ao casal, **Lívia e Bruno**, amigos queridos que não hesitaram em perder um dia do feriado para escutar e avaliar a gravação de 19 crianças para que eu pudesse concluir a coleta de dados. Sou grata por serem os amigos que são e por estarem sempre presentes na minha vida.

Aos profissionais da **Seção de Implante Coclear**, em especial à **Elisabete Honda**, pela co-orientação no meu trabalho, e às residentes do programa de Saúde Auditiva do HRAC, que me auxiliaram na busca dos pacientes, adaptando os horários de atendimentos e salas para que o meu trabalho pudesse acontecer.

Aos amigos que fiz no **ABC Paulista** que me auxiliaram na busca de crianças para compor o grupo controle deste estudo e me deram apoio emocional longe da minha família para finalizar a tese.

À coordenação e colegas da **Funcraf - São Bernardo do Campo** por serem compreensivas na fase final do doutorado, na qual precisei me ausentar da rotina de atendimentos para ir à Bauru.

À Faculdade de Odontologia de Bauru, na pessoa de seu diretor, Prof. Dr. Carlos Ferreira dos Santos.

À Comissão de Pós-graduação do Programa de Fonoaudiologia da FOB/USP, na pessoa de sua presidente, Profa. Dra. Dionísia Aparecida Cusin Lamônica, e sua secretária, Karina Ferreira Barros Delazari.

Ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, na pessoa de seu superintendente, Prof. Dr. José Sebastião dos Santos.

À Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal de Nível Superior – CAPES, pelo apoio financeiro deste trabalho no período de um ano.



RESUMO

As possíveis estruturas acometidas na desordem do espectro da neuropatia auditiva (DENA) são as células ciliadas internas, o nervo auditivo e/ou falha na conexão sináptica entre células ciliadas internas e o VIII par craniano. A dificuldade de percepção auditiva da fala no silêncio e, principalmente, no ruído, observada em indivíduos com a desordem, pode ser justificada pela dessincronia neural que leva a uma falha no padrão dos estímulos sonoros enviados para o sistema auditivo central pelo nervo auditivo. Dispositivos eletrônicos como o aparelho de amplificação sonora individual, o implante coclear e o sistema de frequência modulada são opções para a habilitação auditiva destes pacientes para diminuir a privação sensorial e estimular a aquisição e desenvolvimento da linguagem. Este estudo propõe investigar os resultados de linguagem oral de crianças com DENA que fazem uso de diferentes dispositivos eletrônicos em interface com os resultados de percepção auditiva da fala e comparar com os resultados obtidos de crianças sem queixas auditivas ou de linguagem. Participaram do estudo 19 crianças com idade entre seis e 12 anos incompletos com diagnóstico de DENA, divididas em usuárias de implante coclear e usuárias de aparelhos de amplificação sonora individuais, e pareadas com 28 crianças do grupo controle de acordo com a idade na avaliação e o sexo. A análise dos resultados mostrou que crianças com DENA não apresentam desempenho de linguagem esperado para a idade cronológica, sem diferença de resultados entre os dispositivos eletrônicos utilizados. O vocabulário receptivo e a porcentagem de consoantes corretas apresentaram correlação com todos os outros aspectos avaliados. A sintaxe e o vocabulário receptivo estão correlacionados com a percepção auditiva de fala na avaliação com sentenças, mas não com palavras. O único aspecto sociodemográfico que apresentou correlação significativa com as demais variáveis foi o nível socioeconômico. Com o presente estudo é possível concluir que as crianças com DENA necessitam de avaliação e intervenção voltadas para habilidades específicas e complexas da linguagem oral e da percepção auditiva da fala para um prognóstico mais otimista com relação ao desenvolvimento da linguagem oral próxima da normalidade para a idade cronológica.

Palavras-chave: Perda Auditiva Neurossensorial. Linguagem. Percepção da Fala. Implantes Cocleares. Auxiliares de Audição.

ABSTRACT

Language characterization of children with auditory neuropathy spectrum disorder

The possible structures involved in the auditory neuropathy spectrum disorder (ANSD) are the inner hair cells, the auditory nerve and / or failure in the synaptic connection between inner hair cells and the VIII cranial nerve. The difficulty of the speech perception in the silence and, mainly, in noise, observed in individuals with the disorder, can be justified by the neural desynchrony that leads to a failure in the pattern of the sound stimuli sent to the central auditory system by the auditory nerve. Electronic devices such as the hearing aids, the cochlear implant and the frequency modulation system are options for the auditory habilitation of these patients to reduce sensory deprivation and stimulate the acquisition and development of the language. The aim of this study is to investigate the oral language outcomes of children with ANSD who use different electronic devices in interface with the outcome of speech perception and to compare with the assessment of children without hearing or language complaints. The study included 19 children aged between 6 and 12 years old who were diagnosed with ANSD, divided into cochlear implant users and users of hearing aids, and matched with 28 children from the control group according to age in the evaluation and sex. The results showed that children with ANSD do not present expected language performance for the chronological age, with no difference of results between the electronic devices used. The receptive vocabulary and the percentage of correct consonants were correlated with all other aspects evaluated. Syntax and receptive vocabulary are correlated with auditory speech perception evaluation with sentence, but not with words. The only socio-demographic aspect that presented a significant correlation with the other variables was the socioeconomic level. With the present study it is possible to conclude that children with ANSD need assessment and intervention focused on specific and complex skills of oral language and speech perception for a more optimistic prognosis regarding the development of oral language near normality for chronological age.

Key words: Hearing Loss, Sensorineural. Language. Speech Perception. Cochlear Implants. Hearing Aids.

LISTA DE ILUSTRAÇÕES

\sim			_	_	$\overline{}$
<i>(</i>)		Λ	ı١	ப	()
Q	U.	М	ப	$\boldsymbol{\Gamma}$	u

Quadro 1 -	Relação de artigos encontrados nas bases de dados Pubmed e Bireme relacionados à DENA e linguagem oral	27
FIGURA		
Figura 1 -	Gráficos de correlações entre vocabulário receptivo (eixo Y) e outras variáveis de linguagem oral (eixo X)	53
GRÁFICOS	3	
Gráfico 1 -	Participantes distribuidos nas categorias do teste de vocabulário receptivo por imagens de acordo com a idade cronológica e a idade auditiva	49
Gráfico 2 -	Distribuição dos participantes do grupo AASI e Grupo controle de acordo com a Porcentagem de Consoantes Corretas (PCC) na nomeação e idade na avaliação	54
Gráfico 3 -	Distribuição dos participantes do grupo IC e Grupo controle de acordo com a Porcentagem de Consoantes Corretas (PCC) na nomeação e idade na avaliação	55

LISTA DE TABELAS

Tabela 1 -	Descrição das idades e da análise da diferença entre grupos pelo	
	teste Mann-Whitney	47
Tabela 2 -	Descrição dos processos fonológicos para as provas de nomeação	
	e de imitação	50
Tabela 3 -	Correlações significativas obtidas pelo Coeficiente de Spearman	
	com a variável fonética	53

LISTA DE ABREVIATURA E SIGLAS

AASI Aparelho de Amplificação Sonora Individual

CAP Categories of Auditory Performance

CPA Centro de Pesquisas Audiológicas

dB Decibel

DENA Desordem do Espectro da Neuropatia Auditiva

DP Desvio Padrão

EOA Emissões Otoacústicas

FM Sistema de Frequência Modulada

HRAC Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais

IC Implante Coclear

IM Incorreções morfêmicas

IO Incorreções de Ordem

IT- MAIS Infant-Toddler Meaningful Auditory Integration Scale

M Média

MAIS Meaningful Auditory Integration Scale

Máx Máximo

MC Microfonismo Coclear

Min Mínimo Mo Moda

n Tamanho da amostra

p Valor de p na análise estatística

PAS Perda Auditiva Sensorioneural

PCC Porcentagem de Consoantes Corretas

r valor de correlação do Coeficiente de Spearman

SIR Speech intelligibility Rate

S/R Sinal/Ruído

USP Universidade de São Paulo

UTI Unidade de Terapia Intensiva

SUMÁRIO

1	INTRODUÇÃO	17
2	REVISÃO DE LITERATURA	21
2.1	Desordem do espectro da neuropatia auditiva	23
2.2	DENA e dispositivos eletrônicos	24
2.3	DENA e linguagem oral	26
3	PROPOSIÇÃO	31
3.1	Objetivo geral	33
3.2	Objetivos específicos	33
4	METODOLOGIA	35
4.1	Casuística	38
	Critérios de inclusão	38
	Critérios de exclusão	39
4.2	Procedimentos	39
<u>4.2.1</u>	Aspectos formais e de conteúdo da linguagem oral	39
	Vocabulário receptivo	39
	Fonética e Fonologia	40
	Sintaxe	40
	Praxia	40
	Inteligibilidade de fala	41
<u>4.2.2</u>	Percepção auditiva da fala	41
	Percepção auditiva da fala no silêncio e no ruído	41
	Lista de palavras	42
<u>4.2.3</u>	Dados demográficos	42
4.3	Análise dos resultados	42
5	RESULTADOS	45
5.1	Descrição da amostra	47
5.2	Caracterização da linguagem oral	48
<u>5.2.1</u>	Vocabulário receptivo	48
<u>5.2.2</u>	Fonética e Fonologia	49
<u>5.2.3</u>	<u>Sintaxe</u>	50
5.2.4	<u>Praxia</u>	51

<u>5.2.5</u>	Inteligibilidade de fala	51
<u>5.2.6</u>	Percepção auditiva da fala	51
5.3	Correlação entre as variáveis (Coeficiente de Spearman)	52
5.4	Análise entre grupos (Teste Mann-Whitney)	53
<u>5.4.1</u>	Grupo AASI x Grupo IC	53
<u>5.4.2</u>	Grupo AASI x Grupo Controle	54
<u>5.4.3</u>	Grupo IC x Grupo Controle	54
6	DISCUSSÃO	57
7	CONCLUSÕES	65
	REFERÊNCIAS	69
	APÊNDICES	77
	APÊNDICE A - Termo de assentimento do Grupo Experimental	79
	APÊNDICE B - Termo de consentimento livre e esclarecido do	
	Grupo Experimental	81
	APÊNDICE C - Termo de assentimento do Grupo Controle	83
	APÊNDICE D - Termo de consentimento livre e esclarecido do	
	Grupo Controle	85

1 INTRODUÇÃO

A desordem do espectro da neuropatia auditiva (DENA) é uma perda auditiva sensorioneural (PAS) caracterizada por alteração na transmissão da informação auditiva pelo nervo coclear. O grau e configuração da perda auditiva podem variar, porém, para esses indivíduos é encontrado dificuldade na percepção auditiva da fala no ruído.

Associado à prematuridade e outros acometimentos peri e pós-natais, o diagnóstico da DENA pode vir acompanhado de outras comorbidades que tem os fatores de risco em comum. Neste caso, a perda auditiva é acompanhada de outros diagnósticos que podem ser prioridades para os pais do neonato (UUS; YOUNG; DAY, 2012).

É importante que a família esteja consciente da alteração auditiva e das dificuldades que podem ser encontradas no trajeto da habilitação auditiva das crianças com DENA, e que muitas vezes o desenvolvimento das habilidades auditivas e da linguagem oral não ocorrem da mesma maneira esperada para outros tipos de PAS (NIKOLOPOULOS, 2014).

A literatura mais encontrada sobre a DENA se refere ao diagnóstico e à caracterização da alteração quanto à percepção auditiva da fala. Alguns autores abordam o desenvolvimento da linguagem de crianças com DENA em comparação entre os tipos de PAS na tentativa de entender a desordem que a neuropatia causa nos indivíduos diagnosticados. Porém, pouco se encontra sobre a linguagem oral de crianças com DENA no âmbito de estabelecer o processo de aquisição e desenvolvimento desses indivíduos em comparação com a normalidade esperada para indivíduos normo-ouvintes.

Mediante o exposto, o presente estudo propõe investigar os resultados de linguagem oral de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva que fazem uso de diferentes dispositivos eletrônicos, em interface com os resultados de percepção auditiva da fala e comparar com os resultados de crianças sem queixas auditivas e de linguagem.

A hipótese referente aos resultados da presente pesquisa é que mesmo que as crianças com DENA apresentem compreensão auditiva, as crianças com IC

possuam melhor benefício em percepção auditiva da fala e consequentemente melhor desempenho nas habilidades de linguagem oral.

2 REVISÃO DE LITERATURA

2.1 Desordem do espectro da neuropatia auditiva (DENA)

Desordem do espectro da neuropatia auditiva (DENA) é a nomenclatura utilizada para descrever a neuropatia auditiva descrita por Starr et al. em 1996, composta pelo termo "neuropatia auditiva" já familiarizado por profissionais e estudiosos da área, "desordem" por se tratar de um comprometimento que varia de leve a profundo e o termo "espectro" por não haver definição exata do local da lesão (NHS, 2008).

As possíveis estruturas acometidas na DENA são as células ciliadas internas, o nervo auditivo e/ou falha na conexão sináptica entre células ciliadas internas e o VIII par craniano. A desordem é um tipo PAS caracterizada por presença de emissões otoacústicas (EOA) e/ou microfonismo coclear (MC) registrado com a eletrococleografia ou potencial evocado auditivo de tronco encefálico (PEATE), com ausência ou anormalidade no registro da atividade neural no PEATE, reflexos acústicos ausentes ou elevados e baixo reconhecimento de fala, especialmente na presença de ruído (BERLIN et al., 2010; BRENEMAN; GIFFORD; DEJONG, 2012; LEPCHA et al., 2015; RAVEH et al., 2007).

Exame de imagem, como a ressonância magnética, também é recomendado para detectar possíveis deficiências do nervo auditivo, como hipoplasia ou agenesia (HOOD, 2015; SHARMA; CARDON, 2015).

Na literatura, podemos encontrar a prevalência da DENA em crianças descrita em diversos estudos. Berlin et al. (2010) diagnosticaram 10% das crianças em uma escola para surdos com DENA, enquanto Nikolopoulos (2014) descreveu a prevalência de 0,23 a 2% dos lactentes com fatores de risco para perda auditiva e de 10% dentre as crianças com perda auditiva permanente. Após uma revisão de estudos publicados sobre a DENA, Rance (2005) definiu que 7% das crianças com perda auditiva permanente apresentam o diagnóstico da desordem.

O diagnóstico da DENA frequentemente está associado à prematuridade, hiperbilirrubinemia, anóxia, uso de ventilação mecânica e permanência na unidade de tratamento intensivo (UTI) neonatal como fatores de risco (BERLIN et al., 2010; BRENEMAN; GIFFORD; DEJONG, 2012; BUDENZ ET AL., 2013), sendo a

prematuridade e a icterícia neonatal os fatores etiológicos mais encontrados em crianças com DENA (RAJPUT et al., 2019). Também pode apresentar fatores genéticos, síndromes e outros comprometimentos motores e/ou neurológicos, como por exemplo, a síndrome de Charcot-Marie-Tooth e Ataxia de Friedreich (RAJPUT et al., 2019; SCHRAMM; HARRISON, 2010).

Na presença de tais fatores de risco para alteração retrococlear, é indicada a realização da triagem auditiva neonatal com o PEATE (JCIH, 2007), visto que as EOAs podem apresentar um falso negativo para alteração auditiva, por conta da presença da funcionalidade das células ciliadas externas (SCHRAMM; HARRISON, 2010; RAVEH et al., 2007). A combinação de EOA e PEATE é a mais sensível para detecção da DENA, os limiares auditivos encontrados na avaliação comportamental são maiores do que o esperado pela presença de emissões, assim como o reconhecimento de fala é incompatível com o grau da perda auditiva (HOOD, 2015).

Na avaliação comportamental da audição, como audiometria tonal liminar ou audiometria lúdica para crianças, pode-se encontrar desde limiares dentro dos padrões de normalidade até PAS profunda (BRENEMAN; GIFFORD; DEJONG, 2012). Penido e Isaac (2013) encontraram DENA em 1,2% dos indivíduos com PAS e 55,5% apresentavam perda auditiva de grau moderado. A perda auditiva de grau severo a profundo foi descrita por Raveh et al. (2007) em 65% da amostra do estudo.

A dificuldade de percepção auditiva da fala no silêncio e, principalmente, no ruído, observada em indivíduos com DENA, pode ser justificada pela alteração na sincronia neural que leva a uma falha no padrão dos estímulos sonoros enviados para o sistema auditivo central pelo nervo auditivo (SHARMA; CARDON, 2015; NIKOLOPOULOS, 2014). O processamento temporal, que envolve habilidades como a de discriminação de frequências e a percepção de espaços de silêncio entre estímulos sonoros, encontra-se alterado em indivíduos com DENA (ZENG; LIU, 2006).

2.2 DENA e dispositivos eletrônicos

Dispositivos eletrônicos como o aparelho de amplificação sonora individual (AASI), o implante coclear (IC) e o sistema de frequência modulada (FM) são opções

para reabilitação auditiva destes pacientes para diminuir a privação sensorial e estimular a aquisição e desenvolvimento da linguagem.

O benefício com o dispositivo e desenvolvimento das habilidades auditivas e de linguagem será influenciado por variáveis da criança como idade da adaptação com o AASI ou da cirurgia do IC, presença de outras patologias associadas e variáveis da família como o modo de comunicação utilizado, a situação socioeconômica e escolaridade da mãe, sendo que esses dois últimos fatores são os que prevaleceram no estudo realizado por Ching e colaboradores (2013).

O benefício do longo tempo de uso do AASI foi comparado entre crianças com DENA e crianças com perda auditiva coclear por Rance e colaboradores (2007), neste estudo a linguagem receptiva e a produção de fala foram avaliadas. A linguagem receptiva demonstrou atraso com relação aos pares ouvintes, sem significância entre os grupos assim como a produção da fala.

O AASI pode trazer benefícios para indivíduos com DENA, principalmente para aqueles com perda auditiva leve a moderada (RANCE; BARKER, 2009). Para os indivíduos com perda auditiva com grau de severa a profunda o AASI também é indicado e quando não traz benefício para o reconhecimento da fala, recomenda-se o IC (KONTORINIS et al., 2014)

Em indivíduos com perda auditiva coclear recomenda-se a realização da cirurgia e ativação do IC antes dos 36 meses para melhor aproveitamento da plasticidade neural, porém em indivíduos com DENA a recomendação é 24 meses (SHARMA; CARDON, 2015).

Liu e colaboradores (2014) pesquisaram as habilidades auditivas e de linguagem após a cirurgia de IC em crianças com DENA por meio de questionários como MAIS e o IT-MAIS, a categorização da habilidade auditiva com o *Categories of Auditory Performance* (CAP). O CAP e o MAIS/IT-MAIS apresentaram diferença significativa entre o grupo que recebeu IC antes dos 24 meses e o grupo que recebeu após esse período.

Após o período de seis meses de experiência com o AASI e não apresentarem benefícios com a amplificação, 26 crianças com DENA foram submetidas a cirurgia de IC e mostraram melhora significativa na percepção auditiva da fala. O IC permite estimulação da via auditiva que sobrepõe a alteração na sincronia neural e justifica o resultado melhor após a implantação do dispositivo. Em

contrapartida, o sucesso do IC pode ser comprometido por alterações cognitivas associadas à DENA (KONTORINIS et al., 2014).

O benefício do IC em indivíduos com DENA pode ser avaliado por Ji e colaboradores (2015) por meio de medidas de percepção auditiva da fala no silêncio e no ruído, inteligibilidade da fala e questionário quanto a linguagem. A conclusão dos pesquisadores foi que o limiar auditivo melhora quando comparado o AASI e o IC, assim como o reconhecimento de fala no silêncio e no ruído, mostrando que a audibilidade foi reconstruída, todavia, a inteligibilidade de fala dos indivíduos com DENA não apresentou melhora e a comunicação social não foi definida efetiva para os participantes.

2.3 DENA e linguagem oral

Em uma busca realizada na base de dados PubMed foram encontrados 53 artigos utilizando o cruzamento dos descritores da seguinte forma: "auditory neuropathy" AND "language" AND "child". Foram selecionados 18 artigos pelo título e 10 artigos após leitura do resumo, sendo um nacional de relato de caso.

O mesmo processo foi realizado na base de dados Bireme, utilizando as palavras-chaves em português ("neuropatia auditiva" AND "linguagem" AND "criança") para os quais foram encontrados seis artigos, sendo três excluídos pelo título restando três artigos nacionais de relato de caso, um deles encontrado anteriormente na base de dados PUBMED.

Na tentativa de aumentar o número de artigos encontrados, o termo "neuropatia auditiva" foi substituído pelo descritor "perda auditiva neurossensorial". Com a mudança, foram encontrados 279 artigos que após uma seleção por título restaram 10 artigos envolvendo estudos com DENA. Três artigos foram excluídos após leitura dos resumos por não envolver linguagem oral, restando sete artigos que coincidiram com os estudos encontrados nas buscas anteriores.

O quadro abaixo apresenta os artigos completos referentes a DENA e linguagem oral encontrados nas bases de dados PubMed e Bireme, sem restrição quanto ao ano de publicação. Todos os artigos estudaram crianças, com no mínimo de seis meses e máximo de 140 meses.

(Continua)

Autores,	Objetivo	Amostra	Procedimentos	Conclusão
Rique et al., 2017 (Brasil)	Aplicar o protocolo de Ensino por Múltiplos Exemplares em outras populações	1 criança com DENA e IC bilateral sequencial	Peabody e MAIS pré e pós aplicação do Ensino por Múltiplos Exemplares	Aplicação do protocolo proporcionou aumento significativo nos repertórios verbais
Ji et al., 2015 (China)	Propor e avaliar protocolo de avaliação hierárquica para determinar os benefícios do IC nas crianças com DENA	8 crianças com DENA pré-lingual com IC	Audiometria e Testes de reconhecimento de fala de acordo com a idade (Mandarim Early Speech Perception Test, MAIS e IT- MAIS)	Uma avaliação hierárquica permite um método mais adequado para determinar os benefícios que indivíduos com DENA terão ao receber o IC.
Kontorinis et al., 2014 (Inglaterra)	Apresentar os resultados do IC em crianças com DENA	27 crianças com DENA com IC, média de idade da cirurgia de 35.4 meses	Category Of Auditory Performance (CAP) e Manchester Spoken Language Developmental Scale	O resultado do IC na DENA pode variar, mas é favorável na maioria dos casos, sendo uma opção de reabilitação justificada para crianças com benefícios limitados com AASI
Liu et al., 2014 (China)	Avaliar habilidades auditivas e de linguagem de crianças com DENA após IC, e verificar influência da idade na cirurgia	10 crianças com DENA e com início do uso de IC entre 24 e 84 meses, divididas grupos pela idade na cirurgia	CAP, MAIS e IT- MAIS, Monosyllabic Lexical Neighborhood Test (LNT) e Multisyllabic Lexical Neighborhood Test (MLNT), Speech Intelligibility Rating (SIR)	IC é bom para a criança com DENA principalmente antes dos 24 meses
Budenz et al., 2013 (EUA)	Comparar fala e linguagem de crianças com DENA e crianças com perda coclear após o IC	17 crianças com DENA sem comprometimento cognitivo, pareadas com PAS de acordo com idade de ativação, modo de comunicação e dispositivo interno	Preeschool Language Scale (PSL), Expressive Vocabulary Test (EVT) e Peabody	As crianças com DENA tem desempenho de fala e linguagem compatíveis com outras crianças implantadas

(Continuação)

				(Continuação
Autores, ano e país	Objetivo	Amostra	Procedimentos	Conclusão
Ching et al., 2013 (Austrália)	Determinar influência da DENA no desenvolvimento da fala, linguagem e psicossocial de crianças com 3 anos	47 crianças com 3 anos de idade, 27 com AASI, 19 com IC e 1 sem dispositivo comparadas com PAS	PSL, Peabody, Diagnostic Evaluation od Articulation and Phonology Test (DEAP), Child Development Inventory e PEACH e questionários socioeconomicos	Não houve diferença entre DENA e PAS, e entre dispositivos na DENA. Criança com DENA de 3 anos consegue desenvolver linguagem funcional, porém 1 DP abaixo da normalidade
Breneman, Gifford e DeJong, 2012 (EUA)	Avaliar desempenho de percepção da fala para crianças com DENA e IC comparando com seus pares de mesma idade e PAS	35 crianças com DENA, sem má- formação do nervo auditivo e comprometimento cognitivo, pareadas com crianças com PAS de acordo com idade na ativação inicial e meses de uso do IC	IT-MAIS/MAIS ou LittlEARS. Early Speech Perception Test e GASP, Northwestern University - Children's Perception, Word Intelligibility by Pictures Identification, Consonant Nucleus Consonant, MLNT e LNT	IC é uma opção de tratamento viável para crianças com DENA. Desempenho de crianças com DENA sem alteração no nervo não é diferente de crianças com PAS
Costa et al., 2012 (Brasil)	Investigar as habilidades auditivas e comunicativas de dois irmãos com diagnóstico de DENA e com a mesma mutação no gene OTOF	2 irmãos com diagnóstico de DENA e mutação no gene OTOF	Entrevista com os pais, "Procedimento de Avaliação de Percepção de Fala em Crianças Deficientes Auditivas Profundas" e Protocolo de Observação Comportamental	As crianças desenvolveram habilidades auditivas e comunicativas diferentes, mostrando a importância de avaliação e plano terapêutico individualizado.
Bretanha et al., 2011 (Brasil)	Acompanhar longitudinalmente o uso de habilidades pragmáticas por uma criança com DENA	1 criança cm diagnóstico de DENA, dos cinco aos sete anos de idade	Três gravações de fala espontânea durante 30 min anualmente durante três anos de intervenção fonoaudiológica	A intervenção fonoaudiológica proporcionou melhora nas habilidades pragmáticas de comunicação.
Schramm e Harrison, 2010 (Canadá)	Avaliar desempenho auditivo após IC em crianças com DENA	16 crianças com DENA com IC sem alteração na morfologia do nervo coclear, cada uma pareada com 2 crianças com PAS pela idade na implantação e desenvolvimento	IT-MAIS	IC deve ser considerado para crianças com DENA que tem benefício mínimo com AASI e morfologia normal do nervo coclear.

(Conclusão)

				(Conclusão
Autores, ano e país	Objetivo	Amostra	Procedimentos	Conclusão
Rance e Baker, 2009 (Austrália)	Avaliar linguagem receptiva e produção de fala de crianças com DENA em idade escolar	10 crianças com DENA e IC, 10 crianças com PAS e IC pareadas pela idade da cirurgia e idade na avaliação,10 crianças com DENA e AASI com pelo menos 4 anos de uso pareadas pela idade na avaliação	Peabody, DEAP	Fala e linguagem da criança com DENA a longo prazo é equivalente ao desenvolvimento da população geral com IC. Equivalência das crianças com AASI mostra que não deve fazer o IC rapidamente.
Rance et al., 2007 (Austrália)	Caracterizar as habilidades de linguagem receptiva e produção de fala de crianças em idade escolar com DENA e compará-las com PAS em idade e grau de perda auditiva	12 crianças com DENA pareadas com crianças com PAS de acordo com a idade na avaliação e média tritonal da audiometria	Peabody, DEAP e SIR	Alguns indivíduos com amplificação convencional conseguiram desenvolver habilidades razoáveis de linguagem receptiva e inteligibilidade de fala

Quadro 1 – Relação de artigos encontrados nas bases de dados Pubmed e Bireme relacionados à DENA e linguagem oral

É possível observar presença de pesquisadores de quatro continentes, mostrando uma preocupação mundial recente pela compreensão da influência da DENA na aquisição e desenvolvimento da linguagem.

Nacionalmente foi possível encontrar três artigos com relatos de casos clínicos, de um único caso ou de dois irmãos, oferecendo contribuição limitada, sem possibilidade de análise como norteador de resultados para marcadores clínicos.

Os estudos internacionais se voltam para comparação entre tipos de perda auditiva e dispositivos utilizados com amostra e procedimentos variados.

A linguagem de crianças em idade escolar com DENA usuárias de IC pareadas com crianças com DENA adaptadas com AASI, e crianças com PAS usuárias de IC foi avaliada por Rance e Barker (2009). No estudo, o vocabulário receptivo, estava aquém do esperado para a idade das crianças e foi correlacionado com a percepção auditiva da fala, porém sem diferença entre os grupos. A porcentagem de produção correta dos fonemas foi correlacionada com a idade para

o grupo com AASI, com a idade na cirurgia e tempo de uso do IC nos grupos usuários deste dispositivo.

O desempenho pré e pós-operatório de crianças com DENA isolada e crianças com perda auditiva coclear avaliado com testes de vocabulário receptivo (*Peabody*), vocabulário expressivo (*Expressive Vocabulary Test*) e de compreensão de sentenças (*Preschool Language Scale*) não mostrou diferença significante entre os dois tipos de PAS (BUDENZ et al., 2013).

Apesar da similaridade do desenvolvimento da percepção auditiva da fala em indivíduos com DENA e outros tipos de PAS e o progresso que a estimulação do IC traz, deve-se considerar a presença de outras comorbidades associadas à DENA e condições do nervo auditivo para a reabilitação do indivíduo (BRENEMAN; GIFFORD; DEJONG, 2012; SCHRAMM; HARRISON, 2010).

3 PROPOSIÇÃO

3.1 Objetivo geral:

Caracterizar a linguagem oral quanto aos aspectos formais e de conteúdo de crianças com DENA usuárias de IC e/ou AASI

3.2 Objetivos específicos:

- Correlacionar a percepção auditiva da fala e o desempenho na linguagem oral de crianças com DENA;
- Verificar se as variáveis idade no diagnóstico da deficiência auditiva, presença de fatores de risco para deficiência auditiva, idade da adaptação do AASI e/ou da cirurgia do IC, uso do sistema de frequência modulada, escolaridade dos pais e nível socioeconômico apresentam associação com o desempenho da linguagem oral.
- Comparar os resultados de linguagem oral e percepção auditiva da fala entre os grupos de crianças com DENA usuárias de AASI e o grupo de usuárias de IC;
- Comparar o desempenho de linguagem oral entre os grupos experimentais e controle;

4 METODOLOGIA

O presente estudo foi encaminhado para apreciação no Comitê de Ética e Pesquisa do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC-USP). Após aprovação do projeto de pesquisa (61731616.7.0000.5441) os pacientes e seus responsáveis foram convidados a participar da pesquisa, devendo assinar o termo assentimento e o termo de consentimento livre e esclarecido, respectivamente, para efetivar sua participação.

A coleta de dados foi realizada por meio de aplicação de testes de avaliação de linguagem oral e da análise documental de prontuários de pacientes matriculados na Seção de Implante Coclear - Centro de Pesquisas Audiológicas do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (Seção IC-CPA/HRAC/USP).

A Seção IC-CPA/HRAC/USP faz uso de prontuário padronizado para que possa servir como material de investigação e possui protocolo clínico padronizado de avaliação e de indicação do implante coclear para pessoas com deficiência auditiva, assim como para o acompanhamento dos pacientes usuários de implante coclear.

Para a coleta de dados por meio da análise dos prontuários a pesquisadora assinou e se comprometeu a cumprir os itens do "TERMO DE COMPROMISSO DE MANUSEIO DE INFORMAÇÕES", conforme preconizam os Documentos Internacionais, a Resolução 466/12 do Ministério da Saúde, parágrafo III "Aspectos Éticos da Pesquisa Envolvendo Seres Humanos" e a Diretriz 12 das Diretrizes Éticas Internacionais para Pesquisas Biomédicas Envolvendo Seres Humanos (CIOMS/93), disponível em http://scapesq.blogspot.com.br/p/comite-de-etica-em-pesquisa.html.

A coleta foi realizada em sala silenciosa localizada na Seção IC-CPA/HRAC/USP, com aplicação dos procedimentos por aproximadamente uma hora total, quando necessário, este tempo foi fracionado em períodos menores para evitar cansaço do participante.

Prevaleceu-se a permanência dos participantes nos dias de atendimentos previamente agendados para avaliação, manutenção e acompanhamento do dispositivo realizados periodicamente na referida Seção. Dessa maneira, o paciente

não teve custo adicional e não se ausentou por um período extra de suas atividades escolares para participar do presente estudo.

4.1 Casuística

Participaram da pesquisa 19 crianças matriculadas na Seção IC-CPA/HRAC/USP para compor os grupos experimentais. Zorzi e Hage (2004) definem que a linguagem oral está estabelecida em crianças falantes do português a partir dos seis anos de idade, por isso todos os participantes deste estudo estão com faixa etária entre seis anos completos e 12 anos incompletos (considerado criança pela Lei Nº 8.069, de 13 de julho de 1990).

Foram compostos dois grupos experimentais para o estudo, com nove participantes no grupo de crianças com DENA usuárias de AASI e 10 no grupo com DENA usuárias de IC.

As crianças usuárias de AASI, participaram do presente estudo se apresentassem nível de reconhecimento auditivo em conjunto aberto e categoria auditiva 5 ou 6 de acordo com a classificação de Geers (1994) indicando benefício com o AASI e sem indicação para IC.

Todos os participantes se enquadraram nos seguintes critérios de inclusão: ter perda auditiva pré-lingual, não apresentar outras deficiências associadas à deficiência auditiva, realizar ou ter realizado intervenção fonoaudiológica priorizando a audição e linguagem oral como principal modo de comunicação e apresentar categoria 5 ou 6 de audição de acordo com a escala de Geers (1994). Estas informações constavam no prontuário das crianças, nas fichas de atendimento da equipe interdisciplinar em implante coclear da Seção IC-CPA/HRAC/USP.

- Critérios de inclusão

Diagnóstico de DENA confirmado com presença de emissões otoacústicas e/ou microfonismo coclear e ausência ou alteração no registro do PEATE;

- Não ter hipoplasia ou alteração na morfologia do nervo auditivo;
- Fazer uso do AASI e/ou IC unilateral ou bilateral;

- Critérios de exclusão:

 Apresentar interrupção no uso do IC e/ou do AASI por período igual ou superior a 30 dias, durante o período anterior o qual os dados foram coletados. Esta informação constava no prontuário das crianças nas fichas de atendimento fonoaudiológico da rotina pós-cirúrgica em implante coclear da Seção IC-CPA/HRAC/USP.

Para compor o grupo controle foram convidadas 28 crianças por demanda voluntária a partir de contato da pesquisadora com os familiares, sendo o dobro de crianças no grupo controle para cada grupo experimental. Os procedimentos relacionados à linguagem oral foram realizados em local silencioso, após lerem e assinarem o termo de assentimento e o termo de consentimento de livre e esclarecido. Como critério de inclusão foram consideradas crianças sem queixas auditivas e de linguagem pareadas com os grupos experimentais de acordo com a idade no dia da avaliação e gênero.

4.2 Procedimentos:

4.2.1 Aspectos formais e de conteúdo da linguagem oral

Todas as crianças foram avaliadas quanto aos aspectos formais e de conteúdo da linguagem oral. Durante a avaliação da linguagem oral, o avaliador se posicionou ao lado ou à frente da criança de acordo com a preferência para melhor compreensão do que lhe for falado. Foi permitido, também, que o participante realizasse leitura orofacial e pedisse repetição do que escutou para garantir a compreensão do conteúdo.

Os procedimentos de avaliação dos aspectos formais e de conteúdo da linguagem oral foram:

- Vocabulário receptivo (Teste de Vocabulário por Imagens Peabody):

Elaborado por Dunn em 1959, adaptado para a cultura hispano-americana por Dunn, Padilla e Lugo (1986), sendo esta a versão a ser utilizada nesta pesquisa. Composto por 125 itens com quatro figuras em cada página, a criança deve indicar a

figura correspondente à palavra dita pelo examinador. Os itens foram oferecidos em ordem crescente de dificuldade. As respostas são anotadas na folha de resposta e estabelece-se a base com oito respostas corretas consecutivas e o teto com seis erros dentro de oito itens consecutivos, o cálculo da pontuação direta foi realizado com a subtração dos erros obtidos no total de itens analisados entre base e teto.

- Fonética e fonologia (ABFW: Prova de fonologia, WERTZNER, 2000):

 Avaliação de 14 processos fonológicos analisados por duas provas: imitação com uma lista de 39 palavras, as quais a criança deve repetir o modelo apresentado pelo avaliador; e nomeação com 34 figuras que foram apresentadas para criança fazer a nomeação espontânea. A partir desta prova é possível fazer o cálculo de fonemas produzidos corretamente pela criança, e a produtividade (quando maior do que 25%) dos processos fonológicos (análise fonológica), considerando se o processo é adequado ou não para a idade.
- Sintaxe: Foram utilizados dois subtestes presentes na Prova de Consciência Sintática (CAPOVILLA; CAPOVILLA, 2006) que avaliam o julgamento gramatical e correção gramatical sem interferência semântica auxiliando na análise da habilidade metassintática, responsável pela reflexão quanto à estrutura sintática (morfológica e gramatical) da linguagem oral.
- 1- Julgamento gramatical: a criança deve julgar a gramaticidade de 20 frases, sendo metade gramaticais e metade agramaticais. Dentre as agramaticais, há frases com anomalias morfêmicas (Ex.: "A mulher está bonito") e com inversão de ordem (Ex.: "Escola gosto eu da").
- 2- Correção gramatical sem interferência semântica: Correção de frases gramaticalmente incorretas, sendo metade com anomalias morfêmicas e metade com inversão de ordem (Ex.: "Futebol o joga menino");
 - Praxia (Teste de praxias Articulatórias e Bucofaciais, HAGE, 2000):

Solicitou-se que a criança realizasse movimentos de lábio, de língua, de face e articulatórios após modelo da avaliadora, cada movimento equivale a um ponto quando executado corretamente, obtendo máximo de 24 pontos no final da prova.

Inteligibilidade de fala (Escala de Inteligibilidade de Fala: SIR):

A escala desenvolvida por Cox e MacDaniel (1989) e reduzida por Allen, Nikopoloupos e O'Donoghue (1998) é constituída por cinco possíveis categorias: 1-Fala é ininteligível (pré-reconhecimento de palavras na linguagem oral; principal modo de comunicação no dia-a-dia pode ser o gestual); 2 - Fala é ininteligível (inteligibilidade de fala corresponde ao nível de palavras isoladas quando o contexto e a leitura orofacial estão disponíveis); 3 - Fala é inteligível a ouvintes que se concentram e fazem leitura orofacial em um contexto conhecido; 4- Fala é inteligível a ouvintes que possuem pouca experiência com a fala de deficientes auditivos; o ouvinte não necessita se concentrar demasiadamente; 5- Fala é inteligível a todos os ouvintes; a criança é facilmente compreendida em todas as situações.

Uma amostra de fala espontânea, de no mínimo 10 minutos e no máximo 20, foi gravada durante o dia de avaliação. Para que todos os participantes tenham as mesmas possibilidades comunicativas, o pesquisador fez perguntas ("Onde você mora?", "Como você veio?", "Como é sua escola?", "Você tem amigos na escola?").

O áudio da gravação realizada foi apresentado a três pessoas independentes da pesquisa sem contato com crianças com deficiência auditiva para que possa classificar a fala de cada participante com a (SIR). A apresentação foi realizada em sala silenciosa com intensidade de escolha do avaliador, o áudio de cada participante pode ser reproduzido apenas uma vez.

4.2.2 Percepção auditiva da fala

Foram considerados os resultados dos testes de percepção auditiva da fala realizados no último acompanhamento da criança com DENA na Seção IC-CPA/HRAC/USP, obtidos por meio da análise de prontuários de cada criança. Os testes de percepção da fala considerados foram:

- Percepção auditiva da fala no silêncio e no ruído:

Para a avaliação da percepção auditiva da fala no silêncio e no ruído foram coletados os dados do teste de reconhecimento auditivo de sentenças proposto por Oliveira (1992). Uma lista gravada com 20 sentenças afirmativas da língua portuguesa é apresentada no silêncio, em cabina acústica, por meio de audiômetro, na intensidade fixa de 60 decibéls (dB) a 0° azimute. As 20 sentenças contêm de

três a sete vocábulos fonológicos (palavras-chave) em cada sentença, totalizando 100 palavras-chave em cada lista, apresentadas sem repetição. O escore é calculado somando-se o número de acertos das palavras-chave, sendo considerado escore máximo de 100%. Para o reconhecimento auditivo de sentenças no ruído a lista gravada contendo 20 sentenças é apresentada junto com ruído competitivo (ruído de festa "cocktail party"), na relação sinal/ruído de +10 dB (S/R +10dB) na mesma caixa acústica a 0° azimute.

- Lista de palavras como procedimento de avaliação da percepção dos sons da fala (DELGADO: BEVILACQUA, 1999):

O estímulo de fala constitui-se de 20 palavras dissílabas, com estrutura silábica consoante - vogal - consoante - vogal. Essas palavras são curtas e permitem a análise do padrão silábico consoante-vogal, predominantemente na língua portuguesa. O procedimento é realizado em campo livre e à viva voz, por meio de um audiômetro, com intensidade fixa de 60 dB. A lista de palavras foi apresentada apenas uma vez, e sem o uso de frases introdutórias antes das palavras. As crianças são orientadas a repetirem as palavras sem fazer uso da leitura orofacial. As emissões das crianças serão transcritas foneticamente pelo avaliador, sendo possível registrar os resultados e realizar o escore de reconhecimento de fonemas.

4.2.3 Dados sociodemográficos

Os dados demográficos referentes à data de nascimento da criança, idade no diagnóstico da deficiência auditiva, presença de fatores de risco para deficiência auditiva, idade da adaptação do AASI e/ou da cirurgia do IC, realização de fonoterapia, escolaridade dos pais e nível socioeconômico foram coletados por meio de análise de prontuário, nas fichas de atendimento da equipe interdisciplinar em implante coclear da Seção IC-CPA/HRAC/USP.

4.3 Análise dos resultados

A análise dos dados coletados foi realizada por análise estatística qualitativa e quantitativa indutiva dos dados. Os dados coletados foram organizados em planilha do programa Excel para posterior análise.

Para averiguar a correlação das variáveis da linguagem oral e percepção auditiva da fala entre os grupos foi utilizado o Teste não paramétrico de Mann Whitney.

A correlação das variáveis da linguagem oral, da percepção auditiva da fala das crianças e dos dados demográficos com DENA foi avaliada com o Coeficiente de Correlação de Spearman.

Para todos os testes foi adotado o nível de significância de 5% para análise dos resultados.

Para a escala de inteligibilidade SIR foi utilizado o teste de concordância Kappa (LANDIS; KOCH, 1977).

5 RESULTADOS

5.1 Descrição da amostra

Participaram do estudo 19 crianças com DENA com média da idade na avaliação de 8,74 e desvio padrão (DP) de 1,96, sendo que a criança mais nova tinha 6,17 anos e a mais velha 11,97. Os participantes foram divididos em dois grupos experimentais, usuárias de AASI e usuárias de IC.

No grupo com AASI foram nove crianças usuárias de aparelhos de amplificação bilateralmente, uma do sexo feminino e oito do sexo masculino, com idade na avaliação entre 6,17 e 11,75 anos (média= 8,29; DP= 1,60). O grupo com IC se caracterizou por 10 crianças divididas igualmente quanto ao sexo e com idade na avaliação entre 6,67 e 11,97 anos (média= 9,14; DP= 2,24), apenas um (10%) participante deste grupo fazia uso do IC e do AASI contralateral, cinco (50%) faziam uso do IC unilateral e quatro (40%) de IC bilateral.

Todos os participantes foram adaptados com AASI antes da cirurgia do IC, portanto para o cálculo da idade auditiva do grupo experimental (média = 6,48; DP= 2,79) foi considerada a idade na adaptação do AASI (média= 2,25; DP= 1,91). Os valores mínimos (mín) e máximos (máx) para cada idade podem ser observados na tabela 1.

Tabela 1 – Descrição das idades e da análise da diferença entre grupos pelo teste Mann-Whitney.

	Grupo AASI				Grupo IC			Valor	
	М	DP	Mín	Máx	М	DP	Mín	Máx	р
Cronológica	8,29	1,60	6,17	11,75	9,14	2,24	6,67	11,97	0,604
Auditiva	5,27	2,98	0,56	11,25	7,56	2,23	4,42	10,75	0,156
Adaptação de AASI	3,01	2,54	0,25	7,33	1,57	0,71	0,83	3	0,400
Ativação do 1º IC					3,32	1,57	1,83	6,92	

M= média; DP= desvio padrão; Mín= mínimo; Máx= máximo; valor de p considerado significante quando menor do que 0,05.

Todas as crianças estavam inseridas em escola regular cursando o ensino fundamental, seis no segundo ano (31,58%), cinco no terceiro ano (26,32%), o quinto e o sexto ano com três (15,79%) crianças cada, o primeiro ano e o quarto ano com um (5,26%) participante cada.

A avaliação socioeconômica mostrou que 57,9% (n=11) das famílias se enquadravam na classificação de classe social média inferior, 21,05% (n=4) na baixa inferior, 15,79% (n=3) na baixa inferior e apenas 5,26% (n=1) na média. Para descrever a escolaridade dos pais foi considerado o maior nível de escolaridade, do pai ou da mãe, sendo que a maior parte deles apresentava ensino superior completo (57,9%, n=11) e ensino médio completo (21,05%, n=4). O restante distribuiu-se entre ensino fundamental (n=1), médio incompleto (n=1), superior incompleto (n=1) e pósgraduação (n=1) correspondendo a 5,26% em cada nível.

Com relação à terapia fonoaudiológica, há quatro (21,05%) crianças que não estavam em processo terapêutico no momento da avaliação, nove (47,37%) realizavam terapia uma vez por semana e seis (31,58%) crianças realizavam duas vezes por semana, destas seis todas são participantes do grupo com IC.

5.2 Caracterização da linguagem oral e percepção auditiva da fala

Os testes aplicados para avaliar os aspectos formais e de conteúdo da linguagem oral permitiram uma análise ampla de cada habilidade por apresentarem subprovas ou formas de categorização distintas. Os resultados de correlação entre as variáveis descritos a seguir foram obtidos através da análise das pontuações gerais para cada avaliação. Os demais dados relevantes para este estudo serão descritos em forma de análise descritiva e qualitativa.

5.2.1 Vocabulário receptivo:

O teste de vocabulário receptivo por imagens Peabody permite a obtenção do escore bruto (mín=1; máx=122; mediana= 28) que seria o número de acertos realizado na prova e do escore padrão que compara o escore bruto com a pontuação esperada para a idade, a partir deste dado é possível caracterizar o desempenho da criança entre sete categorias (de baixa inferior a alta superior).

Oito participantes não conseguiram acertos o suficiente para alcançar o escore padrão mínimo esperado para idade cronológica. Ao analisar de acordo com a idade auditiva apenas quatro não conseguiram atingir a pontuação mínima e uma obteve pontuação além do esperado para idade auditiva e por isso não foi possível

caracterizá-la (Gráfico 1). Desta forma, nas análises estatísticas foi considerado o escore bruto de cada participante.

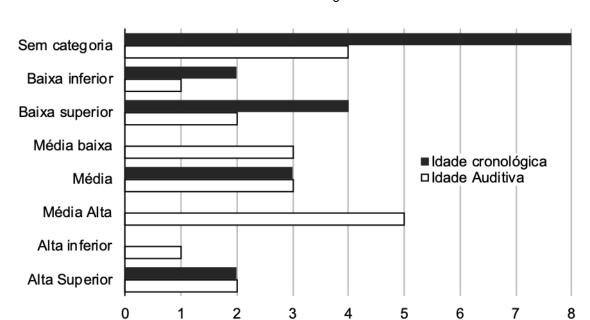


Gráfico 1 – Participantes distribuidos nas categorias do teste de vocabulário receptivo por imagens de acordo com a idade cronológica e a idade auditiva.

5.2.2. Fonética e Fonologia:

Para a análise fonética foi considerado a porcentagem de consoantes corretas (PCC) na qual foi calculado com a subtração das consoantes incorretas por omissão, substituição ou distorção considerando o número de total de possibilidades de ocorrência. A fonologia aparece como os tipos de erros apresentados de acordo com 14 processos fonológicos.

Duas crianças, uma de cada grupo experimental, apresentaram dificuldade na nomeação espontânea de figuras mesmo após o modelo da avaliadora, as consoantes das figuras não nomeadas foram consideradas como omissão dos fonemas na contagem da PCC, porém, não foram considerados processos fonológicos, pois a criança não apresentou repertório linguístico para análise.

Na prova de nomeação a PCC variou entre 29,67% e 97,80%, com média equivalente a 83,36 (DP=17,08), o número de omissões em média foram de 7,47 vezes (mín=0; máx=56), em média 7,0 substituições foram contabilizadas (mín=1; máx=31) e ocorreram em média 0,89 distorções (mín=0; máx=4). A análise por

processos fonológicos mostra média de 14,57 (DP=13,19) processos por participantes, o processo com mais ocorrência foi simplificação de encontro consonantal (mín=0; máx=12; mediana=2), seguido por plosivação de fricativas (mín=0; máx=15; mediana=0) e redução de sílaba (mín=0; máx=16; mediana=1).

Na prova de imitação a média de PCC foi de 86,83% (DP=10,18) variando entre 64,81% e 98,14%, as substituições apareceram mais vezes com média de 7,31 (mín=1; máx=25), as omissões apareceram em média 6,36 vezes (mín=0; máx=36) e as distorções ocorreram em média 0,73 vezes (mín=0; máx=5). Os processos fonológicos na prova de imitação obtiveram média igual a 14,05 (DP=10,35), os processos com mais ocorrência entre os participantes foram: simplificação de encontro consonantal (mín=0; máx=7; mediana=2) e simplificação de líquida (mín=0; máx=8; mediana=2).

Tabela 2 – Descrição dos processos fonológicos para as provas de nomeação e de imitação.

	Nomeação			lmitação				
	Mín	Máx	Мо	Total	Mín	Máx	Мо	Total
Redução de sílaba	0	16	0	34	0	3	0	15
Harmonia consonantal	0	4	0	8	0	3	0	11
Plosivação de fricativas	0	15	0	35	0	19	0	34
Posteriorização para velares	0	4	0	7	0	4	0	7
Posteriorização para palatal	0	9	0	20	0	5	0	14
Frontalização de velares	0	1	0	1	0	2	0	5
Frontalização de palatal	0	1	0	1	0	1	0	3
Simplificação de líquida	0	3	0	25	0	8	0	40
Simplificação de encontro consonantal	0	12	1	53	0	7	0	48
Simplificação de consoante final	0	4	0	25	0	5	2	34
Sonorização de plosivas	0	3	0	6	0	1	0	4
Sonorização de fricativas	0	1	0	2	0	0	0	0
Ensurdecimento de plosivas	0	1	0	3	0	2	0	3
Ensurdecimento de fricativas	0	1	0	6	0	3	0	10
Total				277				267

Mín= mínimo; Máx= Máximo; Mo=moda.

5.2.3 Sintaxe:

A prova de consciência sintática permite a pontuação de julgamento e de correção gramatical conforme o tipo de incorreção, morfêmica (IM) ou de ordem (IO).

Para as análises de correlação foi considerado o valor total de acertos nas duas provas (média=18,43; DP=8,29; mín=7; máx=30), 16 participantes conseguiram realizar a prova de julgamento gramatical (média=14; DP=4,27) e 10 conseguiram realizar a prova de correção gramatical (média=7,88; DP=2,02). Nas duas provas houve maior número de erros para incorreção morfêmica.

5.2.4 Praxia:

A prova de praxia possui quatro subprovas: articulação, língua, lábio e face. A soma dos acertos das subprovas foi considerada para análise desta habilidade, a média obtida foi de 17,15 (DP=3,51). A subprova com menor produção correta foi a articulatória com média 3,31 (DP=2,00) e a com maior número de acertos foi a de lábio com média de 5,42 (DP=0,90).

5.2.5 Inteligibilidade de fala:

A inteligibilidade foi avaliada pela escala SIR, as respostas dos três avaliadores passaram pelo teste de concordância, avaliador 2 e avaliador 3 tiveram um índice Kappa de 0,61 que corresponde a uma concordância substancial, a analise entre os demais avaliadores mostraram concordância moderada (Landis & Koch, 1977).

Para análise de correlação entre as demais variáveis foi considerada a mediana entre os três avaliadores, sete (36,84%) participantes receberam o "índice 4" da escala, cinco (26,32%) participantes "índice 5", quatro (21,05%) participantes o "índice 3", dois (10,53%) o "índice 1" e um (5,26%) o "índice 2" que representam fala ininteligível.

5.2.6 Percepção auditiva da fala:

A pontuação na prova de Delgado Palavras (média=79,86; DP=19,33) foi selecionada para representar o item percepção de fala por ter maior número de participantes que realizou a prova quando comparado com a prova de sentença e por melhor representar os erros obtidos na habilidade de percepção de fala em conjunto aberto quando comparado com a pontuação por fonemas (média=91,87; DP=7,02).

Somente um participante não possui pontuação no teste Delgado, porém este participante possui 93% de acerto na prova de sentenças no ruído mostrando que possui uma habilidade avançada de percepção auditiva.

Ao todo 12 participantes conseguiram realizar a prova de sentenças no silêncio (média=70,5; mín=34; máx=99) e oito participantes conseguiram realizar a prova no ruído (média=66,5; mín=34; máx=99).

5.3 Correlação entre as variáveis (Coeficiente de Spearman)

Os aspectos sociodemográficos foram testados para análise de correlação com as variáveis de percepção auditiva da fala e aspectos formais e de conteúdo. A classe social foi o aspecto com mais correlações sendo elas: percepção auditiva da fala (r=0,499; p=0,035), fonética (r=0,608; p=0,006) e inteligibilidade de fala (r=0,505; p=0,027).

A escolaridade dos pais não apresentou correlação com as demais variáveis de linguagem oral ou percepção auditiva da fala, a idade auditiva teve correlação moderada com a sintaxe (r=0,503; p=0,047) e frequência na terapia fonoaudiológica apresentou correlação positiva e moderada (r=0,557; p=0,013) com o tipo de dispositivo utilizado.

A percepção auditiva da fala também apresentou correlação positiva e moderada (r=0,476; p=0,046) com os dispositivos utilizados, a pontuação foi maior para participantes que usavam IC bilateral do que para indivíduos que usavam AASI bilateral. Também houve correlação positiva e moderada para fonética (r=0,506; p=0,032) e inteligibilidade de fala (r=0,605; p=0,008).

A inteligibilidade de fala apresentou correlações moderadas com a percepção auditiva da fala, vocabulário receptivo e fonética. As habilidades de sintaxe e praxia tiveram correlação com vocabulário receptivo e fonética. A prova de fonética apresentou correlação significativa com todas as variáveis como observado na Tabela 3.

			Percepção auditiva	Sintaxe	Praxia	Inteligibilidade de fala	Vocabulário receptivo
Foné	tica	r	0,506	0,708	0,696	0,663	0,930
		p	0,032	0,002	0,001	0,002	0,000

Tabela 3 – Correlações significativas obtidas pelo Coeficiente de Spearman com a variável fonética.

r= valor de correlação do Coeficiente de Spearman; p= valor de p.

A prova de vocabulário receptivo não apresentou correlação estatisticamente significante somente para percepção auditiva quando considerada a prova de Delgado para analisar essa habilidade, porém, apresentou forte correlação positiva com a prova de sentenças no ruído (r=0,719; p=0,045). As correlações do vocabulário receptivo e as demais variáveis estão representadas na Figura1.

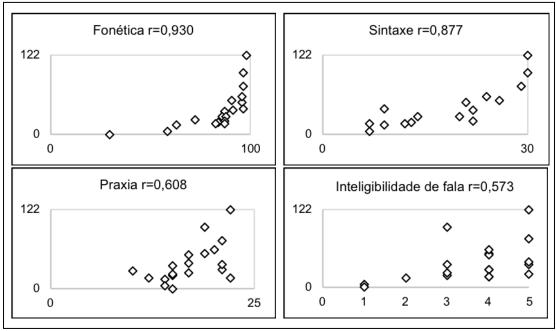


Figura 1- Gráficos de correlações entre vocabulário receptivo (eixo Y) e outras variáveis de linguagem oral (eixo X).

5 .4 Análise entre grupos (Teste Mann-Whitney)

5.4.1 Grupo AASI x Grupo IC:

Não houve diferença estatisticamente significante entre os grupos de crianças quanto aos aspectos sociodemográficos, avaliações de percepção auditiva da fala ou linguagem oral.

Há diferença significante apenas para o processo fonológico de posteriorização para palatal na imitação (p=0,043) e número de distorções na

nomeação (p=0,028), para as duas ocorrências o grupo com AASI apresentou valores maiores do que o grupo com IC.

5.4.2 Grupo AASI x Grupo Controle:

O grupo controle AASI foi composto por 18 crianças pareadas pela idade na avaliação e sexo com o grupo AASI. Análise estatística mostrou que não houve diferença entre os grupos quanto à idade na avaliação (p=0,860) e escolaridade (p=0,980).

O grupo AASI apresentou menor pontuação no teste de vocabulário receptivo (p=0,020), praxia (p=0,031) e pontuação para fonética (p=0,000) quando comparadas às crianças sem queixas.

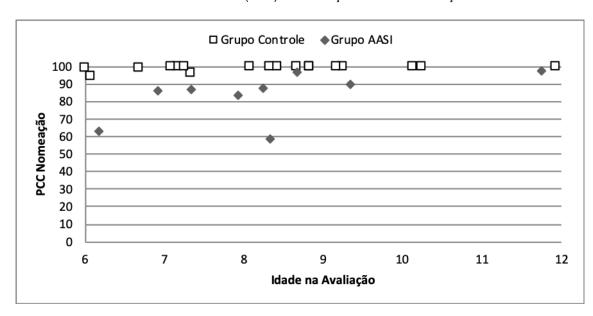


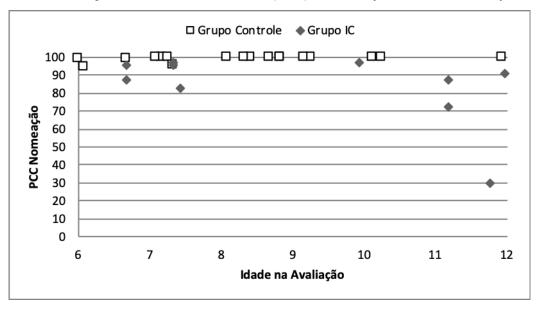
Gráfico 2 – Distribuição dos participantes do grupo AASI e Grupo controle de acordo com a Porcentagem de Consoantes Corretas (PCC) na nomeação e idade na avaliação.

5.4.3 Grupo IC x Grupo Controle:

O grupo controle IC foi composto por 20 crianças pareadas pela idade na avaliação e sexo com o IC. Análise estatística mostrou que não houve diferença entre os grupos quanto à idade na avaliação (p=1,000) e escolaridade (p=0,812).

O grupo IC apresentou menor pontuação no teste de vocabulário receptivo (p=0,000), praxia (p=0,004), sintaxe (p=0,000) e fonética (p=0,000) quando comparadas às crianças sem queixas.

Gráfico 3 – Distribuição dos participantes do grupo IC e Grupo controle de acordo com a Porcentagem de Consoantes Corretas (PCC) na nomeação e idade na avaliação.



6 DISCUSSÃO

O objetivo principal deste trabalho foi caracterizar a linguagem oral de crianças com DENA quanto aos aspectos formais e de conteúdo. Uma das características mais marcantes da DENA é a dificuldade de percepção auditiva no ruído, causada principalmente pela dessincronia neural e consequentemente alteração no processamento temporal que envolve a discriminação dos sons (ZENG; LIU, 2006).

Neste estudo foi avaliada a habilidade de percepção auditiva da fala no silêncio (palavras e sentenças) e no ruído (sentenças) que foram correlacionadas com habilidades referentes aos aspectos formais e de conteúdo da linguagem oral (sintaxe, produção e inteligibilidade de fala e vocabulário receptivo).

Pensando que a DENA traz maior dificuldade na percepção da fala por causa da dessincronia e que o IC pode sobrepor essa dificuldade por estimulação dos eletrodos inseridos na cóclea (KONTORINIS et al., 2014), a hipótese deste estudo era que as crianças com IC teriam melhor desempenho na percepção auditiva e consequentemente melhor desempenho nas habilidades de linguagem.

A análise dos grupos mostrou que não houve diferença estatisticamente significante considerando as habilidades avaliadas e que uma correlação entre percepção auditiva de palavras no silêncio com o tipo de dispositivo utilizado mostrou uma possível tendência de que os indivíduos com implante coclear bilateral podem ter melhor desempenho do que usuários de AASI bilateral. No entanto, por não haver diferença entre os grupos, os resultados mostraram que o dispositivo eletrônico utilizado não foi determinante no desempenho destes indivíduos.

Para alguns autores, a indicação do IC na DENA é controversa, visto que esses indivíduos apresentam etiologias comuns para outras comorbidades que, quando presentes, podem limitar o sucesso do IC (RAJPUT et al., 2019; YAWN; NASSIRI; RIVAS, 2019). Paralelamente, outros estudos mostram que ao avaliar a criança com suas particularidades o IC pode ser benéfico para crianças que não apresentam benefício com o AASI (HOOD, 2015; JI et al., 2015), principalmente quando a cirurgia é realizada antes dos 24 meses (DANESHI et al., 2018; LIU et al., 2014; SHARMA; CARDON, 2015).

Existe um interesse dos pesquisadores em encontrar fatores determinantes para o desenvolvimento de linguagem após a cirurgia. Os fatores podem ser

externos à criança, como a escolaridade materna e o nível socioeconômico (CHING et al., 2013) ou de desenvolvimento global da criança (YANG et al., 2017). O conhecimento de tais fatores podem auxiliar no planejamento terapêutico mais assertivo, com metas terapêuticas ajustadas ao perfil da criança.

Em nosso estudo não foi encontrada correlação entre escolaridade dos pais e desempenho após intervenção, este resultado pode ser justificado por ter sido utilizado a maior escolaridade entre os pais e não a escolaridade da mãe como outros estudos (CUPPLES et al., 2018; HALLIDAY; TUOMAINEN; ROSEN, 2017). No processo terapêutico das crianças com deficiência auditiva o que se espera é que todas as crianças possam ter bom desempenho nas habilidades almejadas independentemente de fatores como escolaridade dos pais e nível socioeconômico. Uma das metas das políticas públicas é que os pacientes tenham igual acesso à intervenção e que esta intervenção possa abarcar todas as camadas sociais e culturais da sociedade, o nível socioeconômico da amostra mostrou ter influência no desempenho de percepção auditiva, produção e inteligibilidade de fala corroborando com os resultados encontrados por Ching e colaboradores (2013).

Embora não se possa afirmar, uma das possibilidades deste resultado é o fato de que a percepção auditiva é totalmente dependente do bom funcionamento do dispositivo eletrônico e muitas vezes os pais apresentam dificuldades financeiras para manter o dispositivo em pleno funcionamento. No Brasil a manutenção dos dispositivos eletrônicos voltados às deficiências auditivas está em fase de implantação. Em especial, no caso dos implantes cocleares a manutenção por meio do Sistema Único de Saúde só foi iniciada a partir da publicação da Portaria GM/MS nº 2.776, de 18 de dezembro de 2014, e esta implantação ainda não foi finalizada em todos os serviços.

Independentemente se há ou não uma deficiência, quando as crianças em geral começam o desenvolvimento da linguagem oral, existe sempre uma expectativa de que a criança com melhor vocabulário apresente também melhor desempenho nas outras habilidades como sintaxe, produção e inteligibilidade de fala por ter um maior repertório linguístico. Isto ocorreu, como pode ser observado pelas correlações encontradas na análise dos resultados deste estudo (Figura 1).

De modo geral o vocabulário receptivo sofre influência do ambiente em que a criança está inserida com exposição à estimulação adequada de linguagem. As

crianças desta pesquisa somaram a exposição natural da linguagem oral à estimulação da linguagem por meio de terapia fonoaudiológica. No presente estudo não foi observada correlação do vocabulário receptivo com frequência na terapia fonoaudiológica ou com percepção auditiva para palavras no silêncio, apenas para sentenças no ruído, ou seja, a criança com DENA que não conseguiu desenvolver a habilidade auditiva mais avançada de fala no ruído apresenta mais dificuldade com o repertório lexical. Essa dificuldade afeta diretamente o desempenho escolar, visto que, em geral, as salas de aula regulares possuem nível de ruído a cima do recomendado para o ambiente escolar (CAMPOS; DELGADO-PINHEIRO, 2014; JAROSZEWSKI; ZEIGELBOIM; LACERDA, 2007).

A percepção auditiva de sentenças também mostrou correlação com a habilidade de julgamento e de correção gramatical. A consciência sintática é uma habilidade pouco estudada em crianças com perda auditiva, mais ainda na população com DENA. Na perda auditiva é esperada uma dificuldade na morfossintaxe além do esperado para a idade em crianças com audição típica e este resultado pode ser justificado por ter outros aspectos da linguagem em defasagem (WERFEL, 2018). Contrário aos achados deste presente estudo, Tomblin e colaboradores (2015) encontraram que a estrutura morfossintática não apresenta correlação com a estrutura lexical e a consciência fonológica.

A produção de fala está diretamente correlacionada com a inteligibilidade de fala da criança com DENA, constatando que quanto mais omissões, substituições e distorções mais difícil será a compreensão da fala desta criança (Tabela 3). Os processos fonológicos encontrados em crianças com perda auditiva mostram que o desenvolvimento da fonologia está atrasado com relação aos pares ouvintes e que a presença de processos fonológicos atípicos (Tabela 2) indica uma inabilidade de gerenciar as regras da fonologia, o que pode trazer influência direta na leitura e na escrita destas crianças (ASAD et al., 2018).

O desenvolvimento fonológico das crianças com perda auditiva pode melhorar com terapia fonoaudiológica e tempo de uso do dispositivo (ZANICHELLI; GIL, 2011). Em crianças com DENA a literatura mostra que a produção de fala está relacionada com a idade da criança e não necessariamente com o tempo de uso do IC, sem descartar o benefício obtido com o uso do AASI (RANCE; BARKER, 2009)

corroborando com os achados deste estudo que não observou correlação entre idade auditiva e PCC.

A fala é afetada pela qualidade do *input* auditivo proporcionado pela amplificação (GAUTAM; NAPLES; ELIADES, 2019), este estudo corrobora com essa afirmação por apresentar correlação entre a percepção auditiva da fala e a inteligibilidade de fala (Tabela 3).

Gallego e colaboradoes (2016) avaliaram a leitura de crianças com implante coclear quanto às estratégias utilizadas de acordo com a idade na cirurgia e concluíram que as crianças com perda auditiva apresentam deficit na compreensão gramatical mesmo quando recebeu IC antes dos 24 meses, a dificuldade é mais acentuada em tarefa que envolve o processamento temporal.

A alteração no processamento temporal encontrado na DENA pode indicar um *input* auditivo inadequado que causa alteração na discriminação dos sons e compromete os outros aspectos da linguagem e do aprendizado. Apeksha e Kumar (2018) realizaram medidas eletrofisiológicas em adultos com DENA e avaliaram a região cerebral estimulada na discriminação de sons de fala comparando-os com adultos com PAS, o resultado mostrou que indivíduos com DENA apresentam menor sensibilidade e reação mais lentificada do que o esperado para normalidade com estimulação mais dorsal e posterior do que o esperado.

A literatura internacional traz estudos com o desenvolvimento da linguagem em crianças com DENA com o objetivo de comparar o desempenho entre os tipos de perda auditiva e mostram que não há diferença entre DENA e PAS quanto ao desempenho de percepção auditiva e linguagem oral, porém, os estudos realizados mundialmente trazem a comparação com avaliações generalizadas das habilidades, principalmente quanto à percepção auditiva que aparece em categorias de audição. Não foi encontrado estudo com o objetivo semelhante ao deste trabalho que é caracterizar a linguagem oral de crianças com DENA e correlacionar os resultados das habilidades específicas da linguagem oral.

Com este trabalho é possível observar que é necessária uma avaliação de habilidades específicas e, sobretudo, avaliação avançada e pormenorizada para determinar a influência de cada uma e então se há diferença entre grupos com diferentes tipos de perda auditiva.

Em resumo, as crianças com DENA usuárias de IC ou de AASI estão com desempenho aquém do esperado para normalidade para a idade cronológica, no entanto não se deve descartar a possibilidade de correlações diferentes entre as crianças com DENA e crianças com PAS. Mais estudos que correlacionem habilidades específicas de linguagem e percepção auditiva auxiliarão a nortear a intervenção destes indivíduos para que alcancem linguagem oral fluente e efetiva para aquisição da leitura e escrita com pleno desenvolvimento e inserção na comunidade.

7 CONCLUSÕES

Crianças com DENA apresentam habilidades de linguagem oral menos desenvolvidas do que seus pares ouvintes, independente do dispositivo eletrônico utilizado. As habilidades de percepção auditiva mostraram correlação com as habilidades de linguagem, principalmente as habilidades avançadas como percepção de fala no ruído. O nível socioeconômico apresentou correlação com aspectos formais da linguagem oral e da percepção auditiva.

As correlações encontradas entre as habilidades permitem nortear a intervenção terapêutica das crianças com DENA por destacarem que o desenvolvimento da percepção auditiva da fala não é o único fator influenciando o desenvolvimento da linguagem oral fluente e efetiva.

REFERÊNCIAS

ALLEN C.; NIKOLOPOULOS T. P.; O'DONOGHUE G. M. Speech intelligibility in children following cochlear implantation. **Am J Otol**, v. 19, n. 6, p. 742-6, nov. 1998.

APEKSHA, K.; KUMAR, U. A. Cortical processing of speech in individuals with auditory neuropathy spectrum disorder. **European Archives of Oto-Rhino-Laryngology**, v. 275, n. 6, p. 1409–1418, 2018.

ASAD, A. N. et al. Phonological processes in the speech of school-age children with hearing loss: Comparisons with children with normal hearing. **Journal of Communication Disorders**, v. 74, n. February 2017, p. 10–22, 2018.

BERLIN, C. I. et al. Multi-site diagnosis and management of 260 patients with auditory neuropathy/dys-synchrony (auditory neuropathy spectrum disorder. **International Journal of Audiology**, v. 49, n. 1, p. 30–43, jan. 2010.

BRASIL. Ministério da Saúde. Portaria GM/MS nº 2.776, de 18 de dezembro de 2014. Brasilia, 2014. Disponivel em:

http://bvsms.saude.gov.br/bvs/saudelegis/gm/2014/prt2776_18_12_2014.html. Acesso em: 25/05/2019.

BRASIL. Lei nº8069, de 13 de julho de 1990. Dispões sobre o Estatuto da Criança e do Adolescente e dá outras providências. **Diário Oficial da União,** Poder Legislativo, Brasília, DF, 16 jul. 1990, Seção 1, p. 18551.

BRENEMAN, A.; GIFFORD, R. H.; DEJONG, M. D. Cochlear Implantation in Children with Auditory Neuropathy Spectrum Disorder: Long Term Outcomes. **J Am Acad Audiol**, v. 23, n. October, p. 5–17, 2012.

BRETANHA, A. C. et al. Perfil pragmático longitudinal de uma criança no espectro da neuropatia auditiva. **Rev Soc Bras Fonoaudiol**, v. 16, n. 2, p. 226–32, 2011. BUDENZ, C. L. et al. Speech and language outcomes of cochlear implantation in children with isolated auditory neuropathy versus cochlear hearing loss. **Otology & Neurotology**, v. 34, p. 1615–21, 2013.

CAMPOS, N. B. DE; DELGADO-PINHEIRO, E. M. C. Análise do ruído e intervenção fonoaudiológica em ambiente escolar: rede privada e pública de ensino regular TT - Noise analysis and intervention in speech school environment: regular private and public schools. **Revista CEFAC**, v. 16, n. 1, p. 83–91, 2014.

CAPOVILLA, F. C.; CAPOVILLA, A. G. S. Prova de Consciência Sintática (PCS) normatizada e validada: Para avaliar a habilidade metassintática de escolares de 1° a 4° séries do Ensino Fundamental. 1. ed. São Paulo: Memmon, 2006.

CHING, T. Y. C. et al. Predicting 3-year outcomes of early-identified children with hearing impairment. **B-ENT**, n. Suppl 21, p. 99–106, 2013.

COSTA, N. T. DE O. et al. Auditory and communicative abilities in the auditory neuropathy spectrum disorder and mutation in the Otoferlin gene: clinical cases study. **Jornal da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v. 24, n. 2, p. 181–187, 2012.

CUPPLES, L. et al. Spoken language and everyday functioning in 5-year-old children using hearing aids or cochlear implants. **International Journal of Audiology**, v. 57, n. SUP2, p. S55–S69, 2018.

DANESHI, A. et al. Cochlear implantation in children with auditory neuropathy spectrum disorder: A multicenter study on auditory performance and speech production outcomes. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v. 108, p. 12–16, 2018.

DELGADO, E. M. C., BEVILACQUA M.C. Lista de palavras como procedimento de avaliação da percepção dos sons da fala para crianças deficientes auditivas. **Prófono Revista de Atualização Científica**, v. 11, n. 1, p. 59-64, 1999.

DUNN, L. M.; PADILLA, E. R.; LUGO, D. E.; DUNN, L. M. Manual del examinador para el Test de Vocabulário en Imágenes Peabody. **Circle Pines: American Guidance Service**, 1986.

GALLEGO, C. et al. Semantic and syntactic reading comprehension strategies used by deaf children with early and late cochlear implantation. **Research in Developmental Disabilities**, v. 49–50, p. 153–170, 2016.

GAUTAM, A.; NAPLES, J. G.; ELIADES, S. J. Control of speech and voice in cochlear implant patients. **Laryngoscope**, v. 00, p. 1–6, 2019.

GEERS, A. Techniques for Assessing Auditory Speech Perception and Lipreading Enhancement in Young Deaf Children. **Volta Review**, v. 96, n. 5, p. 85-96, 1994.

Guidelines: Identification and Management of Infants and Young Children with Auditory Neuropathy Spectrum Disorder. International Newborn Hearing Screening. Como, Itália: The Childrens Hospital - Colorado, 2008

HAGE, S.R.V. Dispraxia articulatória: correlações com o desenvolvimento da linguagem. In: Marchesan I, Zorzi J. **Anuário CEFAC de Fonoaudiologia**. Rio de Janeiro: Revinter, 1999/2000.

HALLIDAY, L. F.; TUOMAINEN, O.; ROSEN, S. Language Development and Impairment in Children With Mild to Moderate Sensorineural Hearing Loss. **Journal of Speech, Language, and Hearing Research**, v. 60, n. 6, p. 1551–1567, 2017.

HOOD, L. J. Auditory Neuropathy/Dys-Synchrony Disorder: Diagnosis and Management. **Otolaryngol Clin N Am**, v. 48, n. 6, p. 1027–1040, 2015.

JAROSZEWSKI, G. C.; ZEIGELBOIM, B. S.; LACERDA, A. Ruído escolar e sua implicação na atividade de ditado. **Revista CEFAC**, v. 9, n. 1, p. 122–132, 2007.

JI, F. et al. Determination of Benefits of Cochlear Implantation in Children with Auditory Neuropathy. **Plos One**, v. 10, n. 5, p. 14, 2015.

KONTORINIS, G. et al. Cochlear implantation in children with auditory neuropathy spectrum disorders. **Cochlear Implants International**, v. 15, n. S1, p. S51–S54, 2014.

LANDIS, J.R.; KOCH, G.G. The measurement of observer agreement for categorical data. **Biometrics**, n. 33, p. 159-174, 1977.

LEPCHA, A. et al. Neurological associations in auditory neuropathy spectrum disorder: Results from a tertiary hospital in South India. **Ann Indian Acad Neurol**, v. 18, n. 2, p. 171–80, 2015.

LIU, Y. et al. Effect of age at cochlear implantation on auditory and speech development of children with auditory neuropathy spectrum disorder. **Auris Nasus Larynx**, v. 41, p. 502–506, 2014.

NIKOLOPOULOS, T. P. Auditory dyssynchrony or auditory neuropathy: Understanding the pathophysiology and exploring methods of treatment. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v. 78, p. 171–173, 2014.

OLIVEIRA ST. Avaliação da percepção da fala utilizando sentenças do dia-a-dia [dissertação]. Sao Paulo: Pontíficia Universidade Católica de São Paulo – Distúrbios da Comunicação; 1992.

PENIDO, R. C.; ISAAC, M. L. Prevalence of auditory neuropathy spectrum disorder in an auditory health care service. **Brazi J Otorhinolaryngol J Otorhinolaryngol**, v. 79, n. 4, p. 429–33, ago. 2013.

RAJPUT, K. et al. Findings from aetiological investigation of Auditory Neuropathy Spectrum Disorder in children referred to cochlear implant programs. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v. 116, n. October 2018, p. 79–83, 2019.

RANCE, G. Auditory neuropathy/dys-synchrony and its perceptual consequences. **Trends in amplification**, v. 9, n. 1, p. 1–43, 2005.

RANCE, G.; BARKER, E. J. Speech and language outcomes in children with auditory neuropathy/dys-synchrony managed with either cochlear implants or hearing aids. **International Journal of Audiology**, v. 48, n. 6, p. 313–320, 2009.

RAVEH, E. et al. Auditory neuropathy: clinical characteristics and therapeutic approach. **American Journal of Otolaryngology–Head and Neck Medicine and Surgery**, v. 28, p. 302–8, 2007.

RIQUE, L. D. et al. Ensino de comportamento verbal por múltiplos exemplares em uma criança com desordem do espectro da neuropatia auditiva: estudo de caso. **Revista CEFAC**, v. 19, n. 2, p. 289–298, 2017.

SCHRAMM, D. R.; HARRISON, R. V. Performance after Cochlear Implantation in Children with Auditory Neuropathy. **Cochlear Implants International**, v. 11, n. Supplement-1, p. 207–212, 2010.

SHARMA, A.; CARDON, G. Cortical development and neuroplasticity in Auditory Neuropathy Spectrum Disorder. **Hearing Research**, v. 330, n. Part B, p. 221–232, 2015.

TOMBLIN, J. B. et al. Language Outcomes in Young Children with Mild to Severe Hearing Loss. **Ear Hear.**, v. 36, n. 0 1, p. 76S-91S, 2015.

UUS, K.; YOUNG, A.; DAY, M. Auditory neuropathy spectrum disorder in the wider health context: Experiences of parents whose infants have been identified through newborn hearing screening programme. **International Journal of Audiology**, v. 51, p. 186–193, 2012.

WERFEL, K. L. Morphosyntax Production of Preschool Children With Hearing Loss: An Evaluation of the Extended Optional Infinitive and Surface Accounts. **Journal of Speech, Language, and Hearing Research**, v. 61, n. 9, p. 2313–2324, 2018.

WERTZNER, H. F. Fonologia (Parte A). In: ANDRADE, C. R. F. et al. **ABFW: Teste de linguagem infantil nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática**. Carapicuibai - SP: Pró-fono, 2000, cap 1, p. 5-40.

YANG, Y. et al. The value of Gesell score in predicting the outcome of cochlear implantation in children. **European Archives of Oto-Rhino-Laryngology**, v. 274, n. 7, p. 2757–2763, 2017.

YAWN, R. J.; NASSIRI, A. M.; RIVAS, A. Auditory Neuropathy: Bridging the Gap Between Hearing Aids and Cochlear Implants. **Otolaryngologic Clinics of North America**, v. 52, n. 2, p. 349–355, 2019.

ZANICHELLI, L.; GIL, D. Porcentagem de Consoantes Corretas (PCC) em crianças com e sem deficiência auditiva. **Jornal da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v. 23, n. 2, p. 107–113, 2011.

ZENG, F.-G.; LIU, S. Speech perception in individuals with auditory neuropathy. **Journal of Speech, Language, and Hearing Research**, v. 49, n. 2, p. 367–380, 2006.

ZORZI, J. L.; HAGE, S.R.V. Desenvolvimento normal da linguagem e de aspectos cognitivos ligados ao simbolismo. In:_____. **PROC – Protocolo de observação comportamental.** São José dos Campos: Pulso; 2004. cap. 4. p. 51-72.

APÊNDICE A - Termo de assentimento do Grupo Experimental

Meu nome é Patricia Dominguez Campos, eu sou fonoaudióloga. Gostaria de te convidar para participar da minha pesquisa Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva, seus pais e/ou responsáveis permitiram que você participasse, mas se você não quiser participar, iremos respeitar sua escolha.

Depois que a pesquisa acabar, os resultados serão informados para você e seus pais, também poderá ser publicada em uma revista, ou livro, ou conferência, etc.

Outras pessoas poderão saber que você está participando de uma pesquisa? Não. As informações sobre você serão coletadas na pesquisa e ninguém, exceto os investigadores poderão ter acesso a elas. Não falaremos que você está na pesquisa com mais ninguém e seu nome não irá aparecer em nenhum lugar.

Você foi escolhido para participar da pesquisa por usar aparelho auditivo e/ou implante coclear e ter a idade entre 6 e 12 anos. Queremos saber como você está falando e conversando depois de usar o implante e/ou aparelho auditivo. Participando dessa pesquisa vai ajudar a entender melhor a linguagem de crianças com neuropatia auditiva e, futuramente, a melhorar a terapia de outras crianças com perda auditiva.

Vou te mostrar algumas figuras e pedir para você me falar o nome delas, depois vou te mostrar quatro figuras e pedir para você me mostrar uma delas, no final vamos conversar um pouco e fazer algumas caretas (figuras). Irei te filmar, mas não se preocupe, eu não vou usar



seu filme fora da minha pesquisa.

O teste durará mais ou menos uma hora e 30 minutos. Caso você fique cansado, podemos parar o teste e continuar em outro momento.

Ninguém ficará bravo ou desapontado com você se você disser não. A escolha é sua. Você pode pensar nisto e falar depois se você quiser. Você pode dizer sim agora e mudar de ideia depois e tudo continuará bem. O seu nome não irá aparecer na pesquisa.

Você concorda?





Acompanhei a explicação que foi feita à criança sobre a pesquisa "Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva" e o(a) mesmo(a) concordou em participar.

Assinatura dos pais/responsáveis:
Assinatura do pesquisador:
Data:/

Pelo

Sr.

APÊNDICE B – Termo de consentimento livre e esclarecido do Grupo Experimental

Convido o menor a participar da pesquisa intitulada "Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva", realizada por Patrícia Dominguez Campos, nº do Conselho: 2-18.287, sob orientação do Dra Adriane Lima Mortari Moret, nº do Conselho: 3941, que tem como objetivo: caracterizar a linguagem oral e a influência na percepção da fala em crianças entre seis e 12 anos, usuários de aparelho de amplificação sonora individual e/ou implante coclear.

Para poder avaliar a linguagem oral serão utilizados testes pedindo que a criança aponte ou nomeie uma figura, repita algumas palavras ditas pelo avaliador, imite alguns movimentos faciais e conte uma história, todos os testes serão aplicados na criança na Seção de Implante Coclear (IC-CPA/HRAC). A aplicação dos testes será filmada (criança sentada, aparecendo o rosto) para posterior análise dos testes, a gravação não será divulgada.

Não haverá reembolso dos custos para deslocamento até o centro onde será realizada a pesquisa. Os testes serão realizados uma única vez (podendo ter intervalos entre os testes), e o tempo aproximado é de uma hora e 30 minutos. Os resultados dos testes de percepção da fala serão coletados em prontuários.

Mesmo com seu consentimento, entregaremos ao menor um termo assentimento, explicando o que e como será realizado os procedimentos e só depois de concordar iniciaremos a pesquisa.

Você tem o direito de retirar sua autorização a qualquer momento e por qualquer motivo sem nenhum risco ou prejuízo a você ou ao participante da pesquisa.

No caso de cansaço da criança a avaliação poderá ser suspensa sem nenhum risco ou prejuízo a você ou ao participante da pesquisa.

Os benefícios esperados estão voltados ao conhecimento da linguagem oral das crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva com relação à percepção auditiva da fala e os fatores que influenciam, contribuindo para o aprimoramento da intervenção especializada para crianças com esse diagnóstico.

Não haverá riscos aos participantes da pesquisa caso não seja alcançado o objetivo da pesquisa. Os pesquisadores garantem indenização aos participantes diante de eventuais danos decorrentes da pesquisa.

Caso seja identificada dificuldades da criança em algum aspecto avaliado pelos testes, esta será encaminhada para avaliação e intervenção na clínica escola de Fonoaudiologia da Faculdade de Odontologia de Bauru.

exigências

legais.

atende

instrumento

Pelo	presente	instrumento	que	atende	às	exigências	legais,	0	Sr.	(a)
portado	or da	cédula d	e ide	ntidade					espon	
por informa	acões const	tantes neste	TERMO	DE CC	NSEN	, a ITIMENTO LI	pós leitura VRE E I			
devidal proced explica pesqui- seu CC de que profiss fim, co exigên	mente explicimentos aos do, firma se sa proposta: DNSENTIME todas as inficional (Cap. l'omo pesqui	cada pelos p s quais será s u CONSENTI . Fica claro qu ENTO LIVRE I formações pre V, Art. 23. do isadora respo	rofissiona Lubmetida MENTO Le o par E ESCLA Estadas to Código donsável	ais em se o, não res LIVRE E l ticipante d ARECIDO ornar-se-ã le Ética da pela peso	eus m stando ESCLA la pes e deix o conf Fono quisa,	ínimos detalhe quaisquer dúv ARECIDO conquisa, pode a car de participa idenciais e gua audiologia (Recomprometodezembro de s	es, ciente vidas a re cordando qualquer ar desta po ardadas po s. CFFa n me a cu	dos em pa mom esquia or for 490, mprir	serviç o do li articipa ento r sa e c ça de : /2016) toda	cos e ido e ar da etirar iente sigilo . Por s as

Por estarmos de acordo com o presente termo elaborado em duas vias, que deverão ser

rubricadas em todas as suas páginas e assinadas, ao se	eu término.	
Bauru, SP, de	de	
Para <u>esclarecimentos de dúvidas</u> sobre a participação <u>n</u> as pesquisadoras:	a pesquisa poderá entrar em contato com	
Nome do Pesquisador Responsável: Patrícia Dominguez Telefone: (14) 99116-6186 / 3232-3955 E-mail: <u>patrícia.</u> Nome do Orientador: Adriane Lima Mortari Moret Telefone: (14) 3235-8332 E-mail: dri.m@fob.usp.br <i>Endereço Institucional</i> : Al. Octávio Pinheiro Brisola, 9-75 Cidade: Bauru Estado: São Paulo CEP: 17012-901	campos@usp.br	Rubrica do Pesquisador Responsável:
Qualquer <u>denúncia e/ou reclamação</u> sobre sua participa este CEP:	ação na pesquisa poderá ser reportada a	orica do Pes
Horário e local de funcionamento: Comitê de Ética em Pesquisa-HRAC-USP, à Rua Silvio 17012-900 - Bauru/SP, de segunda à sexta das 8 às 1 mail: cep@centrinho.usp.br.		Ru
		Rubrica do Responsável pelo menor:
Assinatura do Responsável pelo menor	Patricia Dominguez Campos Pesquisadora Responsável	

APÊNDICE C – Termo de assentimento do Grupo Controle

Meu nome é Patricia Dominguez Campos, eu sou fonoaudióloga. Gostaria de te convidar para participar da minha pesquisa Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva, seus pais e/ou responsáveis permitiram que você participasse, mas se você não quiser participar, iremos respeitar sua escolha.

Depois que a pesquisa acabar, os resultados serão informados para você e seus pais, também poderá ser publicada em uma revista, ou livro, ou conferência, etc.

Outras pessoas poderão saber que você está participando de uma pesquisa? Não. As informações sobre você serão coletadas na pesquisa e ninguém, exceto os investigadores poderão ter acesso a elas. Não falaremos que você está na pesquisa com mais ninguém e seu nome não irá aparecer em nenhum lugar.

Você foi escolhido para participar da pesquisa por ter a idade entre 6 e 12 anos. Queremos saber como você está falando e conversando. Participando dessa pesquisa vai ajudar a fonoaudióloga e seus pais a entenderem melhor como você e outras crianças com perda auditiva parecida estão falando e se comunicando, e, futuramente, a melhorar a terapia das crianças com dificuldade para escutar.

Vou te mostrar algumas figuras e pedir para você me falar o nome delas, depois vou te mostrar quatro figuras e pedir para você me mostrar uma delas, no final vamos conversar um pouco e fazer algumas caretas (figuras). Irei te filmar, mas não se preocupe, eu não vou usar seu filme fora da minha pesquisa.



O teste durará mais ou menos uma hora e 30 minutos. Caso você fique cansado, podemos parar o teste e continuar em outro momento.

Ninguém ficará bravo ou desapontado com você se você disser não. A escolha é sua. Você pode pensar nisto e falar depois se você quiser. Você pode dizer sim agora e mudar de ideia depois e tudo continuará bem. O

seu nome não irá pesquisa.

Você concorda?



aparecer

na

Acompanhei a explicação que foi feita à criança sobre a pesquisa "Caracterização da
linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva" e o(a) mesmo(a)
concordou em participar.
Assinatura dos pais/responsáveis:
Assinatura do pesquisador:
Data:/

APÊNDICE D - Termo de consentimento livre e esclarecido do Grupo Controle

Convido o menor _______ a participar da pesquisa intitulada "Caracterização da linguagem de crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva", realizada por Patrícia Dominguez Campos, nº do Conselho: 2-18.287, sob orientação do Dra Adriane Lima Mortari Moret, nº do Conselho: 3941, que tem como objetivo: caracterizar a linguagem oral e a influência na percepção da fala em crianças entre seis e 12 anos, usuários de aparelho de amplificação sonora individual e/ou implante coclear. A linguagem oral de crianças sem queixas auditivas será avaliada com o intuito de estabelecer uma pontuação comparativa entre os participantes nos testes utilizados.

Para poder avaliar a linguagem oral serão utilizados testes pedindo que a criança aponte ou nomeie uma figura, repita algumas palavras ditas pelo avaliador, imite alguns movimentos faciais e conte uma história, todos os testes serão aplicados na criança na Seção de Implante Coclear (IC-CPA/HRAC). A aplicação dos testes será filmada (criança sentada, aparecendo o rosto) para posterior análise dos testes, a gravação não será divulgada.

Os testes serão realizados uma única vez (podendo ter intervalos entre os testes), e o tempo aproximado é de uma hora e 30 minutos. Os pesquisadores garantem ressarcimento aos participantes para eventuais despesas com alimentação e deslocamento.

Mesmo com seu consentimento, entregaremos ao menor um termo assentimento, explicando o que e como será realizado os procedimentos e só depois de concordar iniciaremos a pesquisa.

Você tem o direito de retirar sua autorização a qualquer momento e por qualquer motivo sem nenhum risco ou prejuízo a você ou ao participante da pesquisa.

Essa pesquisa consiste em avaliação da linguagem, sendo que estudos com essa natureza preveem como possível risco ao participante cansaço durante a aplicação dos testes. Neste caso a avaliação poderá ser suspensa sem nenhum prejuízo a você ou ao participante da pesquisa.

Os benefícios esperados estão voltados ao conhecimento da linguagem oral das crianças com desordem do espectro da neuropatia auditiva com relação à percepção auditiva da fala e os fatores que influenciam, contribuindo para o aprimoramento da intervenção especializada para crianças com esse diagnóstico.

Os pesquisadores garantem a indenização diante de eventuais danos decorrentes da pesquisa.

Caso seja identificada dificuldades da criança em algum aspecto avaliado pelos testes, esta será encaminhada para avaliação e intervenção na clínica escola de Fonoaudiologia da Faculdade de Odontologia de Bauru.

Pelo presente instrumento exigências legais, Sr. que atende às (a) portador da cédula de identidade responsável minuciosa das informações constantes neste TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO, devidamente explicada pelos profissionais em seus mínimos detalhes, ciente dos serviços e procedimentos aos quais será submetido, não restando quaisquer dúvidas a respeito do lido e explicado, firma seu CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO concordando em participar da pesquisa proposta. Fica claro que o participante da pesquisa, pode a qualquer momento retirar seu CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO e deixar de participar desta pesquisa e ciente de que todas as informações prestadas tornar-se-ão confidenciais e guardadas por força de sigilo profissional (Cap. IV,

Rubrica do Pesquisador Responsável:

Rubrica do Responsável pelo menor:

Art. 23. do Código de Ética da Fonoaudiologia (Res. CFFa nº 490/2016). Por fim, como pesquisadora responsável pela pesquisa, comprometo-me a cumprir todas as exigências contidas na resolução do CNS/MS n. 466 de dezembro de 2012, publicada em 13 de junho de 2013.

Por estarmos de acordo com o presente termo elaborado em duas vias, que deverão ser rubricadas em todas as suas páginas e assinadas, ao seu término.

Bauru, SP,	de	de	
Daulu, Ol .	u c	u c	

Para <u>esclarecimentos de dúvidas</u> sobre a participação <u>na pesquisa</u> poderá entrar em contato com as pesquisadoras:

Nome do Pesquisador Responsável: Patrícia Dominguez Campos

Nome do Orientador: Adriane Lima Mortari Moret Telefone: (14) 3235-8332 E-mail: dri.m@fob.usp.br Endereço Institucional: Al. Octávio Pinheiro Brisola, 9-75 Cidade: Bauru Estado: São Paulo CEP: 17012-901

Qualquer <u>denúncia e/ou reclamação</u> sobre sua participação na pesquisa poderá ser reportada a este CEP:

Horário e local de funcionamento:

Comitê de Ética em Pesquisa-HRAC-USP, à Rua Silvio Marchione, 3-20 - Vila Universitária - CEP 17012-900 - Bauru/SP, de segunda à sexta das 8 às 18 h, ou pelo telefone (14) 3235-8421, e-mail: cep@centrinho.usp.br.

Assinatura do Responsável pelo menor Patricia Do

Patricia Dominguez Campos Pesquisadora Responsável