

UNIVERSIDADE DE SÃO PAULO  
HOSPITAL DE REABILITAÇÃO DE ANOMALIAS CRANIOFACIAS

FÁBIO LUIZ BANHARA

**Symptoms of obstructive sleep apnea, nasal obstruction and enuresis: prevalence study in children with Pierre Robin Sequence**

**Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin**

BAURU  
2020



FÁBIO LUIZ BANHARA

**Symptoms of obstructive sleep apnea, nasal obstruction and enuresis: prevalence study in children with Pierre Robin Sequence**

**Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin**

Dissertação constituída por artigo apresentada ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São para obtenção do título de Mestre em Ciências da Reabilitação, na área de concentração Fissuras Orofaciais e Anomalias Relacionadas.

Orientador: Prof. Dr. Sergio Henrique Kiemle Trindade  
“Versão Corrigida”

BAURU  
2020

Banhara, Fábio Luiz

Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin / Fábio Luiz Banhara. -- Bauru, 2020.

90 p. : il. ; 31 cm.

Dissertação (mestrado) -- Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo, 2021.

Orientador: Prof. Dr. Sergio Henrique Kiemle  
Trindade

**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 dissertação/tese, por processos fotocopiadores e outros meios eletrônicos.

Assinatura:

Data:

Comitê de Ética do HRAC-USP  
Protocolo nº: 3.417.073  
Data: 26/06/2019

## ERRATA

<b>Página</b>	<b>Linha</b>	<b>Onde se lê</b>	<b>Leia-se</b>
Pag 23	1	anomalia facial	anomalia craniofacial
Pag 37	7	Von Langenback	Von Langenbeck
Pag 37	9	Von Langenback	Von Langenbeck



## FOLHA DE APROVAÇÃO

**Fábio Luiz Banhara**

Dissertação Apresentada ao Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais Craniofaciais da Universidade de São Paulo para obtenção do título de Mestre em Ciências da Reabilitação. Área de Concentração: Fissuras orofaciais e Anomalias Relacionadas.

Aprovada em:

Banca Examinadora

Prof(a). Dr(a). \_\_\_\_\_

Instituição: \_\_\_\_\_

Prof(a). Dr(a). \_\_\_\_\_

Instituição: \_\_\_\_\_

Prof(a). Dr(a). \_\_\_\_\_

Instituição: \_\_\_\_\_

Prof(a). Dr(a). \_\_\_\_\_

Instituição: \_\_\_\_\_

Prof(a). Dr(a). \_\_\_\_\_

Instituição: \_\_\_\_\_

Profa. Dra. Ivy Kiemle Trindade-Suedam

Presidente da Comissão de Pós-Graduação do HRAC-USP

Data do depósito da Dissertação junto à SPG: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_





## **DEDICATÓRIA**

Aos meus pais, Vanda e Luiz, fontes de inspiração para enfrentar mais este desafio. Ao meu irmão Marcos pelo exemplo de comprometimento e força na busca de excelência na senda da construção do conhecimento científico.



## **AGRADECIMENTOS**

À minha família pelo carinho, paciência, colaboração e incentivo. Agradeço a todos pela compreensão da minha ausência, em diversos momentos. A vocês dedico meu eterno amor, respeito e gratidão por tudo que vocês representam para mim.

À Professora Dra Inge Elly Kiemle Trindade desejo agradecer pelo acolhimento, confiança e valorização do sonho de um jovem em trilhar a senda nobre da construção do conhecimento científico no momento em que diversas portas se fechavam. Nada seria possível sem seu firme, porém zeloso cuidado e amparo. Agradeço pelas críticas, conselhos, paciência, dedicação e extremo profissionalismo.

Ao meu orientador Professor Dr Sergio Henrique Kiemle Trindade pelas orientações, conselhos e críticas sempre pertinentes, bem como, pela disponibilidade e zeloso acompanhamento de todo o processo de pesquisa que resultou no presente trabalho. Agradeço pela paciência, empenho sempre oportuno para que fosse possível a realização desse trabalho.

À Comissão de Pós Graduação do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da USP, na pessoa de sua presidente professora Dra Ivy Kiemle Trindade Suedam, pelo extremo profissionalismo e seriedade no nobre trabalho ao qual se propõem, auxiliando e amparando a realização de pesquisas de grande qualidade.

Aos profissionais do Laboratório de Fisiologia, pelo acolhimento, ensinamentos e colaboração, especialmente a chefe do Laboratório Professora Dra Ana Paula Fukushiro.

Finalmente, agradeço aos Pais e Crianças, essência dessa pesquisa, pela colaboração.



*As convicções são inimigas mais perigosas da verdade do que as mentiras.*

**Friedrich Nietzsche**



## RESUMO

### **Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin.**

**Introdução:** A apneia obstrutiva do sono (AOS) apresenta elevada prevalência na população com Sequência de Pierre Robin não sindrômica (SPRNS). Estudos constataram provável relação entre AOS e obstrução nasal (ON) e entre AOS e enurese, sendo escassa a avaliação da relação entre essas variáveis na população com SPRNS. **Objetivo:** O presente estudo teve por objetivo primário avaliar a relação entre sintomas de AOS, ON e enurese, determinando a prevalência destas condições, em crianças em idade escolar com SPRNS. Os objetivos secundários consistiram em descrever a prevalência de sonolência excessiva diurna (SED), ronco habitual e sintomas de disfunção miccional associados à enurese. **Método:** Estudo prospectivo transversal analítico desenvolvido em centro de referência. Realizou-se aferição antropométrica e entrevista clínica estruturada em amostra de 48 pacientes. Os instrumentos utilizados foram: “Escala de Distúrbios do Sono em Crianças” (EDSC), questionário “Índice de Congestão Nasal” (CQ-5) e questionário “Sistema de Escore de Disfunção Miccional” (SEDM), acrescido de 3 questões sobre frequência e intensidade de enurese. A análise estatística foi realizada para  $p < 0,05$ . **Resultados:** Escores positivos do EDSC para AOS e do CQ-5 para ON foram observados em 38,78% e 16,33%, respectivamente. Enurese foi relatada em 16,33% das crianças sendo caracterizada como enurese primária em 71,43% e polissintomática em 55,55%, conforme SEDM. Observou-se relação significativa entre ON e AOS ( $p < 0,05$ ), porém não significativa entre AOS e enurese, e, ON e enurese. A prevalência de SED foi de 12,24 % e de ronco habitual, de 48,98%. História familiar de enurese, menor idade em anos e escore positivo na escala SEDM foram associados a maior prevalência de enurese ( $p < 0,05$ ). **Conclusão:** Crianças com SPRNS estão sob alto risco para AOS e ronco habitual, tendo sido observada correlação entre ON e AOS. Demonstrou-se, também, que SPRNS, AOS e ON não constituíram fator de risco para enurese na população estudada.

**Palavras Chave:** apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal, enurese, síndrome de Pierre Robin





## ABSTRACT

### **Symptoms of obstructive sleep apnea, nasal obstruction and enuresis: prevalence study in children with Pierre Robin Sequence**

**Introduction:** Obstructive sleep apnea (OSA) is highly prevalent in the population with non-syndromic Pierre Robin Sequence (NSPRS). Studies have found a probable relationship between OSA and nasal obstruction (NO) and between OSA and enuresis, despite this fact, few studies aimed to establish a relationship between these variables in the population with NSPRS. **Objective:** The primary objective of the study was to evaluate the relationship between symptoms of OSA, ON and enuresis, determining the prevalence of these conditions, in school-aged children with NSPRS. The secondary objectives were to describe the prevalence of excessive daytime sleepiness (EDS), habitual snoring and symptoms of voiding dysfunction associated with enuresis. **Method:** Prospective cross-sectional analytical study developed at a reference center. Anthropometric measurements and a structured clinical interview were carried out in a sample of 48 patients. The instruments used were: “Sleep Disorders Scale in Children” (SDSC), “Nasal Congestion Index” questionnaire (CQ-5) and “Dysfunctional Voiding Score System” (DVSS) questionnaire, plus 3 questions about frequency and intensity of enuresis. Statistical analysis was performed for  $p < 0.05$ . **Results:** Positive SDSC scores for OSA and CQ-5 for NO were observed in 38.78% and 16.33%, respectively. Enuresis was reported in 16.33% of children, being characterized as primary enuresis in 71.43% and polysymptomatic in 55.55%, according to DVSS. A significant relationship was observed between NO and OSA ( $p < 0.05$ ), but not significant between OSA and enuresis, and, NO and enuresis. The prevalence of EDS was 12.24% and habitual snoring was 48.98%. Family history of enuresis, younger age in years and positive score on the DVSS scale were associated with a higher prevalence of enuresis ( $p < 0.05$ ). **Conclusion:** Children with NSPRS are at high risk for OSA and habitual snoring, with a correlation between NO and OSA. It was also demonstrated that NSPRS, OSA and NO were not a risk factor for enuresis in the studied population.

**Keywords:** obstructive sleep apnea, nasal obstruction, enuresis, Pierre Robin syndrome



## LISTA DE ABREVIATURA E SIGLAS

AOS	Apneia Obstrutiva do Sono
DRS	Desordens Respiratórias do Sono
EDSC	Escala de distúrbios do Sono em Crianças
CQ-5	Índice de Congestão CQ-5
ON	Obstrução Nasal
PSG	Polissonografia
RH	Ronco Habitual
SAOS	Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono
SED	Sonolência Excessiva Diurna
SEDM	Sistema de Escore de Disfunção Miccional
SPRNS	Sequencia de Pierre Robin não Síndrômica
VAS	Vias Aéreas Superiores



## SUMÁRIO

1	<b>INTRODUÇÃO .....</b>	23
2	<b>OBJETIVOS .....</b>	27
3	<b>ARTIGO.....</b>	31
4	<b>CONCLUSÃO GERAL .....</b>	55
	<b>REFERÊNCIAS.....</b>	59
	<b>APÊNDICE .....</b>	65
	<b>ANEXO.....</b>	81



1

Introdução





## 1 INTRODUÇÃO

A Sequência de Pierre Robin (SPR) é uma anomalia facial congênita caracterizada por micro/retrognatia, glossoptose e obstrução respiratória, estando, na maioria dos casos, associada à fissura de palato, que determina complicações respiratórias e alimentares graves na população acometida<sup>1-5</sup>. Com prevalência que varia entre 1:5.600 até 1:30.000 nascimentos conforme a população estudada<sup>5-7</sup> e mortalidade associada entre 2% a 26%<sup>3,8-12</sup>, possui etiologia pouco clara, sendo considerada o resultado da extrema flexão cervical em direção ao tórax e combinação com fatores ambientais e genéticos entre a 6<sup>a</sup> e a 12<sup>a</sup> semana gestacional<sup>13-17</sup>. Em até 60% dos casos pode estar associada a quadros sindrômicos aumentando a complexidade de seu manejo clínico<sup>6-7,9</sup>.

Anomalias craniofaciais, principalmente as que afetam o terço médio da face e mandíbula, determinam a presença de diversas anormalidades das vias aéreas superiores (VAS) como estreitamento nasofaríngeo e sobrecarga da musculatura orofaríngea causando obstrução e dificuldade respiratória<sup>15</sup>. Especificamente em anormalidades mandibulares, como na SPR, a língua é retroposicionada, levando ao estreitamento da área faríngea e obstrução respiratória mecânica, desencadeando amplo espectro de distúrbios respiratórios relacionados ao sono (DRS), particularmente a apneia obstrutiva do sono (AOS)<sup>14-16</sup>.

A AOS tem como características: episódios frequentes de obstrução parcial ou total das vias aéreas superiores (VAS) durante o sono, levando a episódios de hipoxemia e hipercapnia, bem como despertares frequentes que interferem na qualidade do sono<sup>14</sup>. Recebe a caracterização de síndrome da apneia obstrutiva do sono (SAOS) se estiver associada a sinais e sintomas como ronco, dificuldade respiratória durante o sono, agitação e despertares noturnos frequentes, posição de opistótono ao dormir, sudorese e cefaleia matinal, enurese noturna, sonolência excessiva diurna, hiperatividade, comprometimentos cognitivos e alterações do humor<sup>13,18-20</sup>. A AOS grave associa-se a maior risco para complicações cardiovasculares como aterosclerose, infarto agudo do miocárdio e mortalidade geral<sup>20-21</sup>. Visando a identificação precoce dos Distúrbios Respiratórios do Sono (DRS) e tratamento adequado dessa população, a polissonografia (PSG) é considerada, atualmente, como o padrão ouro no diagnóstico da AOS, sendo amplamente utilizada para esse fim<sup>5</sup>.

Observa-se uma grande propensão de crianças com SPR em desenvolver AOS devido à redução da área faríngea determinada por retração mandibular e retroposicionamento da língua. Tal fato é particularmente observado em casos sindrômicos onde se constata um

maior déficit do tamanho mandibular<sup>5,14-15,22</sup>. Em neonatos com SPR, observa-se uma alta prevalência de problemas respiratórios, estando as taxas de prevalência de AOS entre 46% a 100%, dependendo dos critérios de avaliação<sup>23-25</sup>. Já em indivíduos com SPR e faixa etária entre 1 a 18 anos, Van Lieshout et al, em 2017, observaram prevalência de 22% de AOS indicando-se monitoramento de crianças e adolescentes, que apresentavam dificuldade respiratória e necessitavam de suporte respiratório<sup>5</sup>.

Apesar de ser um ponto controverso estabelecer uma relação de causalidade entre AOS e enurese<sup>26-29</sup>, evidências crescentes sugerem uma relação, ainda pouco elucidada, entre ambas as morbidades<sup>30-32</sup>. A enurese é definida como a perda involuntária e intermitente de urina em um ou mais episódios durante o sono, sendo considerada patológica em crianças acima de 5 anos quando ocorre pelo menos duas vezes em período de até 3 meses<sup>33</sup>. A enurese possui implicações psicossociais sobre as crianças e família levando a prejuízo da autoestima, baixa qualidade do sono, problemas comportamentais, prejuízo do funcionamento familiar, e da qualidade de vida<sup>32, 34-37</sup>.

Apesar da relação entre anomalias craniofaciais e risco de AOS já ter sido identificada<sup>5,23-25</sup>, não se encontrou, até o momento, relação causal clara entre AOS e enurese nessa população, muito embora tenha sido constatada chance 3 vezes maior de crianças com fissura de lábio e/ou palato isolada de apresentarem enurese, quando comparadas a população pediátrica geral<sup>19</sup>.

Por fim, considerando-se que a SPR pode levar à obstrução das vias aéreas superiores e assim predispor a AOS, e, a significativa ocorrência de enurese em indivíduos com DRS, isto aliado à escassez de estudos avaliando a prevalência de AOS e EN na população com SPR entre 6 à 12 anos, o presente estudo tem como objetivos avaliar a prevalência de sintomas de AOS, ON e enurese em uma amostra da população pediátrica de 6 a 12 anos com SPR, tendo por hipótese que a população de crianças com SPR apresenta maior prevalência de sintomas respiratórios e enurese do que a população geral da mesma faixa etária.

2

Objetivo



## **2 OBJETIVO**

O objetivo primário foi identificar a prevalência dos sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese noturna em uma amostra populacional pediátrica de 6 a 12 anos com Sequência de Pierre Robin não-sindrômica, em acompanhamento regular no Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC-USP).

O objetivo secundário consistiu na descrição e análise dos sintomas miccionais associados visando a caracterização da enurese em monossintomática ou polissintomática.



3

---

Artigo





### 3 ARTIGO

O artigo apresentado nesta dissertação foi escrito de acordo com as instruções e guidelines para submissão de artigos da Brazilian Journal of Otorhinolaryngology (BJORL).

#### **Desordens respiratórias do sono, obstrução nasal e enurese em crianças com Sequência de Pierre Robin não sindrômica.**

Fábio Luiz Banhara<sup>b</sup>, Inge Elly Kiemle Trindade, BS, PhD<sup>a-b</sup>, Ivy Kiemle Trindade-Suedam, DDS PhD<sup>a-b</sup>, Marilyse de Bragança Lopes Fernandes, MD, PhD<sup>b</sup>, Sergio Henrique Kiemle Trindade, MD PhD<sup>a-b-c-d</sup>,

a - Universidade de São Paulo (USP), Faculdade de Odontologia de Bauru, Bauru, SP, Brasil.

b - Universidade de São Paulo (USP), Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC), Unidade de Estudos do Sono do Laboratório de Fisiologia, Bauru, SP, Brasil.

c - Universidade de São Paulo (USP), Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais (HRAC), Seção de Otorrinolaringologia, Bauru, SP, Brasil.

d – Universidade Nove de Julho, Curso de Medicina, Campus Bauru, SP, Brasil

Endereço para correspondência

Fábio Luiz Banhara

Laboratório de Fisiologia, Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, USP.

Rua Sílvio Marchione, 3-20 - Vila Nova Cidade Universitária - CEP: 17.012-900 - Bauru-SP

Email: [fabioanhara@usp.br](mailto:fabioanhara@usp.br)

ORCID ID: <https://orcid.org/0000-0001-9429-8298>

Declaração de conflito de interesses:

Nenhum.

### Resumo

**Introdução:** A apneia obstrutiva do sono (AOS) apresenta elevada prevalência na população com Sequência de Pierre Robin não sindrômica (SPRNS). Estudos constataram provável relação entre AOS e obstrução nasal (ON) e entre AOS e enurese, sendo escassa a avaliação da relação entre essas variáveis na população com SPRNS. **Objetivo:** O presente estudo teve por objetivo primário avaliar a relação entre sintomas de AOS, ON e enurese, determinando a prevalência destas condições, em crianças em idade escolar com SPRNS. Os objetivos secundários consistiram em descrever a prevalência de sonolência excessiva diurna (SED), ronco habitual e sintomas de disfunção miccional associados à enurese. **Método:** Estudo prospectivo transversal analítico desenvolvido em centro de referência. Realizou-se aferição antropométrica e entrevista clínica estruturada em amostra de 48 pacientes. Os instrumentos utilizados foram: “Escala de Distúrbios do Sono em Crianças” (EDSC), questionário “Índice de Congestão Nasal” (CQ-5) e questionário “Sistema de Escore de Disfunção Miccional” (SEDM), acrescido de 3 questões sobre frequência e intensidade de enurese. A análise estatística foi realizada para  $p < 0,05$ . **Resultados:** Escores positivos do EDSC para AOS e do CQ-5 para ON foram observados em 38,78% e 16,33%, respectivamente. Enurese foi relatada em 16,33% das crianças sendo caracterizada como enurese primária em 71,43% e polissintomática em 55,55%, conforme SEDM. Observou-se relação significativa entre ON e AOS ( $p < 0,05$ ), porém não significativa entre AOS e enurese, e, ON e enurese. A prevalência de SED foi de 12,24 % e de ronco habitual, de 48,98%. História familiar de enurese, menor idade em anos e escore positivo na escala SEDM foram associados a maior prevalência de enurese ( $p < 0,05$ ). **Conclusão:** Crianças com SPRNS estão sob alto risco para AOS e ronco habitual, tendo sido observada correlação entre ON e AOS. Demonstrou-se, também, que SPRNS, AOS e ON não constituíram fator de risco para enurese na população estudada.

**Palavras Chave:** apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal, enurese, síndrome de Pierre Robin.

## INTRODUÇÃO

A Sequência de Pierre Robin (SPR) é uma anomalia facial congênita caracterizada por micro/retrognatia, glossoptose, estando, na maioria dos casos, associada à fissura de palato. Com prevalência que varia entre 1:5.600 até 1:30.000 nascimentos, a SPR determina dificuldades alimentares graves e complicações respiratórias, possuindo em até 60% dos casos, associação a quadros sindrômicos, aumentando a complexidade de seu manejo clínico<sup>1-2</sup>.

Observa-se uma grande propensão de crianças com SPR em desenvolver desordens respiratórios do sono (DRS) devido à redução da área faríngea determinada por retração mandibular e retroposicionamento da língua<sup>1-3</sup>. Neonatos com SPR apresentam elevada prevalência de apneia obstrutiva do sono (AOS), atingindo 85% no primeiro ano de vida<sup>3</sup>. Em indivíduos com SPR na faixa etária entre 1 a 18 anos, observa-se prevalência de AOS ao redor de 22%, indicando melhora gradual com o passar dos anos, proporcional ao aumento das dimensões faríngeas<sup>1</sup>. Ressalta-se, entretanto, que prevalência encontra-se acima da média identificada em população pediátrica geral que varia entre 5 e 13%<sup>4-5</sup>.

A AOS tem como características: episódios frequentes de obstrução parcial ou total das vias aéreas superiores (VAS) durante o sono, seguidos por hipoxemia e hipercapnia, bem como despertares frequentes que interferem na qualidade do sono<sup>6</sup>. As obstruções respiratórias recorrentes podem ser caracterizadas como Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono (SAOS) se estiverem associadas a sinais e sintomas clínicos como ronco intenso e sonolência excessiva diurna (SED)<sup>7</sup>. A SAOS grave possui importância clínica por associar-se a maior risco para complicações cardiovasculares e mortalidade geral, na idade adulta. Na infância, está relacionada com dificuldades de concentração, irritabilidade e redução do desempenho escolar<sup>6-8</sup>.

Diversos estudos têm indicado uma associação entre obstrução nasal e maior risco de DRS, sendo observada prevalência deste sintoma em até 50% dos pacientes não sindrômicos, diagnosticados com AOS<sup>9-12</sup>. Especula-se que a diminuição fluxo aéreo durante o sono, decorrente de patologias nasais, gere pressões progressivamente mais negativas nas vias áreas superiores (VAS), facilitando o colapso faríngeo, e, por consequência, ronco, apneias obstrutivas, fragmentação do sono e sonolência excessiva diurna<sup>10</sup>. A relação entre a intensidade da obstrução nasal e maior gravidade e ocorrência de AOS, entretanto ainda permanece controversa<sup>13-14</sup>. Os pacientes portadores de fissura de palato apresentam menores dimensões internas nasais e faríngeas, constituindo grupo especial, os pacientes com SPR,

visto que apresentam retrognatia significativa, associada a fissura de palato. Os pacientes com SPR, desta forma, apresentam alterações morfológicas que aumentam o risco de AOS nas diferentes fases da vida<sup>11,15</sup>. Há que se salientar, adicionalmente, que a cirurgia primária corretiva do palato, pode comprometer, ainda mais as dimensões nasais e faríngeas, gerando maior risco para DRS nesta população<sup>6,11,16-17</sup>.

Apesar de controversa, evidências recentes sugerem relação de causalidade entre AOS e enurese<sup>18-19</sup>. A enurese é definida como a perda involuntária e intermitente de urina em um ou mais episódios durante o sono, sendo considerada patológica em crianças acima de 5 anos, quando ocorre pelo menos duas vezes, em período de até 3 meses<sup>11</sup>. A enurese possui implicações psicossociais sobre as crianças e família levando a prejuízo da autoestima e baixa qualidade do sono<sup>18-20</sup>.

Em estudo prévio, demonstrou-se que indivíduos com fissuras labiopalatinas apresentam 3 vezes maior chance de enurese quando comparadas a população pediátrica geral<sup>11</sup>.

Até o presente momento, poucos estudos objetivaram identificar a prevalência e relação entre apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese na população de crianças em idade escolar, com Sequência de Pierre Robin não Síndrômica (SPRNS), assim sendo, o presente estudo teve como objetivo primário avaliar a relação entre sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese noturna, determinando a prevalência destas condições, em pacientes com faixa etária entre 6 a 12 anos com SPRNS. O objetivo secundário consistiu em descrever e analisar de forma complementar os sintomas de sonolência excessiva diurna, ronco habitual e os sintomas miccionais associados à enurese.

## MÉTODOS

Trata-se de um estudo prospectivo transversal analítico realizado em centro XXXX, após aprovação pelo Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do referido centro (parecer 3.417.073, CAE 15544019.8.0000.544).

Os participantes foram recrutados por amostragem de conveniência, quando de seus retornos de rotina, resultando em 48 crianças já submetidas as cirurgias primárias corretivas com idade entre 6 a 12 anos, portadoras de SPRNS.

O cálculo amostral foi realizado considerando-se uma prevalência de DRS de 34%<sup>11</sup>, obtida por meio de questionários aplicados à população com fissura labiopalatina não síndrômica (FLPNS) e em população pediátrica com SPRNS de 43%<sup>21</sup>. Sendo a população

total de crianças com SPR em atendimento regular na instituição quando da realização do presente estudo de 250 crianças, o tamanho amostral resultou em 36 participantes, tendo em vista uma prevalência esperada de 43% de AOS, adotando margem de erro de 15 % e o poder de teste de 80%.

Os critérios de inclusão adotados foram: portadores de SPR não associada a síndromes ou anomalias, faixa etária entre 6 e 12 anos e adesão à pesquisa por meio da assinatura do Termos de Consentimento Livre e Esclarecido pelos pais e Termos de Assentimento Livre e Esclarecido pelas crianças. Foram excluídas da amostra crianças: com síndromes genéticas associadas, submetidas a distração osteogênica da mandíbula ou traqueostomia, com distúrbios ou outras malformações (neurológicas, cardíacas, anorretais, urológicas ou desordens de medula espinhal), em uso crônico de medicações ou uso recente de antibioticoterapia para infecções do trato respiratório superior, com relato de infecção do trato urinário inferior a 12 meses e com evidências de disfunção urinária de causa neurológica.

A coleta de dados foi feita por meio de entrevista clínica estruturada em um único momento, sempre pelo pesquisador responsável, em ambiente privativo, com o participante da pesquisa e seu acompanhante, por ocasião do comparecimento para tratamento clínico ambulatorial de rotina, conforme plano terapêutico estabelecido pelos profissionais da instituição. Inicialmente foram coletados dados referentes ao perfil sociodemográfico, histórico clínico, cirúrgico e realizada aferição antropométrica constando de peso, altura e IMC score  $Z^{22}$ . Os dados foram avaliados tendo como referência os valores propostos pela OMS utilizando-se o software WHO AnthroPlus<sup>23</sup> sendo os participantes classificados conforme o estado nutricional<sup>24</sup>. Adicionalmente, foi avaliada a razão entre circunferência abdominal e altura (CA/A), como critério complementar na avaliação da obesidade e obesidade visceral na população. Considerou-se alto risco para a obesidade visceral uma razão CA/A maior ou igual a 0,5 e baixo risco para obesidade visceral uma razão CA/A menor que 0,5<sup>25</sup>.

Os instrumentos utilizados para avaliação da AOS, obstrução nasal e enurese foram: questionário EDSC-subescala DRS, traduzido e validado para o português para investigação da AOS e ronco habitual, sendo considerado positivos escores iguais ou maiores que 7 para AOS, e, positivos para ronco habitual a resposta ao item 3 da referida subescala, com índice igual ou maior a 3 vezes por semana<sup>26-27</sup>. Para avaliação da sonolência excessiva diurna utilizou-se o questionário EDSC-subescala SED validada para o português, sendo

considerados positivos escores iguais ou maiores que 19<sup>26-27</sup>. Para avaliação da obstrução nasal foi utilizado o questionário CQ5, adaptado para a língua portuguesa e com avaliação estendida em 30 dias, sendo considerados positivos escores iguais ou maiores que 6<sup>11,28-29</sup>. A investigação da enurese e da disfunção do trato urinário inferior foi realizada utilizando-se o questionário Sistema de Escore de Disfunção Miccional (SEDM), adaptado para o português, sendo incluídas 3 questões específicas versando sobre a presença e frequência dos episódios de enurese, conforme estudo realizado por Fernandes et al., 2018<sup>11,30-32</sup>. Foi considerado positivo para enurese, a presença de um ou mais episódios em 3 meses e ao menos um episódio nos últimos 30 dias.

### **Análise estatística**

As variáveis quantitativas foram descritas por medidas de posição e dispersão, como média, mediana, mínima, máxima, intervalo interquartil e desvio padrão. As variáveis qualitativas foram descritas em porcentagem e frequências absolutas. As variáveis quantitativas contínuas de dois subgrupos foram comparadas utilizando-se os testes Mann-Whitney, de acordo com a normalidade das variáveis. O teste Qui-quadrado foi utilizado para determinar valor da dispersão entre variáveis categóricas nominais e avaliar sua associação. As variáveis qualitativas foram comparadas utilizando-se o teste Exato de Fisher. Todas as análises foram realizadas para um nível de significância de 5%.

A prevalência entre estudos foi comparada por meio do teste de comparação de duas proporções, e a razão de prevalência (RP) foi calculada, a qual indica o quanto a prevalência em um estudo é maior do que a de outro (quanto mais distante de 1, maior a diferença entre estudos). Para valores de  $p > 0,05$ , uma razão de prevalência igual a 1 foi inferida.

## **RESULTADOS**

Foram selecionadas, inicialmente, 65 crianças para participação na pesquisa tendo por critérios o agendamento para retorno no período proposto de coleta e serem portadores de SPR não síndrome na faixa etária de 6 a 12 anos, por meio de triagem prévia de prontuários. Destas, 6 crianças foram excluídas da pesquisa por critérios clínicos, 4 recusaram-se a participar da pesquisa e 7 faltaram aos agendamentos previstos, resultando em uma amostra de 48 crianças.

As 48 crianças com SPR não sindrômica que compuseram a amostra apresentaram média de idade de 9,15 (DP  $\pm$ 2,44) anos, prevalecendo a auto definição de cor/raça como branca (n=42, 87,50%) sendo 50% do sexo feminino (n=24). Apenas duas crianças (4,17%) não apresentaram fissura de palato associada à SPR.

Em relação ao histórico cirúrgico, a média de realização de palatoplastia primária em meses foi de 14,28 ( $\pm$ 3,88) e palatoplastia secundária em meses foi de 67,58 ( $\pm$ 43,42). A técnica mais utilizada na palatoplastia primária foi a de Von Langenback (36,96% dos casos), seguida pela técnica de Furlow (34,78%). Já na palatoplastia secundária, a que foram submetidos 12, 25% da amostra, a técnica mais utilizada foi Von Langenback (41,67%). Com relação a adenoidectomia e/ou tonsilectomia, a maioria (85,42%) das crianças avaliadas não foram submetidas a esses procedimentos, sendo que 47,92% realizaram procedimentos de expansão de maxila visando adequação da arcada superior para tratamento ortodôntico.

Quanto a classificação antropométrica e nutricional, a média de IMC escore Z foi de -0,03( $\pm$ 1,20), predominando perfil nutricional eutrófico em 75% das crianças. Adicionalmente, 85,42% dos pacientes apresentaram razão CA/A<0,5, demonstrando baixos índices de obesidade central.

A análise das diferenças entre os grupos com AOS, obstrução nasal e com enurese relativamente às variáveis de sexo, palatoplastia secundária, adenotonsilectomia prévia, IMC escore Z e razão CA/A não demonstrou significância estatística ( $p>0,05$ ) conforme observado na tabela 1. Tal fato confirma a uniformidade da amostra e indica a ausência de influência de características cirúrgicas e antropométricas sobre os resultados avaliados.

Ao avaliar-se os sintomas de AOS e alterações correlacionadas, como sonolência excessiva diurna e ronco habitual, observou-se que, da amostra total, 19 (38,78%) exibiram escores iguais ou superiores a 7 na subescala DRS, indicando alto risco para AOS, observando se uma média de 6,35 (DP  $\pm$ 3,36) variando de 3 a 15 a pontuação. O ronco foi o sintoma mais observado (48,98%, com ronco  $\geq$ 3x/semana) seguido por pausas respiratórias, que foram relatados por 18,75% das crianças e pais ( $\geq$ 1 a 2 x/semana). A subescala SED demonstrou que 6 crianças (12,24%) apresentaram escores positivos para sonolência excessiva diurna (SED $\geq$ 19) com média de 8,58 (DP  $\pm$ 4,88), variando de 5 a 22. A prevalência estimada de AOS foi de 38,78% com intervalo de confiança de 95% (IC 95%) entre 25% e 52%; para ronco habitual foi de 48,98% (IC 95%) entre 34,98% e 62,98% e para SED foi de 12,24% (IC 95%) entre 3,07% e 21,42%. A tabela 2 demonstra os resultados relativos à prevalência de AOS, SED, obstrução nasal (ON) e ronco habitual (RH).

Em relação a ON, o escore médio foi de 3,70 (DP  $\pm 4,72$ ) variando de 0 a 19 no questionário CQ-5. Do total de crianças avaliadas 8 (16,33%) obtiveram escore igual ou superior a 6 (tabela 2). O sintoma mais prevalente foi o de respiração oral (20,83%) seguido pelo de “nariz entupido” (18,75%), sendo a prevalência de ON igual a 16,33%, com intervalo de confiança de 95% entre 5,98% e 26,68%. Quanto à avaliação das variáveis referentes às características da população, a idade (faixa etária de 10 a 12 anos) apresentou relação estatisticamente significativa ( $p=0,009$ ) com a prevalência de ON, sendo que as demais variáveis não apresentaram relação significativa ( $p>0,05$ ) com a idade (Tabela 1).

Em relação à avaliação da enurese e de sintomas de disfunção do trato urinário inferior, observou-se que 8 crianças (16,33%) da amostra total apresentaram enurese, com intervalo de confiança 95% entre 5,98% e 26,68%. Também foi identificado que para sintomas de disfunção do trato urinário inferior a queixa mais frequente foi de adiamento miccional (27,08%) seguido de urgência miccional (17,78%). Enurese foi o quarto sintoma mais comum na amostra total (Tabela 3).

Em relação a avaliação entre os grupos com e sem enurese observou-se relação estatisticamente significativa entre história familiar de enurese ( $p =0,006$ ), menor idade em anos (6 a 7 anos) ( $p=0,035$ ) e escore positivo na escala SEDM ( $p=0,012$ ), estando tais fatores associados a maior prevalência de enurese. Outras variáveis clínicas e características da amostra não apresentaram relação estatisticamente significativa com maior prevalência de enurese ou sintomas de disfunção do trato urinário inferior ( $p>0,05$ ).

Na avaliação da relação entre as variáveis estudadas observou-se relação significativa entre obstrução nasal e AOS ( $p=0,001$ ). Não se observou relação significativa entre AOS e enurese ( $p=0,236$ ) e entre obstrução nasal e enurese ( $p=0,175$ ). Os resultados relativos à comparação das prevalências entre estudos com população de crianças com FLPNS e SPR não sindrômicas podem ser observadas na tabela 4.

## DISCUSSÃO

O presente estudo teve como objetivo avaliar a relação entre sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese noturna determinando a prevalência destas condições em pacientes escolares com SPRNS. Ao avaliar-se as características antropométricas e clínicas da população estudada observou-se o predomínio de crianças classificadas como eutróficas, com ausência de obesidade central, nascidas a termo, estando a maioria sem comorbidades associadas. As comparações entres os grupos, avaliando-se



aspectos como, razão entre CA/A, IMC escore Z, sexo, realização prévia de adenoidectomia e/ou tonsilectomia e presença de palatoplastia secundária mostrou não haver diferença estatisticamente significativa ( $p < 0,05$ ) nos subgrupos com e sem AOS, com e sem obstrução nasal e com e sem sintomas de enurese. Tal achado demonstra ausência de interferência desses fatores sobre os resultados.

Dentre as principais características associadas a maior prevalência de AOS em crianças estão a obesidade, com circunferência abdominal aumentada, prematuridade ao nascer, tonsilas e/ou adenoides aumentadas e sexo masculino<sup>33-36</sup>. No presente estudo, tais variáveis não apresentaram relação significativa com a prevalência de AOS ( $p > 0,05$ ).

A avaliação do histórico cirúrgico demonstrou que 46 crianças da amostra foram submetidas a cirurgias reparadoras primárias do palato e 12 a cirurgias secundárias. Observa-se na literatura que a palatoplastia pode constituir fator de risco para AOS<sup>6-7,36</sup>. Entretanto, no presente estudo não foi observada relação estatisticamente significativa ( $p < 0,05$ ) da realização de palatoplastia secundária, de adenoidectomia e/ou tonsilectomia entre os grupos com e sem apneia, com e sem obstrução nasal e com e sem sintomas de enurese.

Por meio de questionários, o presente estudo avaliou a prevalência dos sintomas de AOS na população de crianças com SPRNS. Foi identificada alta prevalência de sintomas de AOS com associação positiva com obstrução nasal ( $p < 0,05$ ), muito embora a maioria dos casos de apneia não apresentassem obstrução nasal (63,75%) indicando que outro fator pode estar associado à sua causalidade nessa população. Os achados indicaram presença de sintomas de AOS em 38,78% das crianças analisadas, sendo os principais sintomas ronco seguido por relato de pausas respiratórias e dificuldade para respirar incluindo respiração ruidosa e uso de musculatura acessória.

Elevada prevalência de DRS tem sido observada na população com SPR estando muito acima da observada na população pediátrica geral que varia entre 1 a 5%<sup>7</sup>. Estudo realizado por Moraleda-Cibrián et al. (2014), por meio de questionários, demonstrou prevalência de 43% a 48% de DRS em crianças com SPR na faixa etária de 2 a 18 anos<sup>21</sup>. Mais recentemente, Van Lieshout et al. (2017) encontraram, por meio de avaliação polissonográfica, uma prevalência de 22% de AOS na população com SPR sindrômica, na faixa etária de 1 a 18 anos, comparativamente maior que na população estudada com fissuras labiopalatinas não sindrômicas, na qual a prevalência foi de 14,7% a 18%<sup>1,17,21</sup>. Por sua vez, Fernandes et al. (2018) identificaram 34% de prevalência dos sintomas de AOS em população entre 6 e 12 anos com FLPNS, por meio do uso de questionários<sup>11</sup>. Desse modo, observa-se

que as crianças com SPR apresentam maior prevalência de AOS que a população pediátrica em geral e com fissura de lábio e/ou palato não sindrômicas.

A alta prevalência de DRS e, inclusive, a ocorrência de casos graves de AOS entre os pacientes com SPR parece estar relacionada à dimensão mandibular reduzida e à glossoptose associada, condições que contribuem para o estreitamento das VAS<sup>37</sup>. Além disso, a presença da fissura de palato, por si, altera a musculatura palatina prejudicando a permeabilidade das VAS<sup>6,38</sup>. Somam-se os efeitos das cirurgias reparadora que, se por um lado, promovem grande melhora na fala e deglutição, tem o potencial de promover maior estreitamento anatômico da via aérea e possíveis disfunções musculares derivadas do processo cicatricial<sup>6-7,38</sup>.

Adicionalmente, foram avaliados na população de crianças analisada, a presença de ronco habitual (ronco  $\geq 3$  vezes na semana), observando-se prevalência de 48,98 %, e sonolência excessiva diurna (EDSC subescala SED  $\geq 19$ ), com prevalência de 12,5%. Tais variáveis foram analisadas por sua associação, já reconhecida, com a AOS. A alta prevalência de ronco habitual em paciente com SPRNS observada, corrobora os dados de Moraleda-Cibrian 2014 (44%), indicando altos níveis de ronco habitual nessa população, o que constitui fator de risco independente para AOS<sup>21,36</sup>. A avaliação da SED (12,5%) demonstrou uma prevalência inferior ao relatado por Moraleda-Cibrian 2014 (48%)<sup>21</sup>. Apesar do relato de sonolência excessiva diurna associado a DRS ser frequente em populações adultas, esse achado é menos prevalente em populações pediátricas, muito embora considere-se crianças com anomalias craniofaciais mais propensas à SED<sup>21,39</sup>.

Os sintomas de obstrução nasal foram avaliados utilizando-se como instrumento o questionário CQ-5. A prevalência estimada de obstrução nasal na população avaliada, que apresentou unicamente fissura de palato isolada, foi de 16,33%. Estes valores foram inferiores ao encontrado por Fernandes et al., 2018 (26%) ao avaliar crianças com fissura de lábio e palato. Este achado se justifica pelo menor acometimento de estruturas nasais em pacientes com fissura isolada de palato, diferentemente do observado nas fissuras que acometem em conjunto o lábio e palato<sup>11,16</sup>. O sintoma mais prevalente foi o de respiração oral (20,83%) seguido pela sensação de “nariz entupido” (18,75%).

Quanto à avaliação das variáveis referentes às características da população, a idade (faixa etária de 10 a 12 anos) apresentou relação estatisticamente significativa ( $p=0,009$ ) com maior prevalência de obstrução nasal, sendo as demais variáveis sem relação significativa ( $p>0,05$ ). Tal achado pode encontrar-se associado a características da população, como alterações decorrentes do próprio crescimento facial, com conseqüente alterações

estruturais nasossinusais, sendo necessários estudos adicionais para confirmar e elucidar a associação observada.

A relação entre obstrução nasal e AOS é comumente relatada em literatura. A obstrução nasal interfere significativamente no fluxo aéreo durante o sono e prejudica as funções fisiológicas normais da cavidade nasal<sup>10</sup> sendo possível fator primário que conduz ao colapso faríngeo, conforme o modelo do resistor de Starling<sup>40</sup>. Diversos estudos têm indicado uma relação entre obstrução nasal e maior risco de DRS<sup>10,12</sup>. Tem sido relatados, a esse propósito, sinais de obstrução nasal em até 50% dos pacientes diagnosticados com AOS<sup>9</sup>, estando a obstrução nasal associada à maior ocorrência de AOS<sup>13,16</sup>, embora estudo recente de Trindade et al. (2020) não tenha identificado relação entre dimensões nasais (área e volume) e gravidade de AOS<sup>14</sup>.

A avaliação da enurese e de sintomas de disfunção miccional demonstrou uma prevalência estimada de 16,33% na amostra total, sendo caracterizada como frequente em 50% desses casos, predominando a enurese primária (71,43%) e polissintomática (55,55%). Em relação a comparação entre os grupos com e sem enurese observou-se relação estatisticamente significativa entre história familiar de enurese ( $p=0,006$ ), menor idade (0,035) e escore positivo na escala SEDM ( $p=0,012$ ), fatores associados a maior prevalência de enurese<sup>20</sup>. Outras variáveis clínicas e características da amostra não apresentaram relação estatisticamente significativa com maior prevalência de enurese ou sintomas de disfunção do trato urinário inferior ( $p>0,05$ ).

Tais resultados encontram-se em consonância com as prevalências observadas na população pediátrica geral<sup>41</sup> que varia de 1,4% a 28% em crianças de 6 e 12 anos. Ressalta-se que não houve diferença estatisticamente significativa entre a prevalência de enurese observada em crianças com FLPNS e na amostra analisada no presente estudo (Razão de prevalência – RP 1,00,  $p=0,162$ )<sup>11</sup>. Enurese monossintomática foi definida como não associada a sintomas de disfunção do trato urinário inferior e polissintomática como associada a sintomas de disfunção do trato urinário inferior, conforme escore obtido no SEDM<sup>11</sup>.

Na atualidade, tem sido observada uma relação, ainda pouco elucidada, entre apneia obstrutiva do sono e a enurese<sup>42-43</sup> de modo que a correção das causas envolvidas na AOS e sua remissão tendem a melhorar a gravidade e frequência da enurese, embora o mecanismo fisiológico envolvido nessa correlação não esteja totalmente elucidado<sup>44-45</sup>. No presente estudo não foi observado correlação significativa entre AOS e enurese, e SPR como maior risco para enurese. Em contrapartida observou-se correlação significativa entre

obstrução nasal e apneia obstrutiva do sono em consonância com o observado por Fernandes et. al.(2018) em população de crianças com fissura de lábio e palato não sindrômicas<sup>11</sup>.

O ponto de partida do presente estudo foi comparar os dados pesquisados por Fernandes et.al. (2018) em uma população de pacientes com FLPNS, com pacientes com SPRNS. Estes, devido a retração mandibular e glossoptose, apresentam risco aumentado para AOS<sup>21</sup>, sendo hipotetizado que a ocorrência de sintomas associados a AOS seria maior no presente estudo. Entretanto, não foram observadas diferenças estatisticamente significativas da prevalência de AOS (RP 0,49, p=0,703), obstrução nasal (RP 1,00, p=0,871) e enurese (RP 1,00, p=0,162) com os resultados obtidos no estudo de Fernandes et al. (2018)<sup>11</sup>.

Em relação ao ronco habitual em comparação ao supra citado estudo<sup>11</sup> observou-se diferença estatisticamente significativa 48,98% versus 62%, e muito embora tenha sido observado menor porcentagem no presente estudo deve-se ressaltar que o trabalho realizado por Fernandes et al.(2018) apresentava uma amostra 3,5 vezes superior<sup>11</sup>.

O presente estudo apresenta como pontos fortes o número de participantes envolvidos quando comparado a outros trabalhos que avaliaram crianças com SPRNS, a adoção de critérios rígidos de inclusão e a homogeneidade da amostra, permitindo descartar interferência de características antropométricas e cirúrgicas sobre os achados.

Como limitações do presente estudo destaca-se o uso de instrumentos de análise subjetiva (questionários), que embora tenham uso frequente na literatura e confiabilidade teste e re-teste adequadas não se configuram em padrão-ouro para avaliação da AOS e ON<sup>11</sup>. Planeja-se a realização de estudos de avaliação da prevalência e intensidade da AOS por meio de análise polissonográfica.

## CONCLUSÃO

O presente estudo evidenciou elevada prevalência de Apneia Obstrutiva do Sono e ronco habitual na população de crianças em faixa etária escolar com Sequência de Pierre Robin não Sindrômica. Observou-se correlação entre presença de obstrução nasal e Apneia Obstrutiva do Sono. As prevalências de sonolência excessiva diurna, obstrução nasal e enurese não diferiram das encontradas na população pediátrica geral. História familiar de enurese, menor idade e escore positivo na escala Sistema de Escore de Disfunção Miccional foram associados a maior prevalência de enurese. Contrariamente à hipótese inicial, presença de Sequência de Pierre Robin não Sindrômica, apneia obstrutiva do sono e obstrução nasal não constituíram fatores de risco para a ocorrência de enurese na população estudada.

## REFERÊNCIAS

1. Van Lieshout MJS, Joosten KFM, Koudstaal MJ, van der Schroeff MP, Dulfer K, Mathijssen IMJ, Wolvius EB. Management and outcomes of obstructive sleep apnea in children with Robin sequence, a cross-sectional study. *Clin. Oral Investig.* 2017; 21(6):1971–8.
2. Izumi K, Konczal LL, Mitchell AL, Jones MC. Underlying genetic diagnosis of Pierre Robin sequence: retrospective chart review at two children's hospitals and a systematic literature review. *J Pediatr.* 2012; 160:645-50.
3. Daniel M, Bailey S, Walker K, Hensley R, Kol-Castro C, Badawi N, Cheng A, Waters K. Airway, feeding and growth in infants with Robin sequence and sleep apnea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2013;77(4):499-503.
4. Blunden S, Lushington K, Lorenzen B, Ooi T, Fung F, Kennedy D. Are sleep problems under-recognised in general practice? *Arch. Dis. Child.* 2004; 89(8): 708–712.
5. Huang MM, Qian Z, Wang J, Vaughn MG, Lee YL, Dong GH. Validation of the sleep disturbance scale for children and prevalence of parent-reported sleep disorder symptoms in Chinese children. *Sleep Med.* 2014;15(8):923-8.
6. Shadfar S, Drake AF, Vaughn BV, Zdanski CJ. Pediatric Airway Abnormalities Evaluation and Management. *Oral Maxillofac. Surg. Clin. North Am.* 2012; 24(3):325-36.
7. Marcus CL, Brooks LJ, Draper KA, Gozal D, Halbower AC, Jones J, Schechter MS, Sheldon SH, Spruyt K, Ward SD, Lehmann C, Shiffman RN. Diagnosis and Management of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Pediatrics* 2012;130;576.
8. Anandam A, Patil M, Akinnusi M, Jaoude P, El-Solh AA. Mortalidade cardiovascular na apnéia obstrutiva do sono tratada com pressão positiva contínua nas vias aéreas ou aparelho intraoral: um estudo observacional. *Respirologia.* 2013; 18(8):1184-90.

9. Cui DM, Han DM, Nicolas B, Hu CL, Wu J, Su MM. Three-dimensional evaluation of nasal surgery in patients with obstructive sleep apnea. *Chin Med J.* 2016;129: 651–6.
10. Awad MI, Kacker A. Nasal Obstruction Considerations in Sleep Apnea. *Otolaryngol Clin North Am.* 2018;51(5):1003-1009.
11. Fernandes MBL, Salgueiro AGNS, Bighetti EJB, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Symptoms of Obstructive Sleep Apnea, Nasal Obstruction, and Enuresis in Children With Nonsyndromic Cleft Lip and Palate: A Prevalence Study. *Cleft Palate Craniofac. J.* 2018;1:1055665618776074.
12. An Y, Li Y, Kang D, Sharama-Adhikari SK, Xu W, Li Y, Han D. The effects of nasal decongestion on obstructive sleep apnea. *Am. J. Otolaryngol.* 2019;40(1):52-6.
13. Rodrigues MM, Gabrielli MFR, Garcia Junior OA, Pereira Filho VA, Passeri LA. Nasal airway evaluation in obstructive sleep apnoea patients: volumetric tomography and endoscopic findings. *Int. J. Oral Maxillofac. Surg.* 2017;46(10):1284-1290.
14. Trindade SHK, Trindade IEK, Silva ASC, Araujo BMM, Trindade-Suedam IK, Sampaio-teixeira ACM, Weber SAT. Dimensões internas nasais reduzidas constituem fator de risco para síndrome da apneia obstrutiva do sono? *Braz. J. Otorhinolaryngol.* 2020;xxx(xx):xxx-xx
15. Marques IL, de Sousa TV, Carneiro AF, Barbieri MA, Bettiol H, Perreira Gutierrez MR. Clinical experience with infants with Robin sequence: a prospective study. *Cleft Palate Craniofac. J.* 2001;38(2):171–8.
16. Trindade-Suedam IK, Castilho RL, Sampaio-Teixeira AC, Araújo BM, Fukushiro AP, Campos LD, et al. Rapid maxillary expansion increases internal nasal dimensions of children with bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac. J.* 2016;53(3):272-7.
17. Silvestre J, Tahiri Y, Paliga JT, Taylor JÁ. Incidence of positive screening for obstructive sleep apnea in patients with isolated cleft lip and/or palate. *Can. J. Plast. Surg.* 2014; 22(4): 259-63

18. Tsuji S, Takewa R, Ohnuma C, Kimata T, Yamanouchi S, Kaneko K. Nocturnal enuresis and poor sleep quality. *Pediatrics*.2018;60(11):1020–23.
19. Ma J, Li S, Jiang F, Jin X, Zhang Y, Yan C, et al. Relationship between sleep patterns, sleep problems, and childhood enuresis. *Sleep Med*. 2018;50:14-20.
20. Huang HM, Wei J, Sharma S, Bao Y, Li F, Song JW, et al. Prevalence and risk factors of nocturnal enuresis among children ages 5-12 years in Xian, China: a cross sectional study. *BMC pediatrics*. 2020; 20:305
21. Moraleda-Cibrián M, Edwards SP, Kasten SJ, Berger M, Buchman SR, O'Brien LM. Symptoms of Sleep Disordered Breathing in Children with Craniofacial Malformations. *J. Clin. Sleep Med*. 2014;10(3):307–12.
22. Brasil. Ministério da Saúde. Secretaria de Atenção a Saúde. Departamento de Atenção Básica. Orientações para coleta e análise de dados antropométricos em serviços de saúde: norma técnica do sistema de Vigilância Alimentar e Nutricional. Brasília: Ministério da Saúde, 2011.p.76 (Série G. Estatística e Informação em Saúde).
23. World health organization (WHO). Who Anthro and macros, software (version 3.2.2, september 2020). Department of nutrition, World health organization. Geneva, 2020 [cited 2020 november 05]. Available from: <https://who.int/entity/childgrowth/software/en/>
24. Onis M, Onyango AD, Borghi E, Siyan A, Nishida C, Siekmann J. Development of a WHO growth reference for a school-aged children and adolescents. *Bull. World Health Organ*. 2007; 85(9):660-7.
25. Kuba VM, Leone C, Damiani D. Is waist-to-height a useful indicator of cardiometabolic risk in 6-10-year-old children? *BMC pediatrics*.2013;13:91.
26. Bruni O, Ottaviano S, Guidetti V, Romoli M, Innocenzi M, Cortesi F, et al. The Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC). Construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. *J. Sleep. Res*. 1996;5(4):251-61.

27. Ferreira VR, Carvalho LB, Ruotolo F, de Moraes JF, Prado LB, Prado GF. Sleep disturbance scale for children: translation, cultural adaptation, and validation. *Sleep Med.* 2009;10(4):457-63.
28. Stull DE, Meltzer EO, Krouse JH, Roberts L, Kim S, Frank L, et al. The congestion quantifier five-item test for nasal congestion: refinement of the congestion quantifier seven-item test. *Am. J. Rhinol. Allergy.* 2010;24(1):34-8.
29. La Banca RO, Corti ACR, Camelo-Nunes IC, Mallozi MC, Solé D. Índice de congestão nasal (CQ-7) na avaliação da obstrução nasal de crianças e adolescentes com rinite alérgica. *Rev. bras. alerg. imunopatol.* 2011;34(1):19-22.
30. Farhat W, Bägli DJ, Capolicchio G, O'Reilly S, Merguerian PA, Khoury A, et al. The dysfunctional voiding scoring system: quantitative standardization of dysfunctional voiding symptoms in children. *J. Urol.* 2000;164(3 Pt 2):1011-5.
31. Rizzini M, Donatti TL, Bergamaschi DP, Brunken GS. Conceptual, item, and semantic equivalence of the Brazilian version of the Dysfunctional Voiding Scoring System (DVSS) instrument for evaluating lower urinary tract dysfunction in children. *Cad. Saude Publica.* 2009;25(8):1743-55.
32. Calado AA, Araujo EM, Barroso U, Jr, Netto JM, Filho MZ, Jr Macedo A, et al. Cross-cultural adaptation of the dysfunctional voiding score symptom (DVSS) questionnaire for Brazilian children. *Int. Braz. J. Urol.* 2010;36(4):458-63.
33. Chuang HH, Hsu JF, Chuang LP, Chen NH, Huang YS, Li HY, et al. Differences in Anthropometric and Clinical Features among Preschoolers, School-Age Children, and Adolescents with Obstructive Sleep Apnea—A Hospital-Based Study in Taiwan. *Int. J. Environ. Res. Public. Health.* 2020; 17(13): 4663.
34. Di Francesco R, Monteiro R, Paulo ML, Buranello F, Imamura R. Craniofacial morphology and sleep apnea in children with obstructed upper airways: differences between genders. *Sleep Med.* 2012;13(6):616-20.



- 
35. Gaines J, Vgontzas AN, Fernandez-Mendoza J, He F, Calhoun SL, Liao D, et al. Increased inflammation from childhood to adolescence predicts sleep apnea in boys: a preliminary study. *Brain Behav. Immun.* 2017;64:259–65.
36. Xu Z, Wu Y, Tai J, Feng G, Ge W, Zheng L, et al. Risk factors of obstructive sleep apnea syndrome in children. *J. Otolaryngol. Head Neck Surg.* 2020;49:11.
37. Anderson IC, Sedaghat AR, McGinley BM, Redett RJ, Boss EF, Ishman SL. Prevalence and severity of obstructive sleep apnea and snoring in infants with Pierre Robin sequence. *Cleft Palate Craniofac. J.* 2011;48:614e8.
38. Jain S, Bhatt GC, Goya A, Gupta V, Dhingra B. Obstructive Sleep Apnea in Children with Nocturnal Enuresis. *Indian Pediatr.* 2018;55(5):433-34.
39. Brand S, Blechschmidt A, Muller A, Sader R, Schwenger-Zimmerer K, Zeilhofer HF, et al. Psychosocial functioning and sleep patterns in children and adolescents with cleft lip and palate (CLP) compared with healthy controls. *Cleft Palate Craniofac. J.* 2009;46:124-35.
40. Suzuki M, Tanuma T. The effect of nasal and oral breathing on airway collapsibility in patients with obstructive sleep apnea: Computational fluid dynamics analyses. *PLoS One.* 2020; 15(4):e0231262.
41. Alhifthy EH, Habib L, Al-Makarem AA, AlGhamdi M, Alsultan D, Aldhamer F, et al. Prevalence of Nocturnal Enuresis among Saudi Children Population. *Cureus.* 2020; 12(1):e6662.
42. Park S, Lee JM, Sim CS, Kim JG, Nam JG, Lee TH, et al. Impact of adenotonsillectomy on nocturnal enuresis in children with sleep-disordered breathing: a prospective study. *Laryngoscope.* 2016;126:1241–5.

43. Tsai JD, Chen HJ, Ku MS, Chen SM, Hsu CC, Tung MC, et al. Association between allergic disease, sleep-disordered breathing, and childhood nocturnal enuresis: a population-based case-control study. *Pediatr Nephrol.* 2017 ;32(12):2293-2301.

44. Kaya KS, Türk B, Erol ZN, Akova P, Coşkun BU. Pre- and post-operative evaluation of the frequency of nocturnal enuresis and Modified Pediatric Epworth Scale in pediatric obstructive sleep apnea patients. *Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol.* 2018;105:36-39.

45. McInnis RP, Dodds EB, Johnsen J, Auerbach S, Pyatkevich Y. CPAP Treats Enuresis in Adults With Obstructive Sleep Apnea. *J Clin Sleep Med.* 2017; 13(10):1209-12.

**Tabela 1** – Prevalência de apnéia obstrutiva do sono (AOS), obstrução nasal (ON) e enurese na amostras de crianças com Sequência de Robin Não Síndrômica, e variações quanto ao sexo, idade, , realização de palatoplastia secundária, adenoidectomia e/ou tonsilectomia, razão CA/A e IMC escore Z.

Variáveis	Prevalência de Sintomas					
	AOS, n(%)		ON, n(%)		Enurese, n(%)	
	Sim n=19 (38,78)	Não n=29 (61,22)	Sim n=8 (16,33)	Não n=40 (83,67)	Sim n=8 (16,33)	Não n=40 (83,67)
<b>Sexo</b>						
Masculino	12 (63,15)	12 (41,38)	3 (37,50)	21 (52,50)	5 (62,50)	19 (47,50)
Feminino	7 (36,85)	17 (58,62)	5 (62,50)	19 (47,50)	3 (37,50)	21 (52,50)
<b>Idade (anos)<sup>M</sup></b>						
Média ± Dp	9,26 ±2,62	9,07 ±2,36	11,13 ±2,10	8,75 ±2,33	7,50 ±2,00	9,48 ±2,41
Mediana	9,00	9,00	12,00	6,00	6,50	9,50
(Quartis 25 – 75%)	(6,25 – 12,00)	(6,00 – 11,25)	(11,50-12,00)	(6,00 -11,00)	(6,00 – 9,00)	(7,00 – 12,00)
<b>Palatoplastia Secundária<sup>F</sup></b>						
sim	4 (21,06)	8 (27,59)	2 (25,00)	10 (30,00)	3 (37,50)	9 (22,50)
não	15 (78,94)	21 (72,41)	6 (75,00)	28 (70,00)	5 (62,50)	31 (77,50)
<b>A e/ou T prévias<sup>F</sup></b>						
sim	2 (10,53)	5 (17,25)	1 (12,50)	6 (15,00)	3 (37,50)	4 (10,00)
Não	17 (89,47)	24 (82,75)	7 (87,50)	34 (85,00)	5 (62,50)	36 (90,00)
<b>Razão CA/A<sup>F</sup></b>						
<0,5	17 (89,47)	24 (82,75)	7 (87,50)	34 (85,00)	7 (87,50)	34 (85,00)
≥0,5	2 (10,53)	5 (17,25)	1 (12,50)	6 (15,00)	1 (12,50)	6 (15,00)
<b>IMC escore Z<sup>T</sup></b>						
Média ± Dp	-0,01 (±1,03)	-0,04 ±1,32	0,17 (±0,87)	-0,07 ±1,26	0,59(±0,89)	-0,16 ±1,23
Mediana	0,00	-0,09	0,62	-0,09	0,69	-0,11
(Quartis 25 – 75%)	(-0,83 - 0,73)	(-0,71 - 0,71)	(-0,50 - 0,75)	(-0,71 – 0,65)	(0,05 - 1,02)	(-0,95 – 0,59)

X= Teste-X2, F= Teste Exato de Fisher, M= Teste de Mann-Whitney, T =Teste T-Student.

A e/ou T= Adenoidectomia e/ou Tonsilectomia.

CA/A= Razão entre circunferência abdominal e altura.

IMC= Índice de massa corpórea. Resultados expressos em escore Z, de acordo com a Organização Mundial da Saúde para classificação de estado nutricional

**Tabela 2** – Prevalência de sintomas de apneia obstrutiva do sono (AOS), ronco habitual e sonolência excessiva diurna (SED) conforme escore obtido pela aplicação da Escala de Distúrbios do Sono em Crianças (EDSC) da amostra total de crianças com SPR não sindrômica.

Variáveis	Amostra total	IC 95%
<b>EDSC (Subescala DRS)</b>		
Média ± Desvio Padrão	6,35 ±3,36	
Mediana (Quartis 25-75%)	5,5 (4 – 7,5)	
Valor Mínimo – Máximo	3 - 15	
EDSC ≥ 7, n(%)	17 (38,78)	(25,13 - 52,42)
<b>Ronco habitual</b>		
Média ± Desvio Padrão	3 ±1,57	
Mediana (Quartis 25-75%)	2,5 (2 – 5)	
Mínimo - Máximo	1 - 5	
Ronco ≥ 3 vezes na semana, n(%)	24 (48,98)	(34,98 – 62,98)
<b>EDSC (Subescala SED)</b>		
Média ± Desvio Padrão	8,58 ±4,88	
Mediana (Quartis 25-75%)	7 (5 -9,5)	
Mínimo - Máximo	5 - 22	
EDSC ≥ 19, n(%)	6 (12,24%)	(3,07 – 21,42)
<b>CQ-5</b>		
Média ± Desvio Padrão	3,71 ±4,72	
Mediana (Quartis 25-75%)	2 (0 – 5)	
Mínimo-Máximo	0 - 19	
Positivo ≥ 6, n(%)*	8 (16,33)	(5,98 – 26,68)

CQ-5 ≥6 = alto risco de obstrução nasal.

EDSC (DRS) ≥ 7 = alto risco para AOS.

EDSC (SED) ≥ 19 = alto risco para sonolência excessiva diurna.

IC= intervalo de confiança de 95%.

**Tabela 3** – Prevalência de enurese e sintomas de disfunção do trato urinário inferior na amostra de crianças com Sequência de Robin Não Síndrômica, estimados pelo escore obtido no questionário miccional (SEDM modificado).

Variáveis	Amostra total	IC 95%
Enurese*, n(%)	8 (16,33)	(5,98 – 26,68)
Noctúria**	6 (12,5)	
Incontinência urinária diurna, n(%)	5 (10,41)	
Pequeno nº de micções(<3x/dia), n(%)	9 (18,75)	
Adiamento da micção, n(%)	13 (27,08)	
Urgência miccional, n(%)	11 (22,92)	
Esforço para urinar, n(%)	3 (6,25)	
Disúria, n(%)	2 (4,16)	
Não evacua diariamente, n(%)	13 (27,09)	
Esforço para evacuar, n(%)	18 (37,50)	

\* Incontinência urinária durante o sono, com um ou mais episódios por mês, persistindo durante os últimos 3 meses.

\*\* Acordar para urinar durante o sono ( $\geq 1$  vez) mais de duas vezes por semana nos últimos 6 meses.

**Tabela 4** – Comparação das prevalências de apneia obstrutiva do sono (AOS), ronco habitual (RH), sonolência excessiva diurna (SED), obstrução nasal (ON) e enurese obtidas na amostra de crianças com Sequência de Robin Não Sindrômica em estudos da literatura realizados em população com FLPNS e SPR não sindrômicas.

Variáveis	Estudos anteriores				Estudo atual			
	Autores	n (Total)	%	n (total)	%	RP	IC 95%	p
<b>AOS</b>	Moraleda-Cibrian et al., 2014*	37	43	48	38,78	0,92	0,55 – 1,52	0,086
	Silvestre et al., 2014**	489	14,7	48	38,78	2,69	1,79 – 4,05	<b>&lt;0,001</b>
	Fernandes et al., 2018***	174	34	48	38,78	0,49	0,34 – 0,70	0,703
<b>RH</b>	Moraleda-Cibrian et al., 2014	37	44	48	48,98	1,11	0,69 – 1,78	0,889
	Fernandes et al., 2018	174	62	48	48,98	1,57	1,09 – 2,28	<b>0,037</b>
<b>SED</b>	Moraleda-Cibrian et al., 2014	37	48	48	12,5	0,50	0,24 – 1,02	<b>0,013</b>
<b>ON</b>	Fernandes et al., 2018	174	26	48	16,33	1,00	0,49 – 2,04	0,871
<b>Enurese</b>	Fernandes, 2018	174	16,67	48	16,33	1,00	0,49 -2,04	0,162

\* Estudo realizado com crianças com SPR tendo como critério para AOS índice PSQ (pediatric sleep questionnaire)  $\geq 0,33$ .

\*\* Estudo realizado com crianças com FLPNS tendo como critério para AOS índice PSQ (pediatric sleep questionnaire)  $\geq 0,33$ .

\*\*\* Estudo realizado com crianças com FLPNS tendo como critério para AOS índice EDSC  $\geq 7$ .

RP: razão de prevalência.

4

Conclusão

Geral





#### **4 Conclusão Geral**

O presente estudo evidenciou elevada prevalência de Apneia Obstrutiva do Sono e ronco habitual na população de crianças em faixa etária escolar com Sequência de Pierre Robin não Síndrômica. Observou-se correlação entre presença de obstrução nasal e Apneia Obstrutiva do Sono. As prevalências de sonolência excessiva diurna, obstrução nasal e enurese não diferiram das encontradas na população pediátrica geral. História familiar de enurese, menor idade e escore positivo na escala Sistema de Escore de Disfunção Miccional foram associados a maior prevalência de enurese. Contrariamente à hipótese inicial, presença de Sequência de Pierre Robin não Síndrômica, apneia obstrutiva do sono e obstrução nasal não constituíram fatores de risco para a ocorrência de enurese na população estudada



---

# Referências



1. Robin P. La glossoptose. Son diagnostic, ses conséquences, son traitement. *Bull Acad Natl Med.* 1923;89:37–41.
2. Robin P. Glossoptosis due to atresia and hypotrophy of the mandible. *Am J Dis Child.* 1934;48:541–7.
3. Costa MA, Tu MM, Murage KP, Tholpady SS, Engle WA, Flores RL. Robin sequence: mortality, causes of death, and clinical outcomes. *Plast Reconstr Surg.* 2014;134(4):738–45.
4. Paes EC, de Vries IAC, Penris WM, Hanny KH, Lavrijsen SW, van Leerdam EK, Rademaker MM, Veldhoen ES, Eijkemans RMJC, Kon K, Breugem CC. Growth and prevalence of feeding difficulties in children with Robin sequence: a retrospective cohort study. *Clin Oral Investig.* 2017;21(6):2063-76. doi: 10.1007/s00784-016-1996-8.
5. Van Lieshout MJS, Joosten KFM, Koudstaal MJ, van der Schroeff MP, Dulfer K, Mathijssen IMJ, Wolvius EB. Management and outcomes of obstructive sleep apnea in children with Robin sequence, a cross-sectional study. *Clin Oral Investig.* 2017; 21(6):1971–8. doi: 10.1007/s00784-016-1985-y.
6. Izumi K, Konczal LL, Mitchell AL, Jones MC: Underlying genetic diagnosis of Pierre Robin sequence: retrospective chart review at two children’s hospitals and a systematic literature review. *J Pediatr.* 2012;160:645-50.
7. Müller-Hagedorn S, Buchenau W, Arand J, Bacher M, Poets CF. Treatment of infants with Syndromic Robin sequence with modified palatal plates: a minimally invasive treatment option. *Head Face Med.* 2017;13:4.
8. Bush P, Williams A. Incidence of the Robin Anomalad (Pierre Robin syndrome). *Br J Plast Surg.* 1983;36(4):434–37.
9. Caouette-Laberge L, Bayet B, Larocque Y. The Pierre Robin sequence: review of 125 cases and evolution of treatment modalities. *Plast Reconstr Surg.* 1994; 93(5):934–42.
10. Evans AK, Rahbar R, Rogers GF, Mulliken JB, Volk MS. Robin sequence: a retrospective review of 115 patients. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2006; 70(6):973–80.
11. Van Nunen DPF, van den Boogaard M-JH, Don Griot JPW, Ruttermann M, van der Veken LT, Breugem CC. Elevated infant mortality rate among Dutch oral cleft cases: a retrospective analysis from 1997 to 2011. *Front Surg.* 2014;1:48.
12. Logjes RJH, Haasnoot M, Lemmers PMA, Nicolaije MFA, Boogaard MJH, Aebele B, Molen ABM, Breugem CC. Mortality in Robin sequence: identification of risk factors. *Eur J Pediatr.* 2018; 177(5):781-9. doi: 10.1007/s00431-018-3111-4.
13. Bascom A, Penney T, Metclafe M, Knox A, Witmans M, Uweira T, et al. High risk of sleep disordered breathing in the enuresis population. *J. Urol.* 2011; 186(4):1710-3.

14. Shadfar S, Drake AF, Vaughn BV, Zdanski CJ, Pediatric Airway Abnormalities Evaluation and Management. *Oral and maxillofacial surgery clinics of North America*.2012; 24(3):325-36.
15. Cielo CM, Montalva FM, Taylor JA. Craniofacial disorders associated with airway obstruction in the neonate. *Semin Fetal Neonatal Med*. 2016;21(4):254-62. doi: 10.1016/j.siny.2016.03.001.
16. Gungor A. Advanced airway management strategies for severe OSAS and craniofacial anomalies. *Am J Otolaryngol*.2017;38(1):77-81. doi: 10.1016/j.amjoto.2016.09.016.
17. Yang Y, Yuan J, Yao X, Zhang R, Yang H, Zhao R, Guo J, Jin K, Mei H, Luo Y, Zhao L, Tu M, Zhu Y. BMPR1B mutation causes Pierre Robin sequence. *Oncotarget*. 2017;18;8(16):25864-71. doi: 10.18632/oncotarget.16531.
18. Marcus CL, Brooks LJ, Draper KA, Gozal D, Halbower AC, Jones J, Schechter MS, Sheldon SH, Spruyt K, Ward SD, Lehmann C, Shiffman RN. Diagnosis and Management of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Pediatrics* 2012;130;576.
19. Fernandes MBL, Salgueiro AGNS, Bighetti EJB, Trindade-Suedam IK, Trindade IEK. Symptoms of Obstructive Sleep Apnea, Nasal Obstruction, and Enuresis in Children With Nonsyndromic Cleft Lip and Palate: A Prevalence Study. *Cleft Palate Craniofac J*. 2018;1:1055665618776074.
20. Guimarães MLR , Hermont AP , Guimarães TM , Dal-Fabbro C, Bittencourt L , Chaves Junior CM. Severe obstructive sleep apnea treatment with mandibular advancement device: A case report. *Sleep Sci*. 2018;11(2):118–22.
21. Anandam A, Patil M, Akinnusi M, Jaoude P, El-Solh AA. Mortalidade cardiovascular na apnéia obstrutiva do sono tratada com pressão positiva contínua nas vias aéreas ou aparelho intraoral: um estudo observacional. *Respirologia*. 2013; 18(8):1184-90.
22. Jakobsen LP, Knudsen MA, Lespinasse J, et al. The genetic basis of the Pierre Robin sequence. *Cleft Palate Craniofac J*. 2006;43(2):155–9.
23. Wilson AC, Moore DJ, Moore MH, Martin AJ, Staugas REM, Kennedy JD. Late presentation of upper airway obstruction in Pierre Robin sequence. *Arch Dis Child*. 2000; 83(5):435–8. doi:10.1136/adc.83.5.435.
24. Anderson IC, Sedaghat AR, McGinley BM, Redett RJ, Boss EF, Ishman SL. Prevalence and severity of obstructive sleep apnea and snoring in infants with Pierre Robin sequence. *Cleft Palate Craniofac J*. 2011;48:614e8.
25. Daniel M, Bailey S, Walker K, Hensley R, Kol-Castro C, Badawi N, Cheng A, Waters K. Airway, feeding and growth in infants with Robin sequence and sleep apnoea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2013;77(4):499-503.
26. Mikkelsen EJ, Rapoport JL, Nee L, et al. Childhood enuresis. I. Sleep patterns and psychopathology. *Arch Gen Psychiatry* 1980;37:1139e44.

27. Nevéus T, Stenberg A, Läckgren G, et al. Sleep of children with enuresis: a polysomnographic study. *Pediatrics* 1999;103:1193e7.
28. Esposito M, Gallai B, Parisi L, et al. Primary nocturnal enuresis as a risk factor for sleep disorders: an observational questionnaire-based multicenter study. *Neuropsychiatr Dis Treat.*2013;9:437e43.
29. Soster LA, Alves RC, Fagundes SN, Lebl A, Garzon E, Koch VH, Ferri R, Bruni O. Non-REM sleep instability in children with primary monosymptomatic sleep enuresis. *J Clin Sleep Med.* 2017 Oct 15;13(10):1163-1170.
30. Jain S, Bhatt GC, Goya A, Gupta V, Dhingra B. Obstructive Sleep Apnea in Children with Nocturnal Enuresis. *Indian Pediatr.* 2018;55(5):433-34.
31. Ma J, Li S, Jiang F, Jin X, Zhang Y, Yan C, Tian Y, Shen X, Li F. Relationship between sleep patterns, sleep problems, and childhood enuresis. *Sleep Med.* 2018;50:14-20. doi: 10.1016/j.sleep.2018.05.022.
32. Tsuji S, Takewa R, Ohnuma C, Kimata T, Yamanouchi S, Kaneko K. Nocturnal enuresis and poor sleep quality. *Pediatrics International.*2018;60(11):1020–23.
33. Yavuz A, Bayar G, Kilinc MF, Sariogullari U. The Relationship Between Nocturnal Enuresis and Spina Bifida Occulta: A Prospective Controlled Trial. *Urology.* 2018;120:216-21. doi: 10.1016/j.urology.2018.07.038.
34. Elia J, Takeda T, Deberardinis R, Burke J, Accardo J, Ambrosini PJ, Blum NJ, Brown LW, Lantieri F, Berrettini W, Devoto M, Hakonarson H. Nocturnal enuresis: a suggestive endophenotype marker for a subgroup of inattentive attention-deficit/ hyperactivity disorder. *J Pediatr.* 2009;155(22):239-44.e5.doi: 10.1016/j.jpeds.2009.02.031.
35. Ertan P, Yilmaz O, Caglayan M, et al. Relationship of sleep quality and quality of life in children with monosymptomatic enuresis. *Child Care Health Dev* 2009;35(4):469-74.
36. Van Herzele C, De Bruyne P, De Bruyne E, Walle JV. Challenging factors for enuresis treatment: psychological problems and nonadherence. *J Pediatr Urol.* 2015;11(6):308–13. doi: 10.1016/j.jpuro.2015.04.035.
37. Phung P, Kelsberg G, Safranek S. Clinical inquiry: does primary nocturnal enuresis affect children's self-esteem? *J Fam Pract.* 2015;64(4):250–9.
38. Fernandes MBL. Sintomas de Apnéia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com fissura de lábio e palato não sindrômicas [tese]. Bauru: Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais, Universidade de São Paulo;2015





Apêndice(s)



**APÊNDICE A – Ficha Cadastral\***

1. Registro: \_\_\_\_\_ 2. Data do Atendimento: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_\_

3. Nome: \_\_\_\_\_

4. Sexo: F:  M:

5. Data de nascimento: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_\_

6. Idade: \_\_\_\_\_ anos \_\_\_\_\_ meses

7. Grupo Etário:

1) 06a00m a 07a11m

2) 08a00m a 10a11m

3) 11a00m a 12a11m

8. Quem é o Acompanhante:

1) Mãe:  2) Pai:  3) Avô/Avó:  4) Tio/Tia:

5) Outros:

9. Idade da Mãe: \_\_\_\_\_ anos

10. Estudou quantos anos:

1) Analfabeto  2) < 4 anos  3) 4 a 7 anos  4) 8 a 10 anos

5) 11 a 14 anos  6) >14 anos  7) Não sabe

11. Idade do Pai: \_\_\_\_\_ anos

12. Anos de Estudo do Pai :

1) Analfabeto  2) < 4 anos  3) 4 a 7 anos  4) 8 a 10 anos

5) 11 a 14 anos  6) >14 anos  7) Não sabe

**13. Classificação sócio-econômica familiar\*\* :**

- 1) Baixa inferior       2) Baixa superior       3) Média baixa   
4) Média alta       5) Alta

**14. Etnia da Criança (autodeclarada):**

- 1) Branca       2) Preta       3) Parda       4) Indígena   
5) Amarelo       6) Não sabe

**15. Cidade:** \_\_\_\_\_ **Estado:** \_\_\_\_\_

**16. Sequência de Pierre Robin**

- 1) Isolada       2) Síndrômica   
3) Síndrome associada \_\_\_\_\_

**17. Classificação da obstrução respiratória por nasofaringoscopia:**

- 1) Tipo 1       2) Tipo 2   
3) Tipo 3       4) Tipo 4

**18. Técnicas para liberação de VAS:**

- 1) Intubação nasofaríngea :       2) Traqueostomia:   
3) Distração osteogênica mandibular:   
3) Tempo de uso: \_\_\_\_\_

**19. Correção Primária da Fissura:**

- 1) Sim       2) Não

**20. Cirurgia nasal:**

- 1) Sim       2) Não       Tipo: \_\_\_\_\_

**21. Seu (a) filho (a) já teve infecção urinária?**

- 1) Sim       2) Não

**22. Comprovada por urocultura?**

- 1) Sim       2) Não       3) Não sabe

**23. Quantas vezes?**

## Apêndice

- 1) 1X                       2) 2x                       3) 3x ou mais

**24. Idade da primeira infecção urinária**

- 1) <6 meses                       2) 6 a 24 meses                       3) > 24 a 48 meses   
 4) > 48 meses                       5) Não sabe

**25. Quando foi a última ITU?**

- 1) < 1 mes                       2) 1 a 6 meses                       3) 7 a 12 meses   
 4) > 12 meses

**26. Idade gestacional (SIC):**

- 1) >37 semanas                       2) 36s6d a 35s (limítrofe)   
 3) 34s6d a 30s (moderado)                       4) <30s (extremo)   
 5) > 40 semanas

**27. Seu (a) Filho (a) tem ou teve alguma doença?**

- 1) Não                       2) Síndrome genética                       3) Rins   
 4) Bexiga                       5) Malform. Genital                       6) Defeito Coluna   
 7) Mielomeningocele                       8) Dça. Neurológica                       9) PCR   
 10) Doença Intestino/anus                       11) Asma   
 12) Rinossinusite aguda recorrente (>4 episód/ano duração < 6 sem/cada)   
 13) Rinossinusite crônica persistente(> 12 sem/cada)   
 14) Outras

**28. Medicações usadas nos últimos 30 dias:**

\_\_\_\_\_

\_\_\_\_\_

**29. Outras cirurgias realizadas (exceto cranifacial e ortognática):** \_\_\_\_\_

\_\_\_\_\_

\* Ficha cadastral adaptada da Tese de Doutorado de Fernandes 2015.

\*\* dados de avaliação sócio-econômica retirados do prontuário do paciente anteriormente coletados por profissionais da instituição com base no instrumento proposto por Graciano et al 2015.

**APENDICE B – Dados antropométricos e análise de prontuário**

1. Peso: \_\_\_\_\_ Kg.

2. Altura: \_\_\_\_\_ cm.

3. Circunferência abdominal (CA): \_\_\_\_\_ cm.

4. CA/A: 1)  $\geq 0,5$   2)  $< 0,5$  5. IMC: \_\_\_\_\_ Kg/m<sup>2</sup>**6. IMC Escore Z**1) -3  2) -2  3) -1  4) 0  5) +1  6) +2 **7. IMC Escore P:**1) P0,1  2) P3  3) P5  4) P10  5) P15 6) P50  7) P85  8) P97  9) P99,9 **8. Classificação IMC/Idade/sexo\*:**

- 1) Magreza acentuada ( $<P0,1/ <Z -3$ )
- 2) Magreza ( $\geq P0,1$  e  $<P 3/ \geq Z -3$  e  $< Z -2$ )
- 3) Eutrofia ( $\geq P3$  e  $\leq P85/ \geq Z -2$  e  $< Z+1$ )
- 4) Sobrepeso ( $> P85$  e  $\leq P97/ \geq Z+1$  e  $< Z +2$ )
- 5) Obesidade ( $>P97$  e  $\leq P99,9/ \geq Z +2$  e  $\leq Z +3$ )
- 6) Obesidade grave ( $> P99,9/ > Z+3$ )

**9. Cirurgia Primária de Palato: Idade \_\_\_\_\_**

- 1) FURLOW  2) VON LANGENBACK  3) SOMMERLAD
- 4) Não descrito  5) Outras:  \_\_\_\_\_

**10. Cirurgia secundária de Palato** Idade: \_\_\_\_\_

- 1) FURLOW       2) VON LANGENBACK       3) SOMMERLAD   
4) Não descrito       5) Outras:  \_\_\_\_\_

**11. Amigdalectomia:**

- 1) Não Fez       2) 3 a 5 anos       3) 6 a 9 anos       4) 9 a 12 anos

**12. Adenoidectomia:**

- 1) Não Fez       2) 3 a 5 anos       3) 6 a 9 anos       4) 9 a 12 anos

**13. Faringoplastia:**

- 1) Não Fez       2) 3 a 5 anos       3) 6 a 9 anos       4) 9 a 12 anos

**14. Enxerto ósseo alveolar:**

- 1) Não Fez       2) 3 a 5 anos       3) 6 a 9 anos       4) 9 a 12 anos

**15. Distração osteogênica mandibular:**

- 1) Não Fez       2) 3 a 5 anos       3) 6 a 9 anos       4) 9 a 12 anos

**16. ODONTO - Usa ou usou:**

- 1) Aparelho fixo   
2) Hyrax ou Haas   
3) Aparelho removível   
4) ERM   
5) Máscara facial

**APENDICE C – Avaliação complementar de obstrução nasal**

1. Quem respondeu as perguntas?

- 1) Criança                       2) Acompanhante                       3) Ambos

2. Respirador oral diurno?

- 1) Sim                                       2) Não

3. Qual a frequêncial?

- 1) Nunca  
 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)  
 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)  
 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)  
 5) Sempre (todos os dias)

4. Respirador oral noturno?

- 1) Sim                                       2) Não

5. –Qual a frequência?

- 1) Nunca  
 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)  
 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)  
 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)  
 5) Sempre (todos os dias)



**APÊNDICE D - Termo de Consentimento Livre e Esclarecido**

Gostaríamos, por meio deste termo de consentimento, convidar o Senhor (a) e seu filho (a) para participar da pesquisa chamada: **“Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin”** realizada por Fábio Luiz Banhara, enfermeiro (COREN503556) e mestrando em Ciências da Reabilitação pelo HRAC-USP sob orientação de Profa. Dra. Inge Elly Kiemle Trindade (CRBM1-2081). O objetivo dessa pesquisa é estudar os sintomas relacionados à dificuldade para respirar durante o sono, dificuldade em respirar pelo nariz e perda de urina na roupa e na cama durante a noite, visando identificar a frequência com que esses sintomas estão presentes em crianças de 6 a 12 anos com Sequência de Pierre Robin (SPR). Sua participação e de seu filho (a) se iniciará após assinatura deste Termo de Consentimento pelo senhor (a) e adesão livre de seu filho (a) por meio do Termo de Assentimento que estará anexado a este documento. Ressalto que só realizaremos a inclusão de seu filho (a) na pesquisa se ele aceitar livremente.

A sua participação e de seu filho (a) consistirá em responder questionários específicos que identificam casos de dificuldade em respirar durante o sono, obstrução nasal e perda de urina involuntária durante a noite. Também serão realizadas medições corporais do peso, altura e circunferência abdominal. As entrevistas serão realizadas em sala individualizada com a sua presença e de seu filho (a) por, aproximadamente 30 minutos. Também será realizada a busca de informações no prontuário de seu filho (a) para identificarmos tratamentos e cirurgias realizadas, bem como resultados de exames laboratoriais e de imagem realizados, que podem ser usados para fins científicos, motivo pelo qual solicitamos, também, a assinatura do “Termo de Permissão para Uso de Registros para Fins Científicos”

Os riscos previstos são mínimos, estando relacionados à possível presença de algum constrangimento do entrevistado ao relatar a presença de sintomas desagradáveis, ou à lembrança de sentimentos negativos experimentados com os sintomas. Nesse caso, para amenizar esse desconforto, a entrevista poderá ser interrompida por alguns minutos até que a criança se sinta mais confortável. O pesquisador estará aberto para deixar que a criança expresse livremente seus sentimentos. A pesquisa tem como benefício auxiliar os clínicos a identificar as necessidades clínicas das crianças com SPR em geral e indicar novos tratamentos, para a melhoria da qualidade de vida desta população.

Não será realizado reembolso ou pagamento em dinheiro para despesas de transporte, alimentação ou hospedagem, pois você estará participando da pesquisa durante os retornos de rotina de seu filho (a) no Hospital. Em caso de danos decorrentes da pesquisa, o senhor (a) e seu filho (a) tem direito à assistência integral e gratuita, pelo tempo que for necessário, além do direito à indenização.

Rubricas:

Participante da pesquisa e/ou responsável legal:

Pesquisador Responsável:

Uma via deste Termo de Consentimento e do Termo de Assentimento será guardada no Laboratório de Fisiologia e outra via será entregue a você. Na divulgação dos resultados, sua identidade e a de seu filho (a) serão mantidas em sigilo. Estará disponível na Biblioteca da Faculdade de Odontologia de Bauru (FOB) uma cópia da pesquisa para consulta pública, a qual poderá ser publicada em revista científica.

Qualquer dúvida poderá ser esclarecida pessoalmente no endereço Rua Silvio Marchione, 3-20 pelo pesquisador responsável, pelo e-mail [fabioanhara@usp.br](mailto:fabioanhara@usp.br) ou pelo telefone (14) 3235-8137. Caso você queira apresentar reclamações em relação a sua participação na pesquisa, poderá entrar em contato com o Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do HRAC-USP, pelo endereço Rua Silvio Marchione, 3-20 no serviço de Apoio ao Ensino, Pesquisa e Extensão ou pelo telefone (14) 3235-8421, de 2ª a 6ª feira, no horário das 8:00 às 18:00 horas. O Comitê de Ética em Pesquisa (CEP) é um órgão colegiado independente, representado por várias áreas do conhecimento, e que existe nas instituições que realizam pesquisa envolvendo seres humanos no Brasil e tem por objetivo proteger os participantes de pesquisa, sua integridade e dignidade, e assegurar que as pesquisas sejam desenvolvidas dentro de padrões éticos (Resolução nº 466/12 Conselho Nacional de Saúde)

Você e seu filho (a) podem a qualquer momento retirar seu CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO e deixar de participar desta pesquisa sem qualquer prejuízo para o tratamento de seu filho (a), ciente de que todas as informações prestadas serão confidenciais e guardadas sob sigilo profissional (Art. 82 do Código de Ética de Enfermagem). Como pesquisador responsável comprometo-me a cumprir todas as exigências contidas no item IV.3 da resolução CNS/MS n. 466 de dezembro de 2012, publicada em 13 de junho de 2013.

***Pelo presente instrumento, que atende as exigências legais, declaro que foi realizada leitura detalhada deste documento, devidamente explicado pelos pesquisadores em seus mínimos detalhes, estou ciente dos serviços e procedimentos aos quais serei submetido, não restando quaisquer dúvidas a respeito do lido e explicado.***

Eu \_\_\_\_\_,  
portador da cédula de identidade \_\_\_\_\_, após leitura das informações neste TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO, concordo em participar da pesquisa, permito a participação de meu filho (a) e assino este documento em duas vias, sendo que uma via ficará comigo e outra com o pesquisador.

Bauru, SP, \_\_\_\_\_ de \_\_\_\_\_ de \_\_\_\_\_.

\_\_\_\_\_  
Assinatura do Responsável pelo Participante da Pesquisa

\_\_\_\_\_  
Assinatura Pesquisador Responsável

**APÊNDICE E – Termo de Assentimento Livre e Esclarecido (6 a 9 anos)**

Meu nome é FÁBIO LUIZ BANHARA, sou enfermeiro, estou realizando uma pesquisa junto ao LABORATÓRIO DE FISIOLOGIA do CENTRINHO- HRAC-USP onde você realiza parte de seu tratamento e estou te convidando para participar da nossa pesquisa. Nosso objetivo é observar quantas crianças com Sequência de Pierre Robin, como você, que fizeram cirurgia para fechar o céu da boca, possuem dificuldade de respirar enquanto dormem, nariz entupido e, que, algumas vezes fazem xixi na cama e na roupa sem querer.

Vamos pedir a você que responda perguntas junto com seu pai ou mãe para identificar se você tem esses problemas. As perguntas que farei a você serão feitas em uma sala onde só estarão você, seu pai ou mãe e eu. A entrevista terá duração de, no máximo, 30 minutos. Durante a entrevista vou medir sua altura, peso e largura da barriga. Também vou procurar no seu prontuário as cirurgias, os exames e todos os tratamentos que foram feitos com você. O seu prontuário é o livro onde tudo o que você fez de tratamento aqui no Centrinho está anotado.

A vantagem de participar da pesquisa é para que todos os médicos e profissionais do “Centrinho” saibam se todas as crianças com Sequência de Pierre Robin tem esses problemas para dormir e respirar, para que possam cuidar melhor de você e de outras crianças como você. Sabemos que você pode sentir vergonha de responder alguma pergunta ou ficar triste lembrando de algum momento ruim que você passou enquanto dormia, de não respirar bem pelo nariz ou de fazer xixi durante a noite sem querer. Nesse caso, podemos interromper por alguns minutos a entrevista, para que você possa pensar sobre a pergunta, falar livremente sobre seus sentimentos sobre o assunto, e decidir se quer continuar com a entrevista.

Você pode escolher se quer participar da pesquisa ou não e ninguém vai ficar bravo ou triste com você se não quiser participar. Conversamos com seus pais sobre esta pesquisa e eles sabem que estamos perguntando se você quer ou não participar. Se você não quiser, vamos respeitar sua vontade, mesmo que seus pais tenham permitido sua participação. Você pode desistir em qualquer momento de participar sem nenhum problema para você ou seus pais.

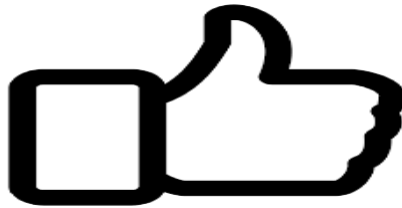
Rubricas:

Participante da pesquisa e/ou responsável legal:

Só os pesquisadores, seus pais e você saberão o que foi respondido. Não falaremos isso com mais ninguém e não será revelado seu nome ou nada que possa identificar você. Depois que a pesquisa terminar os resultados serão informados para você e seus pais, e, poderão ser publicados em uma revista científica para que muitas crianças possam ser ajudadas.

Qualquer dúvida, você poderá saber a resposta aqui no Centrinho (HRAC-USP) no endereço Rua Silvio Marchione, 3-20 com o pesquisador responsável, ou pedir para seu pai ou mãe usar o e-mail [fabioanhara@usp.br](mailto:fabioanhara@usp.br) ou o telefone (14) 3235-8137. Seu pai ou mãe podem, também, responder suas dúvidas ou podem pedir para que o pesquisador explique tudo novamente.

Faça uma marca no desenho se concordar em participar



Certifico que acompanhei a explicação que foi feita à criança sobre a pesquisa e que o (a) mesmo (a) concordou em participar.

Data \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_

\_\_\_\_\_  
Assinatura do Participante da Pesquisa

\_\_\_\_\_  
Assinatura do pai, mãe ou responsável:

\_\_\_\_\_  
Assinatura do pesquisador:

**APÊNDICE F – Termo de Assentimento Livre e Esclarecido (10 a 12 anos)**

Meu nome é FÁBIO LUIZ BANHARA, sou enfermeiro e estou realizando uma pesquisa no LABORATÓRIO DE FSIOLOGIA do CENTRINHO – HRAC-USP onde você realiza parte de seu tratamento. Nosso objetivo é observar quantas crianças com Sequência de Pierre Robin (SPR), como você, que fizeram cirurgia para fechar o céu da boca, possuem dificuldade de respirar durante o sono, sintomas de nariz entupido e perda de urina na cama e na roupa durante a noite.

Vamos pedir a você que responda perguntas junto com seu pai ou mãe para identificar se você possui alguma alteração no sono ou se urina sem querer durante a noite. A entrevista será feita em uma sala onde só estarão você, seu pai ou mãe e eu. A entrevista terá a duração de, no máximo, 30 minutos. Durante a entrevista vou medir sua altura, peso e circunferência da barriga. Também vou verificar no seu prontuário as cirurgias, os exames e os tratamentos feitos com você. O Prontuário seu é onde tudo que você fez de tratamento aqui no Centrinho está anotado.

A vantagem de participar da pesquisa é que você nos ajudará a conhecer como esses sintomas afetam crianças com Sequência de Pierre Robin e a orientar o tratamento de outras crianças como você. Existe o risco de você ficar com vergonha de responder alguma coisa ou ficar triste lembrando de algum momento ruim que você passou durante o sono ou por urinar durante a noite sem querer. Nesse caso, vamos interromper a entrevista por alguns minutos e você poderá falar livremente sobre seus sentimentos com o pesquisador, e decidir se quer continuar com a entrevista.

Por isso tudo, estou convidando você a participar desta pesquisa. Você pode escolher se quer participar ou não e ninguém vai ficar bravo ou triste se você não quiser participar. Conversamos com seus pais sobre essa pesquisa e eles sabem que estamos perguntando se você quer ou não participar. Se você não quiser, respeitaremos sua vontade mesmo que seus pais tenham permitido sua participação. Você pode desistir de participar a qualquer momento sem nenhum problema pra você ou seus pais.

Rubricas:

Participante da pesquisa e/ou responsável legal:

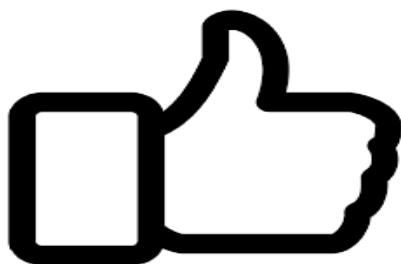
\_\_\_\_\_

Pesquisador Responsável:

Só os pesquisadores, seus pais e você saberão o que foi respondido. Não falaremos isso com mais ninguém e não será revelado seu nome ou nada que possa identificar você. Depois que a pesquisa terminar os resultados serão informados para você e a seus pais, e, poderão ser publicados em revista científica para que muitas pessoas, como você, possam ser beneficiadas.

Qualquer dúvida, você poderá saber a resposta aqui no Centrinho (HRAC-USP) no endereço Rua Silvio Marchione nº 3-20, pelo pesquisador responsável, pelo e-mail [fabioanhara@usp.br](mailto:fabioanhara@usp.br) ou pelo telefone (14) 3235-8137. Seu pai ou mãe também podem responder as suas dúvidas ou podem pedir para que o pesquisador explique o que for preciso.

Faça uma marca no desenho se concordar em participar:



Certifico que acompanhei a explicação que foi feita à criança sobre a pesquisa e que o (a) mesmo (a) concordou em participar.

Data \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_

\_\_\_\_\_  
Assinatura da criança:

\_\_\_\_\_  
Assinatura do pai, mãe ou responsável:

\_\_\_\_\_  
Assinatura do pesquisador:

## APÊNDICE G: TERMO DE PERMISSÃO PARA USO DE REGISTROS PARA FINS CIENTÍFICOS

### Identificação da pesquisa:

- a) Título do Projeto: Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin.
- b) Pesquisador Responsável: Fábio Luiz Banhara (Coren 503556 – Enfermeiro)
- c) Curso/Área/Instituição: Mestrado em Ciências da Reabilitação – HRAC - USP

Eu, \_\_\_\_\_, brasileiro, residente no endereço \_\_\_\_\_, na cidade de \_\_\_\_\_ - \_\_\_\_\_, RG nº \_\_\_\_\_, CPF nº \_\_\_\_\_ responsável legal pelo paciente \_\_\_\_\_, permito que o pesquisador acima utilize meus registros **fotográficos, radiográficos, tomográficos e respectivos laudos odontológicos e médicos, vídeo imagens, registros clínicos, imagens de órgãos e espécimes para fins científicos** especificamente relacionados ao projeto de pesquisa acima identificado. Estou ciente de que não receberei nenhum ressarcimento ou pagamento pelo uso de meus registros e que poderei ser reconhecido (a) por terceiros.

Este consentimento pode ser revogado, sem qualquer ônus ou prejuízo à minha pessoa, a meu pedido, desde que a revogação ocorra antes da publicação.

Estou ciente de que, caso não aceite assinar este termo, receberei dos profissionais citados acima a mesma qualidade de atendimento e tratamento.

\_\_\_\_\_, \_\_\_\_\_ de \_\_\_\_\_ de 20\_\_\_\_.

Assinatura: \_\_\_\_\_

Nome do Participante ou responsável: \_\_\_\_\_

O pesquisador se compromete a manter a confidencialidade sobre os dados coletados, bem como a privacidade de seus conteúdos, preservando integralmente o anonimato e resguardando o sigilo das informações pessoais do participante da pesquisa.

Assinatura do Pesquisador Responsável: \_\_\_\_\_





---

Anexo(s)



**ANEXO A – Escala de Distúrbios do Sono em Crianças (EDSC)\*****Subescala DRS**

13. A criança não respira bem durante o sono:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

14. A criança para de respirar por alguns instantes durante o sono:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

15. A criança ronca:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

---

The Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) abreviada, elaborada por Bruni et al (1996), submetida a tradução, adaptação transcultural e validação para a língua portuguesa por Ferreira et al (2009) denominada de EDSC (Escala de Distúrbios do Sono em Crianças).

**ANEXO B –Escala de Distúrbios do Sono em Crianças (EDSC)\*****Subescala SED**

22. A criança tem dificuldade em acordar pela manhã:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

23. Acorda cansada, pela manhã:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

24. Ao acordar a criança não consegue movimentar-se ou fica como se estivesse paralisada por uns minutos:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

25. A criança sente-se sonolenta durante o dia:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

26. Durante o dia a criança adormece em situações inesperadas sem avisar:

- 1) Nunca
- 2) Ocasionalmente (1 a 2 vezes por mês)
- 3) Algumas vezes (1 a 2 vezes por semana)
- 4) Quase sempre (3 a 5 vezes por semana)
- 5) Sempre (todos os dias)

**Anexo C – Questionário de Congestão Nasal (CQ-5)\***

1. Com que frequência a criança teve o nariz obstruído ou entupido? (nos últimos 30 dias)

- 1)  Nunca ou ocasionalmente (1 ou 2 vezes por mês)
- 2)  1 a 2 vezes por semana
- 3)  3 a 4 vezes por semana
- 4)  5 a 6 vezes por semana
- 5)  Mais de 6 vezes na semana

2. Com que frequência a criança teve que respirar pela boca por não conseguir respirar pelo nariz? (nos últimos 30 dias)

- 1)  Nunca ou ocasionalmente (1 ou 2 vezes por mês)
- 2)  1 a 2 vezes por semana
- 3)  3 a 4 vezes por semana
- 4)  5 a 6 vezes por semana
- 5)  Mais de 6 vezes na semana

3. Com que frequência teve dificuldade para deixar o nariz completamente limpo mesmo após assuá-lo várias vezes? (nos últimos 30 dias)

- 1)  Nunca ou ocasionalmente (1 ou 2 vezes por mês)
- 2)  1 a 2 vezes por semana
- 3)  3 a 4 vezes por semana
- 4)  5 a 6 vezes por semana
- 5)  Mais de 6 vezes na semana

4. Com que frequência a criança acordou pela manhã com obstrução nasal? (nos últimos 30 dias)

- 1)  Nunca ou ocasionalmente (1 ou 2 vezes por mês)
- 2)  1 a 2 vezes por semana
- 3)  3 a 4 vezes por semana
- 4)  5 a 6 vezes por semana
- 5)  Mais de 6 vezes na semana

5. Com que frequência a criança teve o sono afetado pela obstrução nasal ?

- 1)  Nunca ou ocasionalmente (1 ou 2 vezes por mês)
- 2)  1 a 2 vezes por semana
- 3)  3 a 4 vezes por semana
- 4)  5 a 6 vezes por semana
- 5)  Mais de 6 vezes na semana

**Escore Final:**

- 1)   $\geq 6$  Positivo
- 2)   $\leq 6$  negativo

---

\*Índice de congestão nasal CQ5 (Stull et al., 2010), traduzido e validado para língua portuguesa (La Banca et al., 2011)

**Anexo D- Questionário de avaliação de disfunção do trato urinário inferior****Perguntar para a criança e o acompanhante**

<b><u>Durante os últimos 30 dias</u></b>	<b>Quase nunca (1 a 2 x/mês)</b>	<b>Menos que a metade do tempo (1 a 2 x/semana)</b>	<b>Mais ou menos a metade do tempo (3 a 4 x/semana)</b>	<b>Quase todo Tempo (5 a 7 x/semana)</b>
1. (nome da criança) tem molhado de xixi a roupa durante o dia?	0	1	2	3
2. Quando (nome da criança) se molha de xixi, a cueca ou calcinha fica ensopada?	0	1	2	3
3. Acontece de (nome da criança) não fazer cocô todos os dias? Com que frequência?	0	1	2	3
4. (Nome da criança) tem que fazer força para fazer cocô?	0	1	2	3
5. Acontece de (nome da criança) só ir ao banheiro fazer xixi uma ou duas vezes por dia? Com que frequência isso ocorre?	0	1	2	3
6. (Nome da criança) segura o xixi cruzando as pernas, agachando ou dançando? Quando da vontade de fazer xixi, você tenta segurar agachando, cruzando as pernas ou dançando?	0	1	2	3
7. Quando da vontade de fazer xixi, você (nome da Criança) tem que ir ao banheiro rápido?	0	1	2	3
8. (Nome da criança) tem que fazer força pra fazer xixi?	0	1	2	3
9. (Nome da criança) sentiu dor quando fez xixi nos últimos 30 dias? Doi quando faz xixi?	0	1	2	3
10. (nome da criança) passou por alguma situação de muito estresse nos últimos 30 dias? (mudança de casa, problemas escolares, separação dos pais)	Não (0)		Sim (3)	
11. Escore DVSS				
12. (Nome da criança) fez xixi na cama/ roupa enquanto dormia a noite nos últimos 30 dias?	não		sim	
13. Enurese	não		sim	

Escala Miccional retirado do trabalho de Fernandes 2015 modificado a partir da escala Disfuncional Voiding Scoring System (Farhat et al 2000). Adaptado para língua portuguesa por Rizzini et al (2009) e Calado et al (2010). O critério de presença de disfunção do trato urinário inferior em meninas foi o escore maior que 6 e em meninos o escore maior que 9.



### Anex E – Questionário de avaliação miccional complementar

1. Frequência de enurese nos últimos 30 dias:

- |  |  |
|--|--|
| <input type="checkbox"/> 1) 1 a 3x/mês     | <input type="checkbox"/> 4) 5 a 7 x/semana   |
| <input type="checkbox"/> 2) 1 a 2 x/semana | <input type="checkbox"/> 5) Não sabe relatar |
| <input type="checkbox"/> 3) 3 a 4x/semana  | <input type="checkbox"/> 6) Nenhuma vez      |

2. Em média quantas vezes nos últimos 3 meses, o seu filho(a) fez xixi na cama?

- |  |   |
|--|---|
| <input type="checkbox"/> 1) 1 a 3x/mês     | <input type="checkbox"/> 5) >1x todas as noites |
| <input type="checkbox"/> 2) 1 a 2 x/semana | <input type="checkbox"/> 6) Não sabe relatar    |
| <input type="checkbox"/> 3) 3 a 4x/semana  | <input type="checkbox"/> 7) Nenhuma vez         |
| <input type="checkbox"/> 4) 5 a 7 x/semana |   |

3. Quem respondeu as perguntas?

- 1) Criança       2) Acompanhante       3) Ambos

4. O seu filho(a) acorda para ir ao banheiro urinar durante a noite?

- 1) Nunca  
 2) Ocasionalmente(1 a 2x/mês)  
 3) Algumas vezes(1 a 2x/semana)  
 4) Quase sempre(3 a 5x /semana)  
 5) Sempre(todos os dias)

5. Quantas vezes por noite?

- 1) 1x       2) 2x       3) 3x       4) >3x       5) Nenhuma

6. Já fez alguma tratamento para a enurese ou os sintomas urinários?

- |   |  |
|---|--|
| <input type="checkbox"/> 1) Não                     | <input type="checkbox"/> 2) Mudanças comportamentais |
| <input type="checkbox"/> 3) Brometo de Propantelina | <input type="checkbox"/> 4) Oxibutinina              |
| <input type="checkbox"/> 5) Imipramina              | <input type="checkbox"/> 6) Ddavp                    |
| <input type="checkbox"/> 7) Alarme miccional        | <input type="checkbox"/> 8) Homeopatia               |
| <input type="checkbox"/> 9) Fisioterapia            | <input type="checkbox"/> 10) Ignorado                |

7. Resolução da enurese?

- 1) Total       2) Parcial       3) Não

8. Historia familiar de enurese: Quem na família fez ou ainda faz xixi na cama após os cinco anos?

- |  |  |
|--|--|
| <input type="checkbox"/> 1) Não                    | <input type="checkbox"/> 2) Desconhece                   |
| <input type="checkbox"/> 3) Pai                    | <input type="checkbox"/> 4) Mãe                          |
| <input type="checkbox"/> 5) Irmão                  | <input type="checkbox"/> 6) Irmã                         |
| <input type="checkbox"/> 7) Pai e Mãe              | <input type="checkbox"/> 8) Um dos pais e um(a) irmão(ã) |
| <input type="checkbox"/> 9) Mais de um(a) irmão(ã) |  |

9. Usa medicação para Transtorno com Deficit de Atenção e Hiperatividade (TDAH)?

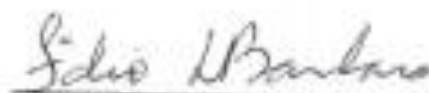
**ANEXO F – Declaração de uso exclusivo de artigo a ser publicado em periódico de língua portuguesa**

**DECLARAÇÃO DE USO EXCLUSIVO DE ARTIGO EM DISSERTAÇÃO/TESE**

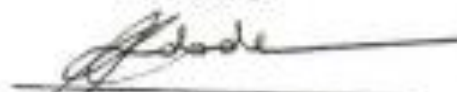
Declaramos estarmos cientes de que o trabalho "Sintomas de apneia obstrutiva do sono, obstrução nasal e enurese: estudo de prevalência em crianças com Sequência de Pierre Robin" será apresentado na Dissertação do aluno Fábio Luiz Banhara e que não foi e nem será utilizado em outra dissertação/tese dos Programas de Pós-Graduação da FOB-USP.

Bauru, 10 de Novembro 2020.


Fábio Luiz Banhara  
Nome do autor

  
Assinatura

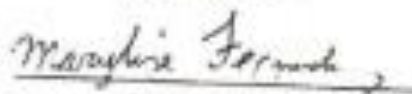
Inge Elly Kiemle Trindade  
Nome do autor

  
Assinatura

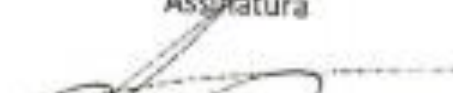
Ivy Kiemle Trindade Suedam  
Nome do autor

  
Assinatura

Marylise de Bragança Fernandes  
Nome do autor

  
Assinatura

Sergio Henrique Kiemle Trindade  
Nome do autor

  
Assinatura

**ANEXO G-** Declaração de uso exclusivo de artigo a ser publicado em periódico de língua portuguesa (versão em Inglês).

<b>DECLARATION OF EXCLUSIVE USE OF THE ARTICLE IN DISSERTATION/THESIS</b>	
We hereby declare that we are aware of the article "Symptoms of obstructive sleep apnea, nasal obstruction and enuresis: prevalence study in children with Pierre Robin Sequence" will be included in Dissertation of the student Fábio Luiz banhara was not used and may not be used in other works of Graduate Programs at the Bauru School of Dentistry, University of São Paulo.	
Bauru, 10 de November 2020.	
Fábio Luiz Banhara Author	 Signature
Inge Elly Kiemle Trindade Author	 Signature
Ivy Kiemle Trindade Author	 Signature
Marysle de Bragança Fernandes Author	 Signature
Sergio Henrique Kiemle Trindade Author	 Signature

