

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ

ANA PAULA DASSIE LEITE

**AVALIAÇÃO VOCAL E FONOLÓGICA DE CRIANÇAS
COM HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO**

CURITIBA

2014

ANA PAULA DASSIE LEITE

**AVALIAÇÃO VOCAL E FONOLÓGICA DE CRIANÇAS
COM HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO**

Tese apresentada ao Programa de Pós-Graduação em Saúde da Criança e do Adolescente, Setor de Ciências da Saúde, Universidade Federal do Paraná como requisito parcial à obtenção do grau de Doutor em Saúde da Criança e do Adolescente, Área de Concentração em Fonoaudiologia Pediátrica.

**Orientador: Prof. Dr. Luiz de Lacerda Filho
Coorientadora: Prof.^a Dr.^a Mara Behlau**

CURITIBA

2014

*Às crianças com hipotireoidismo congênito,
que aprendem desde tão cedo a importância
de cuidarem da própria saúde;*

*Aos familiares, principalmente às mães que,
muitas vezes diante de tantas adversidades,
colocam a saúde e a felicidade dos filhos
como sua maior prioridade.*

AGRADECIMENTOS

Ao Professor Dr. Luiz de Lacerda Filho, grande exemplo de médico, professor e orientador; uma das pessoas mais sábias com quem tive o prazer de conviver. Pelo entusiasmo e incentivo em cada uma das etapas deste trabalho, pelo respeito e valorização à Fonoaudiologia, pelos tantos momentos de reflexão conjunta sobre a pesquisa e sobre a vida.

À Professora Dr.^a Mara Behlau, um dos maiores orgulhos da Fonoaudiologia brasileira, minha grande mentora, minha inspiração. Alguém que transformou minha vida profissional e pessoal e me fez enxergar muito além do que achei que pudesse. Tê-la na minha trajetória é um dos maiores presentes que ganhei na vida!

Ao Dr. Elmar Allen Fugmann e equipe, pela acolhida no Serviço de Endoscopia PerOral (EPO/HC/UFPR), pela realização das avaliações laringológicas e pelas ricas discussões a respeito dos distúrbios vocais;

Às professoras Dr.^a Vânia Oliveira de Carvalho e Dr.^a Marizilda Martins, pela autorização da coleta de dados nas dependências dos serviços de Dermatologia Pediátrica e Puericultura;

À Viviane dos Reis Drapier, diretora da creche Pipa Encantada/HC/UFPR, pela autorização e auxílio durante a coleta nas dependências da instituição;

Ao fonoaudiólogo e amigo Felipe Moreti, profissional de quem tenho muito orgulho e admiração, pelo auxílio, de forma tão especial, em várias das etapas deste trabalho;

Aos fonoaudiólogos Dr.^a Aline Wolf, Ms. Livia Ribeiro, Ms. Felipe Moreti, Dr.^a Rosiane Yamazaki, Dr.^a Glaucya Madazio e Esp. Cláudia Pacheco, pela competência com que realizaram a exaustiva análise perceptivo-auditiva das vozes;

Ao Prof. Dr. Marcelo de Oliveira Rosa, pelo auxílio na edição e calibração das amostras vocais e pelas grandes orientações a respeito da análise acústica da voz;

À professora Dr.^a Mônica Nunes Lima, grande estudiosa da Bioestatística, por fazer com que um tema complexo seja aprendido de forma prazerosa e por todas as horas de orientações durante a elaboração dos resultados desta tese;

À fonoaudióloga Dr.^a Juliana Gândara, pelas importantes orientações e discussões relacionadas à avaliação fonológica infantil;

À psicóloga Julita Maria Pelaez, pela disponibilização dos dados e pelas orientações acerca das avaliações neuropsicológicas;

Às professoras das bancas de qualificação - Dr.^a Julienne Ângela Ramires de Carvalho, Dr.^a Mônica Nunes Lima e Ms. Eliane Cristina Pereira, e defesa – Dr.^a Suzana Nesi-França, Dr.^a Maria Rita Pimenta Rolim, Dr.^a Rita de Cássia Tonocchi e Dr.^a Michelle Ferreira Guimarães, pelo aceite e pelas contribuições ao aprimoramento do trabalho;

À coordenadora do ambulatório de Hipotireoidismo Congênito da UEP/HC/UFPR, Dr.^a Suzana Nesi-França, pelo zelo com que o conduz, e pelo auxílio no delineamento do estudo, na análise de dados e no fornecimento de informações atualizadas sobre o tema;

Às professoras Dr.^a Rosana Marques Pereira e Dr.^a Mônica Nunes Lima, pelo auxílio enquanto coordenadoras do Programa de Pós-Graduação em Saúde da Criança e do Adolescente;

À Clara Lara Freitas, secretária do programa de Pós-Graduação em Saúde da Criança e do Adolescente, pelo auxílio durante todo o período de doutoramento;

À equipe de funcionárias da UEP, em especial às secretárias Neusa Luz e Vera Dias, pela contribuição na seleção dos sujeitos e organização dos atendimentos;

Aos colegas da pós-graduação, em especial à amiga Monica Muñoz, que dividiu comigo grande parte do período de doutoramento, pela parceria profissional e pelo companheirismo semanal.

À representante discente do Programa de Pós-Graduação em Saúde da Criança e do Adolescente, Marilza Modesto, pela amizade e pelo trabalho realizado em benefício dos alunos.

À Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal e Nível Superior (CAPES), pela concessão da bolsa de estudos durante o período de doutoramento;

À Universidade Estadual do Centro-Oeste/UNICENTRO, pela concessão de afastamento para capacitação docente;

A toda a minha família, em especial aos meus amados pais, Walter Ferreira Leite e Laide Dassie Leite, meus maiores exemplos de honestidade e dedicação incondicional. Por acreditarem em mim, incentivarem e apoiarem minhas escolhas, vibrarem com minhas conquistas e por todos os esforços que fizeram para que eu pudesse chegar até aqui.

Ao Lucas, meu esposo e meu grande amor, pelo companheirismo diário, pela parceira em todas as áreas da nossa vida, por todos os sonhos construídos juntos e pelo apoio durante o período de realização deste trabalho.

*Por vezes sentimos que aquilo que fazemos
não é senão uma gota de água no mar. Mas
o mar seria menor se lhe faltasse uma gota.*

Madre Tereza de Calcutá

RESUMO

O Hipotireoidismo Congênito (HC) é a segunda doença endócrina crônica mais comum na infância. Apesar dos avanços dos Programas de Triagem Neonatal, a falta de hormônios tireoidianos (HT) intraútero pode acarretar pequenos *déficits* do desenvolvimento neuropsicomotor. Quanto à voz, embora o choro rouco seja um dos principais sinais clínicos ao nascimento, não há evidências sobre sua persistência ou não durante a infância. O objetivo deste trabalho foi avaliar as características vocais e fonológicas de crianças com HC e suas possíveis relações com perfil clínico, laboratorial e terapêutico. Trata-se de estudo observacional, analítico, transversal e ambispectivo. Participaram 200 crianças, pré-púberes, sendo 100 com HC (Grupo estudo - GE), e 100 sem a doença (Grupo controle - GC), com idades cronológicas entre três e 12 anos, que foram submetidas a: 1) Anamnese Fonoaudiológica - identificação, queixas e presença de variáveis interferentes; 2) Avaliação perceptivo-auditiva e acústica da voz – amostras de vogal sustentada e fala encadeada, analisadas subjetivamente por um grupo de quatro fonoaudiólogos especialistas em voz, e objetivamente por meio de programa computadorizado; 3) Autoavaliação vocal – escores obtidos por meio do instrumento "Qualidade de Vida em Voz Pediátrico" (QVV-P); 4) Avaliação laringológica – presença ou ausência de lesão laríngea e dados de coaptação glótica; 5) Avaliação fonológica – prova de fonologia do Teste de Linguagem Infantil ABFW; 6) Análise de prontuários (GE) - etiologia do HC, idade de início do tratamento, gravidade ao diagnóstico, qualidade de tratamento, resultados dos testes neuropsicológicos (CAT, CLAMS e CDC) nos três primeiros anos de vida, e da função tireoidiana no dia da coleta. GE e GC foram diferentes quanto ao sexo ($p < 0,001$) e escolaridade ($p = 0,001$) e semelhantes quanto à idade ($p = 0,91$). Na avaliação perceptivo-auditiva, 62,6% das crianças do GE passaram e 37,4% falharam na triagem vocal, sem diferença em relação ao GC ($p = 0,45$). Ambos os grupos apresentaram médias/medianas de medidas acústicas dentro dos parâmetros de normalidade, sem diferenças entre eles. As médias do QVV-P do GE ($99,3 \pm 2,4$) e do GC ($99,5 \pm 1,7$) foram semelhantes ($p = 1,00$) e correspondem aos valores apresentados por indivíduos sem queixas de voz. Na avaliação laringológica, 16,7% do GE e 15% do GC apresentaram lesões em pregas vocais ($p = 1,00$). Quanto à avaliação fonológica, houve uma maior ocorrência de queixa de fala no GE ($p = 0,05$). Na análise por idade, observou-se maior ocorrência de simplificação de encontros consonantais aos sete anos no GE ($p = 0,006$ na prova de imitação e $p = 0,06$ na prova de nomeação). Houve diferença entre as faixas etárias de quatro mais cinco *versus* seis mais sete anos quanto à aquisição fonológica, sendo que o GC completou o sistema mais precocemente ($p = 0,02$). A agenesia de tireóide ($p = 0,04$) e os resultados alterados nos testes CLAMS ($p = 0,007$) e CDC ($p = 0,008$) foram associados à presença de desvio fonológico. Conclui-se que crianças com HC, tratadas precoce e adequadamente, têm as mesmas características vocais e laringológicas das crianças sem a doença. No entanto, apresentam um atraso na aquisição fonológica, principalmente entre seis e sete anos de idade, que parece ter relação com a etiologia, queixas dos pais e resultados dos testes neuropsicológicos.

Palavras-chave: Hipotireoidismo congênito. Criança. Voz. Distúrbios da voz. Fala. Distúrbios da fala.

ABSTRACT

Congenital hypothyroidism (CH) is the second most prevalent endocrine chronic disease in childhood. Despite advances in neonatal screening programs, intrauterine thyroid hormones deficiency can cause mild neuropsychomotor developmental deficits. Regarding voice, although hoarseness may be one of the main clinical signs at birth, there is no evidence of its persistence throughout infancy. The objectives of this study were to evaluate vocal and phonological characteristics of a group of children with CH and their association with clinical, laboratory and therapeutic profile. Observational, analytical, cross-sectional study. Two-hundred prepubertal children, aged 3 to 12 y-old, were enrolled: 100 with CH (Study Group, SG) and 100 without CH (Control Group, CG). The following parameters were evaluated: 1) Speech Language Pathology Interview – identification, complaints and interfering variables; 2) Perceptual and acoustic voice evaluation- samples of sustained vowel and connected speech, analyzed subjectively by a group of four speech therapists, voice specialists, and objectively by computer program; 3) Vocal Self Assessment - scores on the instrument " Quality of Life in Pediatric Voice " (QVV - P), 4) Laryngological Evaluation - presence or absence of laryngeal lesion and data of glottal closure; 5) Phonological Assessment - phonology test by the Child Language Test ABFW; 6) Medical records (SG) - CH etiology, age at onset of treatment, severity at diagnosis, quality of treatment, neuropsychological tests (CAT, CLAMS and CDC) in the first three years of life, and thyroid function of the day of examination. SG and CG were different according to gender ($p < 0.001$) and schooling ($p = 0.001$) and similar in age ($p = 0.91$). In perceptual assessment, 62.6% of SG children passed whereas 37.4% failed in the voice screening, however not different of CG ($p = 0.45$). Both groups had mean/median acoustic measurements within normal limits, with no differences between them. The mean QVV-P of the SG (99.3 ± 2.4) and CG (99.5 ± 1.7) were not different ($p = 1.00$) and correspond to the values reported by individuals without voice complaints. In laryngeal examination both SG (16.7%) and CG (15%) had vocal fold lesions ($p = 1.00$). As for phonological assessment, parents of SG present more speech complaints ($p = 0.05$). In analysis by age, SG had higher occurrence of simplification of consonant clusters at seven years ($p = 0.006$ for the imitation and $p = 0.06$ for the naming task). There were differences between the age groups of four plus five years and six plus seven years regarding phonological acquisition as the system was completed earlier by the CG ($p = 0.02$). Thyroid agenesis ($p = 0.04$) and altered results in CLAMS ($p = 0.007$) and CDC ($p = 0.008$) tests were associated with the presence of phonological disorders. In conclusion, CH children with early diagnosis and adequate treatment have the same vocal and laryngeal characteristics of euthyroid children. Nevertheless, they exhibit a delay in phonological acquisition, especially between ages six and seven, probably related to etiology, parents complaints and results of neuropsychological tests.

Keywords: Congenital hypothyroidism. Child. Voice. Voice disorders. Speech. Speech disorders.

LISTA DE ILUSTRAÇÕES

FIGURA 1	- EIXO HIPOTÁLAMO-HIPÓFISE-TIREOIDE	22
FIGURA 2	- EXEMPLO DE DISTRIBUIÇÃO DO SINAL SONORO NO DIAGRAMA DE DESVIO FONATÓRIO INDICANDO NORMALIDADE	56
GRÁFICO 1	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM O SEXO NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO.....	68
GRÁFICO 2	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM OS ANOS DE ESCOLARIDADE NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	69
GRÁFICO 3	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM O PASSA/FALHA DA TRIAGEM VOCAL NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	70
GRÁFICO 4	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A OCORRÊNCIA DE LESÃO EM PPVV NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	71
GRÁFICO 5	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A FORMA DE COAPTAÇÃO GLÓTICA NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	72
GRÁFICO 6	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM O TIPO DE FENDA GLÓTICA NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	73
GRÁFICO 7	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL QUEIXA DE FALA NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	74
GRÁFICO 8	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL DIFICULDADE ESCOLAR NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	75
GRÁFICO 9	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL PRESENÇA DE DESVIO FONOLÓGICO NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	75
GRÁFICO 10	- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DA PRODUTIVIDADE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS MAIS FREQUENTES NA PROVA DE NOMEAÇÃO DE ACORDO COM A VARIÁVEL IDADE NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	77

GRÁFICO 11 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DA PRODUTIVIDADE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS MAIS FREQUENTES NA PROVA DE IMITAÇÃO DE ACORDO COM A VARIÁVEL IDADE NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	78
GRÁFICO 12 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL AQUISIÇÃO DO SISTEMA FONOLÓGICO NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO	80
GRÁFICO 13 - CORRELAÇÃO ENTRE IDADE DE INÍCIO DO TRATAMENTO E AS VARIÁVEIS REFERENTES À ANÁLISE ACÚSTICA DA VOZ	82
GRÁFICO 14 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DE TSH DO DIA DA COLETA DE DADOS E OS RESULTADOS DA TRIAGEM VOCAL.....	84

LISTA DE QUADROS

QUADRO 1 - QUESTÕES DA ANAMNESE FONOAUDIOLÓGICA REFERENTES AOS HÁBITOS ABUSIVOS RELACIONADOS AO COMPORTAMENTO VOCAL.....	52
QUADRO 2 - DESCRIÇÃO E EXEMPLIFICAÇÃO DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS	60
QUADRO 3 - IDADES ESPERADAS PARA ELIMINAÇÃO DOS PROCESSOS PRODUTIVOS (PARÂMETROS DE NORMALIDADE)	61
QUADRO 4 - VALORES DE REFERÊNCIA DE T_4 , T_4 LIVRE E TSH	63

LISTA DE TABELAS

TABELA 1 - COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO QUANTO À ANÁLISE ACÚSTICA DA VOZ	71
TABELA 2 - COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO QUANTO AOS PROCESSOS FONOLÓGICOS CONSIDERADOS ANORMAIS (PARÂMETROS ABFW).....	76
TABELA 3 - COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO QUANTO À PRODUTIVIDADE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS	79
TABELA 4 - COMPARAÇÃO ENTRE GC E GE QUANTO À AQUISIÇÃO COMPLETA OU INCOMPLETA DO SISTEMA FONOLÓGICO DE ACORDO COM A IDADE	80
TABELA 5 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A IDADE DE INICIO DE TRATAMENTO MÉDICO E O RESULTADO DA TRIAGEM VOCAL	81
TABELA 6 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA DO HIPOTIREOIDISMO E O RESULTADOS DA TRIAGEM VOCAL.....	82
TABELA 7 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA DO HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO E AS VARIÁVEIS REFERENTES À AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ.....	83
TABELA 8 - ASSOCIAÇÃO ENTRE GRAVIDADE DO HIPOTIREIDISMO CONGÊNITO PRÉ-TRATAMENTO E RESULTADO DA TRIAGEM VOCAL.....	83
TABELA 9 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA E AS VARIÁVEIS REFERENTES À AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ.....	84
TABELA 10 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A IDADE DE INÍCIO DE TRATAMENTO, A PRESENÇA OU AUSÊNCIA DE DESVIO FONOLÓGICO E A AQUISIÇÃO COMPLETA OU INCOMPLETA DO SISTEMA FONOLÓGICO.....	85
TABELA 11 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA DO HIPOTIREOIDISMO E A PRESENÇA DE DESVIO FONOLÓGICO.....	85
TABELA 12 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A PORCENTAGENS DE RESULTADOS ALTERADOS DE T4, T4 LIVRE E TSH E AS VARIÁVEIS DESVIO FONOLÓGICO E SISTEMA FONOLÓGICO	85
TABELA 13 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DOS TESTES NEUROPSICOLÓGICOS E A OCORRÊNCIA DE DESVIO FONOLÓGICO.....	86

TABELA 14 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DOS TESTES DE INTELIGÊNCIA E A OCORRÊNCIA DE DESVIO FONOLÓGICO E QUEIXA DE DIFICULDADE ESCOLAR	86
TABELA 15 - ASSOCIAÇÃO ENTRE AS VARIÁVEIS QUEIXA DE FALA E DESVIO FONOLÓGICO	87
TABELA 16 - REGRESSÃO LOGÍSTICA CONSIDERANDO O DESVIO FONOLÓGICO COMO VARIÁVEL DEPENDENTE E OS DADOS DO TRATAMENTO COMO VARIÁVEIS INDEPENDENTES.....	87
TABELA 17 - REGRESSÃO LOGÍSTICA CONSIDERANDO O DESVIO FONOLÓGICO COMO VARIÁVEL DEPENDENTE E OS RESULTADOS DOS TESTES NEUROPSICOLÓGICOS E AS INFORMAÇÕES TRAZIDAS PELOS PAIS COMO VARIÁVEIS INDEPENDENTES.....	88
TABELA 18 - COMPARAÇÃO ENTRE GC E GE QUANTO À OCORRÊNCIA DAS VARIÁVEIS INTERFERENTES.....	89

LISTA DE SIGLAS

CAT	- <i>Cognitive Adaptive Test</i>
CCV	- Consoante/Consoante/Vogal
CDC	- Quociente de Cognição (CAT + CLAMS)
CLAMS	- <i>Clinical Linguistic and Auditory Milestone Scale</i>
DDF	- Diagrama de Desvio Fonatório
DF	- Desvio Fonológico
DP	- Desvio Padrão
EAV	- Escala Analógico-Visual
F ₀	- Frequência Fundamental da Voz
FTMP	- Fenda Triangular Médio Posterior
FTP	- Fenda Triangular Posterior
G	- Grau Geral do Desvio Vocal
GC	- Grupo Controle
GE	- Grupo Estudo
GNE	- <i>Glottal to Noise Excitation</i>
HC	- Hipotireoidismo Congênito
HCT	- Hipotireoidismo Congênito Transitório
HT	- Hormônios Tireoidianos
Hz	- Hertz
IC	- Intervalo de Confiança
LT ₄	- Levotiroxina
PA	- Processamento Auditivo
PKU	- Fenilcetonúria
PPVV	- Pregas Vocais
PTN	- Programa de Triagem Neonatal
QV	- Qualidade Vocal
QVV	- Qualidade de Vida em Voz
QVV-P	- Qualidade de Vida em Voz Pediátrico
RN	- Recém-Nascido
SCF	- Simplificação de Consoantes Finais
SEC	- Simplificação de Encontros Consonantais

SFC	- Sistema Fonológico Completo
SFI	- Sistema Fonológico Incompleto
SL	- Simplificação de Líquidas
SNC	- Sistema Nervoso Central
SNP	- Sistema Nervoso Periférico
T ₃	- Triiodotironina
T ₄	- Tiroxina
TCLE	- Termo de Consentimento Livre e Esclarecido
TN	- Triagem Neonatal
TRH	- Hormônio Liberador de Tireotrofina
TSH	- Tireotrofina
UEP	- Unidade de Endocrinologia Pediátrica
UFPR	- Universidade Federal do Paraná
WIII	- <i>Intelligence Scale for Children</i>
WIII-DI	- W - III – Dificuldade Intelectual
WIII-DI/L	- W - III – Dificuldade Intelectual ou Limítrofe
WR	- <i>Preschool and Primary Scale of Intelligence</i>
WR-DI	- W - R - Dificuldade Intelectual
WR-DI/L	- W - R - Dificuldade Intelectual ou Limítrofe
µg/dL	- Micrograma por decilitro
µg/kg/d	- Micrograma por quilograma por dia
µU/mL	- Microunidade por mililitro

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO	19
1.1 OBJETIVOS.....	21
2 REVISÃO DE LITERATURA	22
2.1 HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO.....	22
2.2 VOZ	24
2.2.1 Características vocais na infância	24
2.2.2 Disfonia infantil	27
2.2.3 Avaliação clínica da voz	28
2.2.3.1 Avaliação perceptivo-auditiva.....	29
2.2.3.2 Avaliação acústica da voz	30
2.2.3.3 Autoavaliação vocal.....	31
2.2.3.4 Avaliação laringológica infantil.....	33
2.2.3.5 Distúrbios vocais e hipotireoidismo/hipotireoidismo congênito	34
2.3 FONOLOGIA.....	36
2.3.1 Desenvolvimento fonológico normal.....	37
2.3.2 Desvios fonológicos.....	38
2.3.3 Desvios fonológicos e hipotireoidismo congênito	40
3 MÉTODOS	44
3.1 TIPO DE ESTUDO.....	44
3.2 LOCAL E PERÍODO DE ESTUDO	44
3.3 CASUÍSTICA	44
3.3.1 População alvo para o grupo estudo (GC)	44
3.3.2 População-alvo para o grupo controle (GC)	45
3.4 CRITÉRIOS DE INCLUSÃO	45
3.4.1 Inclusão no grupo de estudo (GE).....	45
3.4.2 Inclusão no grupo controle (GC).....	45
3.5 CRITÉRIOS DE EXCLUSÃO	46
3.5.1 Exclusão no grupo de estudo (GE).....	46
3.5.2 Exclusão no grupo controle (GC).....	47
3.6 POPULAÇÃO DE ESTUDO.....	47
3.6.1 População do grupo de estudo (GE)	47

3.7	AMOSTRA E TÉCNICA DE AMOSTRAGEM	48
3.7.1	Amostra do grupo de estudo (GE)	48
3.7.2	Amostra do grupo controle (GC).....	49
3.8	HIPÓTESE.....	49
3.9	VARIÁVEIS DE ESTUDO	50
3.9.1	Variável dependente.....	50
3.9.2	Variáveis independentes	50
3.9.3	Variáveis interferentes	50
3.10	PROCEDIMENTOS	51
3.10.1	Verificação dos critérios de elegibilidade	51
3.10.2	Anamnese fonoaudiológica	52
3.10.3	Avaliação vocal.....	53
3.10.3.1	Avaliação perceptivo-auditiva da voz	53
3.10.3.2	Avaliação acústica da voz	55
3.10.3.3	Avaliação da qualidade de vida em voz	57
3.10.4	Avaliação laringológica	57
3.10.5	Avaliação fonológica.....	58
3.10.6	Dados de avaliação e tratamento médico das crianças do GE	62
3.10.7	Procedimentos no grupo controle (GC)	64
3.11	TABULAÇÃO E GERENCIAMENTO DE DADOS.....	64
3.12	ANÁLISE ESTATÍSTICA.....	65
3.13	CÁLCULO DO TAMANHO MÍNIMO DA AMOSTRA.....	66
3.14	ÉTICA EM PESQUISA.....	66
3.15	FOMENTO PARA A PESQUISA, PROFISSIONAIS E SERVIÇOS ENVOLVIDOS.....	66
4	RESULTADOS	67
4.1	CARACTERÍSTICAS DO GRUPO CONTROLE (GC)	67
4.2	CARACTERÍSTICAS DO GRUPO DE ESTUDO (GE)	67
4.3	COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS GC E GE	68
4.3.1	Comparação entre os grupos quanto aos dados de identificação	68
4.3.2	Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação vocal.....	69
4.3.3	Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação laringológica	71

4.3.4	Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação fonológica	73
4.3.4.1	Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação fonológica com controle das variáveis sexo e idade.....	79
4.4	ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DAS AVALIAÇÕES VOCAL E FONOLÓGICA AOS DADOS DE AVALIAÇÃO E TRATAMENTO MÉDICO NO GE	81
4.4.1	Avaliação vocal e dados médicos no GE.....	81
4.4.2	Avaliação fonológica e dados médicos.....	84
4.4.2.1	Análise multivariada para a variável dependente "desvio fonológico" ...	87
4.5	ANÁLISE DAS VARIÁVEIS INTERFERENTES.....	88
5	DISCUSSÃO	90
6	CONCLUSÃO	104
	REFERÊNCIAS	105
	APÊNDICES	123
	ANEXOS	132
	PRODUÇÃO ACADÊMICA	150

1 INTRODUÇÃO

O hipotireoidismo congênito (HC) é a segunda doença endócrina mais comum na infância, estando atrás somente do diabetes *mellitus* (VLIET, 1999). Estima-se que, nos países com suficiência de iodo, o HC acometa de 1: 2.000 a 1: 4.000 nascidos vivos (WALLER *et al.*, 2000). No Brasil, relata-se que a incidência da doença é de 1: 2.500 nascidos vivos (DE CARVALHO *et al.*, 2007).

O HC é causado por produção insuficiente dos hormônios tireoidianos devido à malformação da glândula tireoide ou alteração na biossíntese hormonal. Sua ocorrência pode ser associada à gestação gemelar, famílias com histórico de alterações na glândula tireoide, entre outros (MEDDA *et al.*, 2005). No entanto, a causa do HC não é conhecida na maioria dos casos.

Os problemas hormonais relacionados ao funcionamento da glândula tireoide são uma das principais causas de distúrbios vocais de origem orgânica (BEHLAU; REHDER; VALENTE, 2005). Diversas pesquisas apontam para as queixas e problemas de voz em pessoas com hipotireoidismo adquirido no momento do diagnóstico, sendo comumente relatados os sintomas de rouquidão, voz grave, voz fraca e tensão ao falar (BARTON, 1951; BICKNELL, 1973; BOTTERO *et al.*, 1983; LEYE *et al.*, 2004; ISOLAN-CURY *et al.*, 2007). Além disso, já foram descritas características histológicas das pregas vocais (PPVV) na presença de hipotireoidismo, com a identificação de mixedema decorrente do acúmulo de ácido hialurônico na região submucosa (RITTER, 1967).

No entanto, há poucas evidências sobre as características vocais relacionadas especificamente ao HC, e a maioria delas se refere à presença de choro rouco ao nascimento (GRANT *et al.*, 1992; PEZUTTI; LIMA; DIAS, 2009; LaFRANCHI *et al.*, 1979; MORE *et al.*, 2004; SALIM; VARMA, 2014). Quanto ao HC diagnosticado precocemente, há apenas um trabalho que acompanhou a evolução das características vocais até quatro semanas após o início da reposição hormonal (BOERO *et al.*, 2000). Na referida pesquisa, concluiu-se que algumas das alterações ainda eram mantidas mesmo depois de algumas semanas de tratamento. Quanto às crianças mais velhas, há somente estudos bastante antigos que descrevem alterações vocais significativas em casos de HC não tratado (HURXTHAL, 1946; HURXTHAL; MUSULIN, 1946). Não foram localizados

estudos de avaliação vocal em crianças de maior idade que foram diagnosticadas e tratadas precocemente. Embora haja a hipótese de que com a administração hormonal as características laríngeas e de PPVV tendem a se normalizar, não há dados a respeito do assunto documentados na literatura.

Atualmente, com o avanço dos Programas de Triagem Neonatal (PTN), o hipotireoidismo congênito tem sido diagnosticado precocemente e o tratamento medicamentoso começa durante os primeiros dias de vida. Isso permite que os danos físicos e mentais sejam minimizados (NESI-FRANÇA; DOMINGOS, 2008). No entanto, como há um período de privação hormonal intraútero, e considerando os hormônios tireoidianos (HT) fundamentais para o desenvolvimento cerebral (migração neuronal, formação de axônios e dendritos, mielinização), é possível que a criança, mesmo com o HC detectado precocemente, tenha alguns pequenos *déficits* relacionados ao desenvolvimento neuropsicomotor (ROSMAN *et al.*, 1972; LEGRAND, 1984; POTTER *et al.*, 1982; ROVET; EHRLICH; SORBARA, 1992). São apontadas na literatura dificuldades de linguagem, de habilidades motoras, rebaixamento de inteligência, problemas de aprendizagem, entre outras (KOOISTRA *et al.*, 1994; BARGAGNA *et al.*, 1997; ALVAREZ *et al.*, 2004). Especificamente em relação ao desenvolvimento fonológico, foram apontados desvios aos três, cinco e sete anos (BARGAGNA *et al.*, 2000), porém, sem comparação à frequência apresentada pelas crianças sem a doença. Além disso, em geral, os estudos referentes às dificuldades escolares, não as relacionam ao histórico de possíveis problemas fonológicos (SIMONS *et al.*, 1997; BARGAGNA *et al.*, 1999).

A Unidade de Endocrinologia Pediátrica (UEP) do Hospital das Clínicas da Universidade Federal do Paraná (UFPR) é um serviço de referência no atendimento a crianças com HC, tendo um número muito grande de pacientes atendidos desde o ano de 1973. A maior parte deles foi cadastrada a partir do ano de 1992, após a implantação do PTN. No entanto, ainda não foi realizado nenhum estudo de caracterização vocal e fonológica desse grupo de pacientes, o que motivou a realização deste trabalho.

Na presente pesquisa, partiu-se do pressuposto de que o diagnóstico precoce das alterações vocais e fonológicas em crianças é de grande importância para que possíveis distúrbios não interfiram nas atividades sociais, escolares e, conseqüentemente, na qualidade de vida quando adultas (STACKHOUSE; WELLS,

1997; KRISCHKE *et al.*, 2005). Tanto as características da voz quanto do desenvolvimento fonológico têm um importante papel na competência comunicativa e linguística e, portanto, devem ser valorizadas durante a infância. Não há, contudo, estudos que tenham se preocupado em analisar esses aspectos, em crianças com reposição hormonal, comparando-se com crianças sem a doença. Dessa forma, conhecer o perfil das crianças com HC quanto a essas habilidades pode contribuir para o delineamento de ações da equipe de saúde e, mais especificamente, da Fonoaudiologia, no atendimento a este grupo.

1.1 OBJETIVOS

- a) Avaliar as características vocais e laríngeas de crianças com HC;
- b) Descrever como acontece o desenvolvimento fonológico de crianças com HC;
- c) Associar as características vocais e fonológicas com o perfil clínico, laboratorial e terapêutico de crianças com HC.

2 REVISÃO DE LITERATURA

2.1 HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO

Os HT atuam quase na totalidade de tecidos do organismo, sobre a concentração e atividade enzimática, sobre o metabolismo de substratos, vitaminas e sais minerais, sobre o metabolismo basal, estimulam o consumo de oxigênio e, além disso, agem sobre os outros sistemas endócrinos (WILLIAMS, 1974). Entre outros aspectos, são responsáveis pelo crescimento da criança e desenvolvimento do SNC.

Para que os HT sejam produzidos adequadamente, é necessária a integridade do eixo hipotálamo-hipófise-tireoide. O hipotálamo secreta o hormônio liberador de tireotrofina (TRH), que age sobre a hipófise produzindo a tireotrofina (TSH), que, por sua vez, estimula a tireoide para produzir os HT. Além das ações metabólicas, os HT exercem controle sobre a produção e liberação de TSH e TRH (*feedback* negativo) (Figura 1).

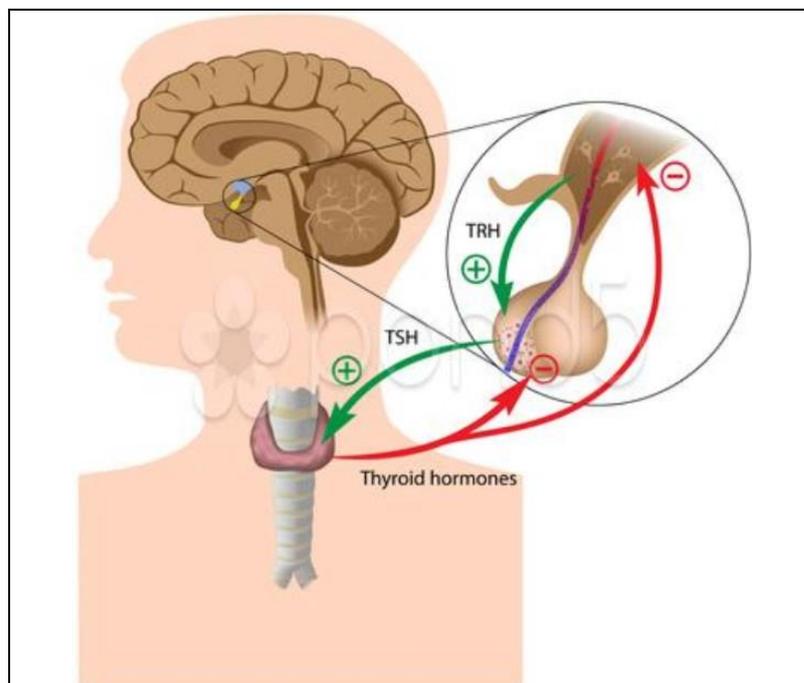


FIGURA 1 - EIXO HIPOTÁLAMO-HIPÓFISE-TIREOIDE

FONTE: Disponível em <http://www.ebah.com.br/content/ABAAAfWTwAD/sistema-endocrino>. Acesso em fevereiro de 2014.

As principais causas de alterações na produção dos HT são as disgenesias de tireoide (DT) (agenesias – ausência da glândula, ectopias – localização inadequada da glândula e hipoplasias – alterações no desenvolvimento da glândula), cujas causas, embora ainda controversas, parecem ter relação com mutações em alguns fatores de transcrição que são importantes na embriogênese da glândula tireoide. A maioria dos casos de DT é esporádica, com ocorrência familiar em apenas 2% dos casos; são mais frequentes no sexo feminino, na proporção de 2:1, e em indivíduos caucasianos. Acometem de 1:3.000 a 1:4.000 nascidos vivos (AMERICAN ACADEMY OF PEDIATRICS *et al.*, 2006; NESI-FRANÇA; ROJAS-RAMOS, 2009). Além das disgenesias, o HC pode ser causado por disormonogênese (alterações do transporte ou captação do iodeto, por exemplo); e também por alterações hipotalâmico-hipofisárias (anomalias, pan-hipopituitarismo, deficiência isolada de TSH, resistência ao HT), que são mais raras e acometem 1:100.000 nascidos vivos (FISHER, 1981).

Os HT influenciam o desenvolvimento do cérebro principalmente nos últimos meses do desenvolvimento fetal e no primeiro ano de vida pós-natal. Tal influência está relacionada ao processo de mielinização, formação de axônios, dendritos e células gliais e divisão de neuroblastos durante este período (ROSMAN *et al.*, 1972; LEGRAND, 1984; POTTER *et al.*, 1982). Por este motivo, o diagnóstico precoce do HC é fundamental para que se evite o retardo mental e outras alterações relacionadas às funções neuropsicomotoras (ROVET; EHRLICH; SORBARA, 1992).

Com o avanço dos PTN, a partir da Portaria GM/MS n.º 822, de junho de 2001 (BRASIL, 2001), o diagnóstico do HC tem acontecido cada vez mais precocemente, embora ainda seja necessário reduzir a idade de início do tratamento (NESI-FRANÇA; DOMINGOS, 2008). O ideal seria que todas as crianças iniciassem a reposição hormonal até a segunda semana de vida (BONGERS-SCHOKKINK *et al.*, 2000).

Nas primeiras semanas de vida, alguns sinais clínicos podem estar presentes no recém-nascido com HC: icterícia prolongada, obstipação, hipoatividade, extremidades frias, hérnia umbilical, macroglossia/protrusão lingual, fontanelas amplas, dificuldade de sucção, choro rouco, hipotonia e atraso no desenvolvimento neuropsicomotor (GRANT *et al.*, 1992; MORE *et al.*, 2004; PEZUTTI; LIMA; DIAS, 2009; SALIM; VARMA, 2014). Para as crianças cujo diagnóstico não é feito precocemente, pode-se observar um atraso significativo no crescimento (NESI-FRANÇA; ROJAS-RAMOS, 2009).

A etiologia e a confirmação do diagnóstico de HC primário geralmente são estabelecidas após os dois anos e meio de vida, por meio de avaliação do eixo hipotálamo-hipófise-tireoide e cintilografia de tireoide, um exame que detecta a presença e a localização do tecido tireoidiano, além de quantificar a captação do iodeto pela glândula (LOBO *et al.*, 2003). Se houver confirmação do HC, o tratamento é mantido com consultas e exames laboratoriais regulares para controle da função tireoidiana.

A reposição hormonal, nos casos de HC, é iniciada imediatamente após o diagnóstico, e deverá ser feita por toda a vida. As doses de levotiroxina (LT₄) vão sendo ajustadas nas consultas subsequentes, de acordo com os resultados dos testes de função tireoidiana e da avaliação clínica. Nos dois primeiros anos de vida, o intervalo entre as consultas deve ser curto. Na UEP/Hospital de Clínicas/UFPR, as consultas são realizadas mensalmente até os primeiros seis meses, bimestralmente até um ano, e trimestralmente até os dois anos, podendo a partir daí ser semestral (NESI-FRANÇA; ROJAS-RAMOS, 2009).

2.2 VOZ

A voz corresponde ao som gerado pela aproximação e vibração das PPVV após a pressão aérea subglótica que retorna dos pulmões. Após ser produzido pelas PPVV, o som da voz é amplificado pelo sistema de ressonância, composto pelas estruturas supraglóticas, boca, nariz e seios paranasais; e moldado pelos articuladores (lábios, língua, palato, dentes). Todas essas minuciosas características dependem da integridade do Sistema Nervoso Central (SNC) – região cortical responsável por conceituação, planejamento e execução do ato da fala; e Sistema Nervoso Periférico (SNP) – inervação motora e sensitiva da laringe (BEHLAU; AZEVEDO; MADAZIO, 2001).

2.2.1 Características vocais na infância

As características vocais diferenciam-se nos bebês, crianças, adolescentes, adultos e idosos, devido às condições anatômicas e fisiológicas da laringe em cada uma destas faixas etárias. Portanto, a variável idade é muito importante quando se pensa no conceito de voz normal ou alterada.

A laringe infantil localiza-se em posição bastante alta no pescoço até aproximadamente cinco anos de idade, momento em que o abaixamento da cartilagem cricoidea permite que o tubo de ressonância fique mais longo e amplie melhor as frequências graves (DEJONCKERE, 1984). As cartilagens laríngeas são delicadas na infância, com ligamentos frouxos. A cartilagem cricoidea tem formato circular tanto em meninos quanto em meninas (HERSAN, 1998), o que, associado à baixa proporção glótica (PONTES; BEHLAU; KYRILLOS, 1994) favorece a coaptação glótica incompleta com a configuração glótica de fenda triangular posterior (FTP) (BEHLAU; AZEVEDO; PONTES, 2001).

As PPVV da criança também apresentam diferenças fisiológicas em relação às do adulto. O ligamento vocal ainda é imaturo e, por isso, as camadas da lâmina própria são indiferenciadas (KURITA; NAGATA; HIRANO, 1983). Por este motivo, a qualidade vocal pode se apresentar de forma delgada, instável, com desvios relacionados à instabilidade, soprosidade e (ou) rugosidade (TAVARES *et al.*, 2011). As demais características vocais comuns na infância são: frequência fundamental (F_0) em torno 250Hz, *pitch*¹ agudo, *loudness*² forte, incoordenação penumofonoarticulatória, instabilidade e tempos máximos fonatórios inferiores a 12 segundos (BEHLAU; AZEVEDO; PONTES, 2001).

Em um estudo desenvolvido com o objetivo de obter características vocais comumente observadas ao longo do desenvolvimento infantil, os autores concluíram que 86,8% das crianças apresentam algum grau de desvio vocal (LOPES *et al.*, 2013). No referido estudo, cujos participantes foram escolares, a maior parte das crianças apresentou desvio leve para os parâmetros de rugosidade (50,5%), instabilidade (48,4%), soprosidade (39,8%) e tensão (37,4%).

Em relação aos parâmetros acústicos, é comum que haja perturbações até os quatro anos de idade devido à imaturidade das estruturas, o que tende a se

¹ Percepção psicoacústica da frequência (BEHLAU *et al.*, 2001).

normalizar nos anos subsequentes (cinco ou seis anos) (CAPPELLARI; CIELO, 2008).

² Percepção psicoacústica da intensidade (BEHLAU *et al.*, 2001).

Durante a infância, em geral, as medidas de ruído são semelhantes entre meninos e meninas (WANG, 1989; NICOLLAS *et al.*, 2008). Mesmo no período pré-púbere, há decréscimo da F_0 com o passar dos anos, embora com valores semelhantes entre os sexos (TAVARES; LÁBIO; MARTINS, 2010). É importante mencionar que a acústica, neste caso, difere da perceptivo-auditiva relacionada ao sexo, já que um estudo recente mostrou que, mesmo antes da puberdade, na faixa etária entre oito e dez anos, é possível diferenciar meninos e meninas com simples amostras de emissão sustentada e encadeada (AMIR *et al.*, 2012).

2.2.2 Disfonia infantil

A disfonia é conceituada como qualquer dificuldade que impeça a produção da voz e ocasione impacto negativo nas atividades pessoais e (ou) profissionais do indivíduo (BEHLAU; AZEVEDO; PONTES, 2001). Estima-se que entre seis e 30% das crianças em todo o mundo apresentem distúrbios vocais (TAVARES *et al.*, 2011; MARTINS *et al.*, 2012; POSSAMAI; HARTLEY, 2013). Tais distúrbios, no entanto, muitas vezes não são valorizados pela família e pela escola, que não encaminham ou direcionam as crianças para avaliação e tratamento especializados (TEIXEIRA; TREZZA; BEHLAU, 2003).

A etiologia dos distúrbios vocais infantis é bastante discutida na literatura. Nos casos mais comuns, eles são decorrentes de desajustes anatômicos e fisiológicos associados a comportamentos vocais abusivos, como no caso dos nódulos vocais e alterações estruturais mínimas (MARTINS *et al.*, 2012). No entanto, também podem ser decorrentes de outros problemas, como infecções de vias aéreas superiores, laringites virais agudas, papilomatoses, estenoses laríngeas, tumores, paralisias de PPVV pós-procedimento cirúrgico, entre outros (CONNELLY; CLEMENT; KUBBA, 2009).

Segundo a literatura, meninos têm mais problemas de voz por apresentarem comportamentos vocais mais abusivos (CARDING *et al.*, 2006) e a ocorrência da disfonia é maior entre os cinco e 10 anos de idade (ROY *et al.*, 2007). Além disso, há indícios de que outras variáveis podem influenciar no desencadeamento dos distúrbios

vocais, como as condições sociais (SALES *et al.*, 2013) e as características relacionadas à personalidade (ROY *et al.*, 2007).

As características vocais perceptivo-auditivas nas disfonias infantis são bastante variadas, compreendendo, principalmente, rugosidade, soprosidade, e tensão (OLIVEIRA *et al.*, 2011; LOPES *et al.*, 2013; GRAMUGLIA *et al.*, 2014). No tocante à análise acústica, crianças com desvios vocais de grau moderado apresentam F_0 mais baixas e medidas de ruído, como *jitter* e *shimmer*, mais alteradas (TAVARES *et al.*, 2011).

2.2.3 Avaliação clínica da voz

Os pacientes com distúrbios vocais são avaliados por uma equipe multidisciplinar, composta por médicos otorrinolaringologistas (ORL), fonoaudiólogos, cirurgiões de cabeça e pescoço, professores de canto, etc. Basicamente, devem passar por uma avaliação laringológica (realizada pelo ORL) e pela avaliação clínica da voz (realizada pelo fonoaudiólogo) (BEHLAU *et al.*, 2001).

A avaliação do ORL tem por objetivo o diagnóstico e a conduta sobre o distúrbio de voz (SCHWARTZ *et al.*, 2009; POSSAMAI; HARTLEY, 2013). Por outro lado, o objetivo da avaliação fonoaudiológica é avaliar a dinâmica vocal perceptivo-auditiva, acústica, a função fisiológica e o impacto da disfonia na vida do indivíduo, a fim de obter a hipótese diagnóstica do caso e realizar encaminhamentos para outros profissionais quando indicado (HASKELL, 1995; BEHLAU *et al.*, 2001; ASHA, 2004).

Um estudo de revisão sistemática de literatura foi desenvolvido por Roy *et al.* (*in press*), com o objetivo de determinar o tipo de evidência que existe para apoiar o uso de medidas de voz na avaliação dos pacientes com distúrbios vocais. Foram localizadas algumas pesquisas com metodologias robustas com constatações importantes, a saber: medidas acústicas podem determinar a presença ou ausência de distúrbio vocal; a associação entre análise acústica e avaliação perceptivo-auditiva pode aumentar ainda mais esta acurácia; a combinação de medidas aerodinâmicas também pode contribuir para identificar distúrbios de voz; a imagem laríngea é o principal recurso para confirmar o diagnóstico de lesões/alterações em PPVV, bem

como sua etiologia. Entretanto, os autores concluíram que, apesar das contribuições isoladas, ainda não há medidas recomendadas e (ou) um protocolo organizado que evidencie o diagnóstico de pacientes disfônicos.

2.2.3.1 Avaliação perceptivo-auditiva

A avaliação perceptivo-auditiva da voz é uma tarefa complexa, que envolve uma série de fatores, tais como experiência do clínico e suas preferências, treinamento prévio, tipo de estímulo (emissão sustentada, fala encadeada) e erros casuais (KREIMAN *et al.*, 1992; PATEL; SHRIVASTAV, 2007). Este tipo de avaliação foi, por muito tempo, considerado padrão ouro na clínica vocal e, embora atualmente os profissionais contem com outros recursos e ferramentas, a análise perceptivo-auditiva continua tendo papel essencial na avaliação e acompanhamento dos pacientes com distúrbios vocais.

Os fonoaudiólogos contam com escalas e (ou) protocolos que os auxiliam na avaliação perceptivo-auditiva. A escala GRBAS, proposta por Hirano (1981) e amplamente divulgada na comunidade acadêmica, tem grande valia na clínica por sua simplicidade e facilidade de aplicação. Compreende a avaliação do grau geral do desvio vocal, rugosidade, soprosidade, tensão e astenia, que são marcados em escala numérica de 0 a 3 pontos. Esta escala, no entanto, prioriza basicamente os aspectos de fonte glótica e, por isso, não compreende, por exemplo, possíveis alterações ressonanciais e (ou) articulatórias.

Em 2003, a *American Speech-Hearing Association* (ASHA, 2003) criou, por consenso, uma escala de avaliação denominada CAPE-V, que prioriza também os aspectos de filtro e permite que sejam feitas análises adicionais (ASHA, 2003). Trata-se de escala analógico-visual (EAV), de 100 milímetros (mm), que permite a marcação de desvios: dentro da variabilidade normal, discretos, moderados ou intensos. Na ocasião, a ASHA propôs que a análise vocal considere os vários tipos de amostras de fala (sustentada, encadeada e espontânea), uma vez que é possível haver discrepâncias entre elas.

As escalas citadas anteriormente têm grande valia na clínica vocal em adultos, uma vez que os parâmetros de normalidade e alteração para essa população já são mais bem definidos. No entanto, quando a avaliação compreende vozes infantis, a complexidade da análise é muito grande devido aos desvios vocais comuns e inerentes ao desenvolvimento da laringe e maturação do ligamento vocal durante esse período (POSSAMAI; HARTLEY, 2013).

Há na literatura a estimativa de ocorrência da disфонia infantil com base somente nas avaliações perceptivo-auditivas e considerando alterações discretas já como anormais (OLIVEIRA *et al.*, 2011), o que parece ser muito difícil considerando todas as particularidades supracitadas referente ao desenvolvimento vocal da criança. É possível que crianças com desvios vocais discretos e até mesmo moderados tenham avaliações laringológicas absolutamente normais e não apresentem quaisquer queixas relacionadas à voz .

2.2.3.2 Avaliação acústica da voz

A avaliação acústica da voz tem contribuído bastante para os diagnósticos dos distúrbios vocais. Em geral, ela pode ser realizada de duas maneiras: por espectrografia (que necessita de análise visual por parte do avaliador) e extração de medidas objetivas, cujo cálculo é feito pelos programas/*softwares* computadorizados.

Quanto às medidas acústicas objetivas, as mais comumente extraídas são: F_0 , que corresponde ao número de ciclos glóticos por segundo e se relaciona com o comprimento, massa e tensão à vibração das PPVV; e os índices de perturbação da F_0 , que correspondem a variações de frequência e amplitude ciclo a ciclo (BEHLAU *et al.*, 2001). Os índices de perturbação mais comumente extraídos na clínica vocal são os de curto prazo, denominados *jitter* (perturbação de frequência) e *shimmer* (perturbação da amplitude) (WENDAHL, 1966; HORII, 1982; TITZE; HORII; SCHERER, 1987). A depender do programa de análise acústica utilizado, há várias outras possibilidades de medidas. O *Software* VOXMETRIA® (CTS Informática, versão 2.5), lançado no ano de 2002, sob a coordenação da Dr.^a Mara Behlau, além da extração das medidas supracitadas, permite a análise da Proporção *Glottal to Noise*

*Excitation*³ (GNE) e do diagrama de desvio fonatório (DDF), referente à análise da periodicidade do sinal e o conteúdo de ruído nele contido.

Apesar dos avanços tecnológicos relacionados à análise acústica, sabe-se que ela não tem uma relação direta com as características perceptivo-auditivas e laringológicas (BROCKMANN-BAUSER; DRINNANMJ, 2011). Estas divergências são mais presentes nas vozes com desvios vocais moderados e (ou) intensos (sinais dos tipos 2 e 3) (TITZE, 1995). No entanto, sua importância na clínica vocal é inegável no que se refere ao acompanhamento de pacientes ao longo da terapia, à complementariedade da avaliação perceptivo-auditiva e à detecção precoce de problemas de voz (BEHLAU, 1997; BROCKMANN-BAUSER; DRINNANMJ, 2011). Além disso, ter um parâmetro de normalidade dos programas computadorizados, desenvolvido a partir de um banco de vozes referentes à uma população específica (homens, mulheres, crianças, cantores) é bastante útil para fins comparativos e de triagem vocal.

A análise acústica depende de boa qualidade de gravação, feita diretamente no computador, em ambiente com condições acústicas apropriadas, com equipamentos adequados (placa de som, microfone unidirecional com boa impedância e curva reta) e análise por laboratórios com confiabilidade comprovada (BEHLAU *et al.*, 2001). Além disso, as amostras vocais devem ser compatíveis com o tipo de análise desejada: sugere-se a emissão de vogais sustentadas para a análise da qualidade vocal (F_0 , medidas de ruído) e de fala encadeada/espontânea para análise de características como intensidade, espectro de energia, gama tonal e dados espectrográficos.

2.2.3.3 Autoavaliação vocal

Atualmente, os dados de autoavaliação do paciente disfônico a respeito do distúrbio vocal têm sido muito valorizados na clínica fonoaudiológica e na literatura da área (GRILLO; PENTEADO, 2005; KRISCHKE *et al.*, 2005; KASAMA; BRASOLOTTO, 2007; QUEIJA *et al.*, 2007). Isso porque parece claro que a demanda e a aderência

³ Medida que calcula o ruído em uma série de pulsos, de acordo com a oscilação produzida pelas pregas vocais (MICHAELIS; GRAMS; STRUBE, 1997).

ao tratamento estão intimamente relacionados ao impacto do problema de voz na vida diária do indivíduo. Assim, dois indivíduos que apresentam alterações vocais semelhantes e com um mesmo tipo de lesão laríngea podem enfrentar o impacto dessas alterações de maneiras bastante divergentes, a depender de características sociais, profissionais e (ou) emocionais.

A autoavaliação do sujeito é única e pode, inclusive, não ter relação direta com a avaliação do clínico (UGULINO; OLIVEIRA; BEHLAU, 2012). Por este motivo, tem se tornado cada vez mais indispensável para a elaboração do raciocínio clínico e, conseqüentemente, a conduta sobre os casos de distúrbios vocais.

Um estudo buscou identificar as atitudes e comportamentos de crianças disfônicas frente aos problemas de voz (CONNOR *et al.*, 2008). Concluiu-se que os participantes muitas vezes sentiram que sua voz disfônica recebeu atenção indevida e limitada durante eventos importantes. Além disso, referiram raiva, tristeza e frustração devido ao problema de voz.

Os protocolos de autoavaliação vocal, também chamados de protocolos de qualidade de vida relacionados à voz, já existiam em outros países, mas começaram a ser validados no Brasil a partir do ano de 2005. Atualmente, há vários protocolos traduzidos e validados para a língua portuguesa, que possuem sensibilidade e confiabilidade garantidas, com ampla utilização na clínica (GASPARINI; BEHLAU, 2009; BEHLAU; SANTOS; OLIVEIRA, 2009; BEHLAU *et al.*, 2009; MORETI, 2011; RICARTE; OLIVEIRA; BEHLAU, 2013).

O protocolo Qualidade de Vida em Voz Pediátrico (QVV-P), originalmente chamado de *Pediatric Voice Related Quality of Life Survey* - PVRQOL (BOSELEY *et al.*, 2006) foi o primeiro validado no Brasil para a população infantil (RIBEIRO; DE PAULA; BEHLAU, *in press*). A autoavaliação vocal, neste protocolo, ocorre de forma indireta, já que são os pais que respondem sobre as dificuldades enfrentadas pelos filhos. O QVV-P tem os mesmos domínios, forma de marcação e cálculo do instrumento Qualidade de Vida em Voz - QVV (GASPARINI; BEHLAU, 2009), amplamente utilizado na população adulta e em pesquisas na área de voz. Assim, a pontuação máxima é de 100 pontos e, quanto maior a pontuação apresentada, melhor é a qualidade de vida em voz.

O trabalho de validação do QVV-P para o português brasileiro, que avaliou pré-escolares, escolares e adolescentes, obteve valores médios de $99,05 \pm 2,1$ para

o grupo sem queixa de voz e $78,65 \pm 15,6$ para o grupo com queixa (RIBEIRO; DE PAULA; BEHLAU, *in press*). As autoras observaram, ainda, que a percepção dos pais a respeito da qualidade de vida em voz vai aumentando com o avanço da idade/escolaridade dos filhos. Isso pôde ser demonstrado com a obtenção dos escores de acordo com a faixa etária: no grupo de crianças com queixas, pré-escolares tiveram resultados superiores aos dos escolares que, por sua vez, foram inferiores aos dos adolescentes.

Considera-se que a autoavaliação vocal feita por uma terceira pessoa pode não ter uma relação direta com a autoavaliação vocal do sujeito/paciente. Por isso, é importante o desenvolvimento e validação para a língua portuguesa de instrumentos que também consigam avaliar a percepção da própria criança sobre o impacto de um possível problema de voz em suas atividades cotidianas.

2.2.3.4 Avaliação laringológica infantil

As crianças que apresentam queixas vocais ou alterações perceptivo-aditivas e acústicas da voz devem passar por avaliação laringológica específica. Tal avaliação contempla a visualização da laringe em repouso, além de obter dados sobre a mobilidade das PPVV, possível presença de lesões/alterações e as características de coaptação glótica (NEVES; FUJITA, 2006).

O exame mais comumente realizado pelos ORL é a laringoscopia indireta por meio de fibroscópio rígido. Este exame, embora permita uma ótima visualização das pregas vocais, é de difícil realização em crianças pequenas, que são pouco colaborativas, mesmo com o uso de anestesia tópica para controlar o reflexo nauseoso. Há ainda a possibilidade de realização de nasofibrolaringoscopia, com fibra flexível, que é mais bem tolerado pelas crianças, embora tenha uma imagem menor e com menos qualidade (D'ANTONIO *et al.*, 1986); e a laringoscopia direta, que é feita somente em casos muito específicos, pois requer anestesia geral (BEHLAU *et al.*, 2001).

Quanto à epidemiologia, a literatura aponta que os nódulos vocais são as lesões mais comuns em crianças (MELO *et al.*, 2001; MARTINS; TRINDADE, 2003; MARTINS *et al.*, 2012). Trata-se de uma lesão cuja etiologia se relaciona com o

comportamento vocal abusivo e que pode ser totalmente reabsorvida por meio de fonoterapia (BEHLAU; MADAZIO; PONTES, 2001).

Um estudo analisou retrospectivamente registros de seis anos de atendimento (laringológico) a crianças com queixa de disfonia em um hospital especializado. Das 137 crianças cujos registros estavam completos, apenas 10 apresentavam disfonia por alteração congênita e 15 por procedimento cirúrgico. Os demais tinham lesões/alterações cuja etiologia era o comportamento vocal abusivo (CONNELLY; CLEMENT; KUBBA, 2009).

Considera-se que o diagnóstico precoce das alterações/lesões laringológicas infantis pode contribuir para uma intervenção adequada, seja medicamentosa, cirúrgica ou fonoterápica (NEVES; FUJITA, 2006).

2.2.3.5 Distúrbios vocais e hipotireoidismo/hipotireoidismo congênito

Historicamente, há a apresentação de trabalhos que relacionam os distúrbios da glândula tireoide aos distúrbios vocais (BIKBAEVA; GABDULLIN, 1986). Parte-se do pressuposto de que a falta de HT pode causar alterações anatomofisiológicas na laringe e, mais especificamente, nas pregas vocais, o que pode desencadear desvios de graus variados (SHULZ, 1999).

Na presença do hipotireoidismo, ocorre uma infiltração mixedematosa nas mucosas do trato vocal e da laringe (epiglote, região interaritenóidea, pregas vestibulares). Nas pregas vocais, o mixedema decorre de acúmulo de ácido hialurônico na região submucosa (RITTER, 1967). Como consequência do mixedema, os pacientes podem apresentar voz rouca, grave, instável e (ou) tensa (BARTON, 1951; BICKNELL, 1973; BOTTERO, 1983).

Pensando na associação supracitada, sugere-se que os tecidos da laringe são alvo do HT. Por isso, Altman *et al.* (2003) desenvolveram um estudo com o objetivo de entender melhor os efeitos do hormônio da glândula tireoide na laringe e identificar onde estariam localizados os receptores para que esta ação aconteça. Laringes de cadáveres humanos foram submetidas a processos histoquímicos e apresentaram anticorpos reativos a dois tipos de receptores de hormônios da tireoide.

Os receptores localizaram-se no tecido da lâmina própria, cartilagens, e elementos glandulares. Concluiu-se que o HT tem um importante papel na laringe humana.

Uma pesquisa foi desenvolvida para avaliar as alterações vocais enfrentadas por pacientes adultos com hipotireoidismo adquirido (MOHAMMADZADEH; HEYDARI; AZIZI, 2011). Foram avaliados 106 pacientes no momento do diagnóstico da doença (confirmado por meio dos valores de TSH e T_4) e 88 indivíduos sem a doença, pareados por idade, sexo e hábito de fumar, que constituíram o grupo controle. Os autores observaram que as medidas acústicas da voz foram mais alteradas nos pacientes com hipotireoidismo e que as concentrações de TSH e T_4 tiveram correlação positiva com a variação da F_0 da voz.

Além do trabalho supracitado, vários outros associam a presença do hipotireoidismo adquirido não tratado em adultos a alterações perceptivo-auditivas e acústicas da voz e a queixas/sintomas apresentadas pelos indivíduos em relação à qualidade vocal e à sensação de incômodo laríngeo (LEYE *et al.*, 2004; ISOLAN-CURY *et al.*, 2007). No entanto, não foram localizados estudos longitudinais que envolveram reavaliações vocais após o início da reposição hormonal.

No que se refere especificamente à relação entre os distúrbios vocais e o HC, a literatura é mais escassa, provavelmente devido ao início de tratamento bastante precoce a que os pacientes são submetidos. No entanto, como já mencionado, muitos trabalhos são categóricos ao afirmarem que o choro rouco é um dos principais sinais clínicos ao nascimento (LaFRANCHI *et al.*, 1979; GRANT *et al.*, 1992; MORE *et al.*, 2004; PEZUTTI; LIMA; DIAS, 2009; SALIM; VARMA, 2014).

Uma pesquisa de corte transversal realizada na década de 70 buscou investigar possíveis alterações no choro de crianças com HC por meio de análise acústica espectrográfica (MICHELSSON; SIRVIÖ, 1976). Foram avaliadas quatro crianças, com idades entre 10 dias e quatro meses de idade com diagnóstico confirmado de HC e um grupo controle composto por 75 crianças sem a doença, na mesma faixa etária. Os resultados mostraram que RN com HC apresentaram menores valores de frequência fundamental média, mínima e máxima. Além disso, variações de F_0 ocorreram em menor frequência no grupo pesquisa.

Um estudo preliminar, desenvolvido por Boero *et al.* (2000) teve o objetivo de avaliar os parâmetros acústicos do choro de recém-nascidos com HC no momento do diagnóstico e após o início do tratamento hormonal. Participaram 12 RN com HC,

que compuseram o grupo pesquisa e 16 crianças saudáveis, que constituíram o grupo controle. As crianças passaram pela primeira avaliação vocal até completarem, no máximo, 15 dias de vida. Foram avaliados: qualidade vocal, variação melódica, parâmetros de tempo, parâmetros de frequência e pico de frequência. Cinco bebês do grupo pesquisa foram reavaliados depois de 30 dias do início do tratamento, momento em que os valores de HT se encontravam dentro dos padrões de normalidade. Na primeira avaliação, crianças com HC apresentaram choro mais baixo, e maior número de vibratos. Além disso, tiveram médias de F_0 inicial, mínima, máxima e final, mais baixas do que as crianças do GC. Em análise individual de cinco sujeitos, houve modificações em alguns parâmetros de frequência, porém com pequena modificação quanto aos parâmetros de tempo, F_0 e pico de frequência. Concluiu-se que há anormalidades no choro de bebês com HC e parte delas não se modifica após um mês de tratamento com HT.

2.3 FONOLOGIA

A Fonologia corresponde à organização e ao funcionamento da produção dos sons de determinada língua. Nessa área, investiga-se como acontece a programação e a sequência da disposição dos sons em determinada sílaba ou palavra. Assim, o componente fonológico corresponde à representação mental dos sons. Cada língua contém regras próprias e é nelas que o estudo da Fonologia se baseia para estudar o uso sistemático dos sons (YAVAS, 1988).

Os sons da fala de uma língua dependem de quais são os fones pertencentes à ela. Os fones correspondem aos segmentos vocálicos e consonantais encontrados na transcrição fonética, e variações exclusivamente dessa ordem não modificam o sentido da palavra. Já alterações fonêmicas estão diretamente relacionadas às modificações lexicais, ou seja, de significado, podendo comprometer a inteligibilidade da fala em graus variados (SILVA, 2006).

2.3.1 Desenvolvimento fonológico normal

O desenvolvimento fonológico normal é aquele realizado pela maior parte das crianças falantes de uma determinada língua, uma vez que a aquisição não sofre grandes variações nessa população no que se refere ao período esperado para a automatização de determinado som da fala (LAMPRECHT, 2004). No entanto, devido a uma série de variáveis interferentes, sempre há discussão na literatura sobre esses parâmetros, principalmente no que se refere ao momento do desenvolvimento em que o sistema fonológico da criança já deve estar completo.

De acordo com Yavas (1988), o desenvolvimento fonológico normal é aquele que obedece a uma sequencia natural e cuja dificuldade apresentada se refere às possibilidades de articulação em cada uma das fases do desenvolvimento da criança. Autores concordam em afirmar que o período de maior expansão da aquisição fonológica ocorre entre 18 meses e quatro anos de idade (YAVAS; HERNANDORENA; LAMPRECHT, 2002; RIBAS, 2004; VIEIRA; MOTA; KESKE-SOARES, 2004). No entanto, há trabalhos que sugerem que a aquisição fonológica completa, considerando os sons da fala de aquisição mais difícil e, portanto, variável, pode acontecer até os seis ou sete anos de idade (WERTZNER, 1995; McLEOD; BLEILE, 2003; FERRANTE; BORSEL; PEREIRA, 2009).

Para avaliação da normalidade, os sons da fala pertencentes à língua são categorizados e agrupados de acordo com suas características de produção, uma vez que, a depender da idade apresentada pela criança, são esperadas substituições, omissões e (ou) simplificações de determinados sons. Desta forma, surgem os processos fonológicos, que correspondem a uma produção alternativa do som decorrente de uma operação mental realizada pela criança devido à dificuldade de produzi-lo (STAMPE, 1979). Tais processos diferenciam a palavra daquela comumente produzida pelo adulto falante da mesma língua e podem prejudicar a inteligibilidade da fala (DONICHT *et al.*, 2009).

Há várias formas de categorização dos processos fonológicos no que se refere à nomenclatura, embora todos os autores contemplem a totalidade dos sons da fala pertencentes à língua. De forma geral, os processos primeiramente eliminados pelas crianças (por volta de dois a três anos) são os que envolvem produção de plosivas

([p], [t], [k], [b], [d], [g]), fricativas ([f], [s], [ʃ], [v], [z], [ʒ]) e nasais ([m], [n], [ɲ]) e estruturas como redução de sílabas (Exemplo: [bo] ao invés de [bola]), assimilação e harmonia consonantal (Exemplo: [kakaku] ao invés de [makaku]) (WERTZNER, 1995). Já os processos que envolvem a simplificação das líquidas (SL) (Exemplo: [kalu] ao invés de [karu]) são eliminados em idades intermediárias (por volta de três a quatro anos de idade) (ANDRADE *et al.*, 2004) e os que envolvem as epênteses (adição de vogal no encontro consonantal, como por exemplo [buluza] ao invés de [bluza]), metáteses (inversão na ordem dos sons da fala, como por exemplo [iorgute] ao invés de [iogurte]), simplificação dos encontros consonantais (SEC) (Exemplo: [bruza] ao invés de [bluza]) e simplificação de consoante final (SCF) (Exemplo: [tratoi] ao invés de [trator]) podem persistir por mais tempo (WERTZNER; OLIVEIRA, 2002; FERRANTE; VAN BORSEL; PEREIRA, 2009).

As epênteses e metáteses tendem a ser eliminadas até os cinco anos de idade (McLEOD; BLEILE, 2003). Em relação à SEC, a literatura é categórica ao apontar que este é o processo de período de eliminação mais variável e, por este motivo, há controvérsias sobre a idade em que deve ocorrer. Há trabalhos que referem eliminação aos quatro (YAVAS, 1988; CAVALHEIRO; BRANCALIONI; KESKE-SOARES, 2012), cinco (RIBAS, 2003), seis (McLEOD; BLEILE, 2003) ou sete anos (ANDRADE *et al.*, 2004). De qualquer forma, um estudo epidemiológico brasileiro recente, concluiu que aos cinco anos de idade a porcentagem de crianças que ainda apresentam o processo de SEC é de apenas 5%. Aos seis e sete anos, esta porcentagem é ainda menor, caindo para 2,15 e 0,5%, respectivamente (FERRANTE; BORSEL; PEREIRA, 2009).

2.3.2 Desvios fonológicos

O desvio fonológico (DF) é uma dificuldade de fala caracterizada por erros na percepção, produção ou organização dos sons da língua sem quaisquer causas orgânicas associadas (WERTZNER, 2004). Tais alterações também foram historicamente denominadas como dislalias e, ainda hoje, podem ser intituladas como transtornos fonológicos (WERTZNER *et al.*, 2007) e (ou) distúrbios fonológicos (WERTZNER;

AMARO; TERRAMOTO, 2005) e se manifestam sob a forma de substituições, omissões ou distorções.

De acordo com Grunwell (1990), crianças com DF apresentam desenvolvimento neuropsicomotor adequado para a idade, linguagem receptiva e expressiva satisfatórias, e sistemas cognitivo, auditivo e fonatório sem quaisquer alterações, apesar da ininteligibilidade da fala. A integridade anatomofisiológica do aparelho fonador e dos órgãos fonoarticulatórios é o que, em geral, diferencia os desvios fonológicos dos distúrbios articulatórios, estes últimos relacionados à impossibilidade da produção do som por limitações de ordem física, porém sem impacto no sistema de contrastes (YAVAS; HERNANDORENA; LAMPRECHT, 2001).

Alguns estudos vêm sendo desenvolvidos a fim de buscar associações entre os desvios fonológicos e outras alterações/dificuldades/condições apresentadas pelas crianças. Há indícios de que variáveis como sexo (CAVALHEIRO; BRANCALIONI; KESKE-SOARES, 2012), nível socioeconômico (MELLO, 2002), habilidades de Processamento Auditivo Central (PAC) (QUINTAS *et al.*, 2010), prematuridade (LAMÔNICA; PICOLINI, 2009), aspectos familiares (PAPP; WERTZNER, 2006), entre outras, possam ter alguma relação com a ocorrência de DF na população infantil. No entanto, tais evidências não são totalmente claras, uma vez que outros estudos não encontraram as associações/relações supracitadas (SHEVELL *et al.*, 2005; CAVALHEIRO; BRANCALIONI; KESKE-SOARES, 2012).

A prevalência de desvio fonológico relatada no Brasil é bastante variável. Isso ocorre porque as pesquisas são desenvolvidas com metodologias diferentes, adotando critérios de inclusão e exclusão que podem modificar consideravelmente os percentuais publicados. Foram localizados estudos que apontam prevalência entre nove e 34% (CIGANA *et al.*, 1995; ANDRADE, 1997; SILVA; LIMA; SILVEIRA, 2003; CAVALHEIRO; BRANCALIONI; KESKE-SOARES, 2012).

Um estudo epidemiológico recente, realizado com 950 crianças da cidade de Salvador, com idades entre quatro e seis anos, concluiu que a prevalência de desvio fonológico é de 9,2%. No referido estudo, houve maior prevalência de desvio fonológico em crianças do sexo masculino, corroborando os achados de outras pesquisas da área (WERTZNER; OLIVEIRA, 2002; PATAH; TAKIUCHI, 2008).

2.3.3 Desvios fonológicos e hipotireoidismo congênito

A literatura tem apontado uma possível associação entre a presença do hipotireoidismo congênito e a restrição de HT intraútero e alterações relacionadas à fala e à linguagem, partindo-se do pressuposto de que tais alterações decorram de *déficits* de inteligência e (ou) habilidades neuropsicológicas. Por isso, optou-se por apresentar, neste item, os trabalhos que relacionam o HC com diversas habilidades, a fim de ilustrar a problemática do desvio fonológico nessa população.

Fugle *et al.* (1991) avaliaram a inteligência, as habilidades motoras e comportamentais até os cinco anos de idade de crianças com HC tratadas precocemente. Participaram 57 crianças com HC e 51 sem a doença, pareadas por sexo, idade e nível socioeconômico. Não houve diferenças na avaliação de inteligência entre o grupo pesquisa e o grupo controle (GC). Pacientes com HC e controles apresentaram índices semelhantes de vocabulário, compreensão e QI verbal. No entanto, as crianças com HC apresentaram piores índices de habilidades motoras.

Um estudo desenvolvido por Rovet (1992) avaliou o neurodesenvolvimento de crianças com HC e o relacionou às variáveis referentes à etiologia e fatores interferentes no tratamento. Observou-se que o desenvolvimento de crianças com HC foi substancialmente melhor quando o diagnóstico e o início do tratamento foram mais precoces. No entanto, concluiu-se que, mesmo com o tratamento precoce, pode haver a persistência de *déficits* residuais, devido à deficiência do HT na fase intraútero e primeiras semanas de vida. O HC intraútero associado à agenesia de tireóide aumentou o risco para as alterações do neurodesenvolvimento.

Outro trabalho avaliou o desenvolvimento cognitivo e motor de crianças com HC tratadas precocemente e o relacionou às variáveis: etiologia, concentração de tiroxina no sangue no momento da triagem neonatal e idade de início do tratamento (KOOISTRA *et al.*, 1994). Foram estudadas 72 crianças com HC tratadas precocemente e 35 controles, sem HC, com idades entre sete e nove anos. Os resultados mostraram que as crianças com menores índices de tiroxina na triagem neonatal, particularmente com agenesia de tireoide, apresentam escores mais baixos de inteligência até os nove anos de idade. Para as crianças com HC grave, houve relação entre a idade de início do tratamento e os resultados da avaliação cognitiva e motora, sendo que

quanto menor a idade, melhor o desempenho da criança. Quanto à linguagem, não houve diferença entre as crianças com HC e os controles. No entanto, as crianças com agenesia de tireoide tiveram piores escores de fluência verbal quando comparadas às crianças com HC por outras etiologias e crianças sem HC. Deve-se pontuar que no referido estudo a média de idade de início de tratamento foi mais tardia do que se observa atualmente.

Rovet (1999), em um estudo longitudinal, avaliou a função neuropsicológica de crianças e adolescentes com HC identificado pelos PTN. O objetivo foi detectar possíveis *déficits* residuais, suas modificações com o passar da idade e suas implicações nas atividades cotidianas. Foram acompanhadas por vários anos 100 crianças com HC, que passaram por testes de inteligência adequados para cada idade, avaliações psicoeducacionais (na idade pré-escolar) e avaliação neuropsicológica (na adolescência). Concluiu-se que tratamento precoce e o acompanhamento adequado estão associados à função intelectual normal. A autora sugeriu que fossem realizados novos estudos, avaliando os indivíduos na fase final da adolescência e quando adultos jovens, para que se pudesse determinar o sucesso definitivo dos programas de triagem neonatal.

Em uma dissertação de mestrado, Pelaez (2005), também avaliou o desenvolvimento neuropsicológico de crianças com HC. A autora não observou diferença entre as médias de QI de crianças com HC e o grupo controle. No entanto, no subteste “Completar Figura”, as crianças com HC tiveram pior desempenho que os controles. Concluiu-se que o nível intelectual de crianças com HC está dentro da normalidade e que as variáveis com maior poder de determinação na variabilidade do QI foram escolaridade materna, T₄ pré-tratamento e idade de início de tratamento.

Outra pesquisa objetivou identificar a influência fetal, neonatal e de variáveis de tratamento em crianças com HC, com idades entre três e 18 meses (ALVAREZ *et al.*, 2004). Foram estudadas 26 crianças com HC, sem GC concomitante. Os autores constataram que o desempenho de linguagem foi melhor em crianças com valores mais elevados de T₄ antes do tratamento.

Um estudo nacional de caráter transversal buscou traçar o perfil das habilidades do desenvolvimento de crianças com HC diagnosticado e tratado precocemente, enfocando as habilidades comunicativas (GEJÃO; LAMÔNICA, 2008). Foram avaliadas

32 crianças com HC, de dois a 36 meses de idade cronológica, sem GC concomitante. Os autores não observaram influência dos dados epidemiológicos (idade, sexo, peso, idade ao diagnóstico e de início do tratamento, dose de levotiroxina no início do tratamento, valor inicial de T_4 , nível socioeconômico, entre outros) no desempenho das crianças nos testes de habilidades comunicativas. A maior parte das crianças apresentou desempenho adequado para as habilidades motoras, cognitivas, linguísticas, sociais e autocuidados. Para as crianças com alterações, observaram-se maiores *déficits* nas habilidades de linguagem (aspectos expressivos e habilidades cognitivas).

As mesmas pesquisadoras citadas no parágrafo anterior desenvolveram uma pesquisa, no ano seguinte, buscando descrever as habilidades comunicativas e psicolinguísticas de 43 crianças com HC e 25 crianças com fenilcetonúria (PKU), com idades entre um e 120 meses (GEJÃO *et al.*, 2009). Como resultados, observaram que crianças com HC e PKU apresentam risco para alterações nas habilidades de desenvolvimentos (motoras, cognitivas, linguísticas, adaptativas e sociais). Alterações sociolinguísticas foram encontradas principalmente após a idade pré-escolar. Comparando as duas doenças, pacientes com HC apresentaram maiores *déficits* cognitivos, de linguagem e cognição.

Um estudo desenvolvido por Ferreira *et al.* (2011) no estado do Mato Grosso, buscou identificar as manifestações fonoaudiológicas relatadas por responsáveis pelas crianças com HC e associá-las às variáveis referentes às idades de diagnóstico e início do tratamento. Foram incluídos 15 responsáveis por crianças de dois a sete anos, que responderam a um questionário elaborado pelas pesquisadoras. Do total, 12 (80,0%) referiram problemas de fala e (ou) linguagem (atraso no início da oralidade, fala ininteligível e (ou) trocas na fala). No referido trabalho, não foram excluídas as crianças com queixa auditiva (7,7%), o que pode ter contribuído para o alto índice de queixas de fala/linguagem. Além disso, não foi contemplado um GC, cujos dados pudessem ser comparados.

No que se refere especificamente à obtenção de dados de desvio fonológico em crianças com HC, foram encontrados apenas dois estudos, desenvolvidos pelo mesmo grupo de pesquisadores (BARGAGNA *et al.*, 1997; BARGAGNA *et al.*, 2000). Um, que buscou identificar quais as funções neuropsicológicas mais frequentemente afetadas em crianças com HC tratadas precocemente, comparadas com um GC, também incluiu a análise de dados fonológicos. Durante a pesquisa, o desenvolvimento

cognitivo das crianças com HC não se diferenciou do grupo controle. Os autores referiram, ainda que, aos três anos, 29% das crianças apresentavam distúrbio fonológico e 21% apresentavam distúrbio na linguagem expressiva. Aos cinco anos, 37,5% apresentavam distúrbio fonológico e 12,5% na linguagem expressiva. Aos sete anos, o desvio fonológico ainda foi observado em 29% das crianças. Houve relação entre o QI das crianças e o nível socioeconômico. Quanto à gravidade do HC, os distúrbios de linguagem foram mais frequentes em crianças com HC de grau severo (BARGAGNA *et al.*, 2000).

O outro estudo desenvolvido pelo grupo (BARGAGNA *et al.*, 1997) comparou o desenvolvimento neuropsicológico de duas irmãs gêmeas, sendo uma com HC precocemente tratado e a outra normal. Além disso, as irmãs foram comparadas a um grupo de 34 controles normais, com idades variando entre três meses e oito anos de idade. As irmãs foram acompanhadas longitudinalmente. Os autores observaram que o desenvolvimento de linguagem das gêmeas foi levemente atrasado em relação aos controles. Além disso, a gêmea com HC apresentou pequeno retardo de linguagem em relação à gêmea sem a doença. Aos quatro anos, a gêmea com HC apresentava distúrbio fonológico. Aos oito anos, sua fala estava adequada, sem diferenças da irmã. A criança com HC não se diferenciou do grupo controle quanto às habilidades escolares (leitura, escrita, etc.), porém apresentou piores índices que a irmã (BARGAGNA *et al.*, 1997).

Observa-se que todas as pesquisas anteriormente citadas referem pelo menos uma diferença entre as crianças com HC e as crianças sem a doença. No entanto, o foco principal ainda é dado para a avaliação neuropsicológica de forma geral, sem enfoque aprofundado, abrangente e específico dos aspectos da fala e da linguagem.

3 MÉTODOS

3.1 TIPO DE ESTUDO

Trata-se de estudo observacional, analítico, transversal e ambispectivo.

3.2 LOCAL E PERÍODO DE ESTUDO

A coleta de dados do estudo foi realizada na Unidade de Endocrinologia Pediátrica (UEP), no Serviço de Endoscopia Per Oral (EPO), no ambulatório de Dermatologia Pediátrica e no Serviço de Puericultura do HC da UFPR e na Creche Pipa Encantada, também vinculada ao hospital, no período de agosto de 2011 a dezembro de 2012. A totalidade das etapas do doutoramento (cumprimento das disciplinas, coleta de dados e redação da tese) aconteceu no período de junho de 2010 a maio de 2014.

3.3 CASUÍSTICA

3.3.1 População alvo para o grupo estudo (GC)

Na UEP, serviço de referência no tratamento de HC no Estado do Paraná, atualmente há 945 crianças cadastradas, diagnosticadas pelo programa de TN. Destas, 594 são do sexo feminino e 351 do sexo masculino, com idades entre zero e 23 anos. Com base em 474 casos de diagnóstico confirmado, 186 são portadores de ectopia de tireoide, 118 de disormonogênese, 103 de agenesia e 27 de hipoplasia de tireoide. Deste total, 481 fazem acompanhamento regular na instituição.

3.3.2 População-alvo para o grupo controle (GC)

A casuística do grupo controle foi composta por crianças dos seguintes locais: Ambulatório de Endocrinologia Pediatria Geral, Ambulatório de Dermatologia Pediátrica, Ambulatório do Serviço de Puericultura e Creche Pipa Encantada. O GC foi inserido nesse trabalho com o intuito de estabelecer comparação entre o grupo de crianças com HC e aquelas sem alterações na função tireoidiana ou outras alterações endocrinológicas, avaliadas clínica e (ou) laboratorialmente. Desta forma, do ambulatório de Endocrinologia Pediátrica Geral foram incluídas somente crianças em acompanhamento por queixas relacionadas à estatura (baixa estatura idiopática, pequenos para a idade gestacional ou queixa não confirmada de baixa estatura) ou ao peso (baixo peso ou sobrepeso), porém com avaliação laboratorial normal e sem uso crônico de qualquer medicação.

3.4 CRITÉRIOS DE INCLUSÃO

3.4.1 Inclusão no grupo de estudo (GE)

Foram incluídos os sujeitos:

- a) com hipotireoidismo congênito;
- b) de ambos os sexos;
- c) com idade cronológica igual ou superior a 3 anos;
- d) pré-puberes (critérios de Tanner, 1962);
- e) acompanhados regularmente na UEP (uso regular de medicação/reposição hormonal desde o diagnóstico na TN);
- e) cujos responsáveis assinaram ao Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE).

3.4.2 Inclusão no grupo controle (GC)

Foram incluídos os sujeitos:

- a) sem sinais clínicos e(ou) laboratoriais de disfunção tireoidiana;
- b) de ambos os sexos;
- c) com idade cronológica igual ou superior a 3 anos;
- d) pré-puberes (critérios de Tanner, 1962);
- e) acompanhados nos ambulatórios de Endocrinologia Pediátrica Geral da UEP, Dermatologia Pediátrica e Puericultura ou alunos do Centro de Educação Infantil Pipa Encantada;
- f) cujos responsáveis assinaram ao Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE).

3.5 CRITÉRIOS DE EXCLUSÃO

3.5.1 Exclusão no grupo de estudo (GE)

Foram adotados como critérios de exclusão no GE:

- a) diagnóstico de hipotireoidismo transitório (HCT);
- b) idade cronológica de início de tratamento superior a três meses;
- c) não colaboração da criança às avaliações de voz e fala;
- d) diagnóstico ou suspeita de deficiência mental, em qualquer grau, e (ou) histórico de alteração do desenvolvimento neuropsicomotor;
- e) doenças neurológicas ou síndromes genéticas associadas ao HC;
- f) histórico de intercorrências pré, peri ou pós-natais;
- g) características faciais e (ou) informações familiares sugestivas de respiração oral e (ou) alterações miofuncionais isométricas/isotônicas;
- h) frênulo lingual encurtado e (ou) anteriorizado;
- i) gripes, resfriados ou obstruções agudas de vias aéreas por quaisquer motivos;
- j) crises alérgicas (rinite/sinusite) ou respiratórias (asma/bronquite) há menos de 30 dias;

- k) queixa auditiva;
- l) histórico de acompanhamento fonoaudiológico para distúrbio de voz e (ou) fala;

3.5.2 Exclusão no grupo controle (GC)

Foram adotados como critérios de exclusão no GC:

- a) não colaboração às avaliações de voz e fala;
- b) diagnóstico ou suspeita de deficiência mental, em qualquer grau, e (ou) histórico de alteração do desenvolvimento neuropsicomotor;
- c) doenças neurológicas ou síndromes genéticas;
- d) histórico de intercorrências pré, peri ou pós-natais;
- e) teste de triagem neonatal positivo;
- f) histórico ou sinais e sintomas clínicos de hipotireoidismo adquirido;
- g) características faciais e (ou) informações familiares sugestivas de respiração oral e (ou) alterações miofuncionais isométricas/isotônicas;
- h) frênulo lingual encurtado e (ou) anteriorizado;
- i) gripes, resfriados ou obstruções agudas de vias aéreas por quaisquer motivos;
- j) crises alérgicas (rinite/sinusite) ou respiratórias (rinite/sinusite) há menos de 30 dias;
- k) queixa auditiva;
- l) histórico de acompanhamento fonoaudiológico para distúrbio de voz e (ou) fala.

3.6 POPULAÇÃO DE ESTUDO

3.6.1 População do grupo de estudo (GE)

Das 945 crianças que constituíram a casuística, foram excluídos:

- 193 pacientes com idade cronológica inferior a três anos;
- 144 pacientes com HCT e que, portanto, receberam alta médica;
- 179 pacientes que foram transferidos para outros serviços de atendimento;
- 37 pacientes que abandonaram o tratamento;
- 25 pacientes com outras doenças crônicas;
- 13 pacientes que foram a óbito;
- 174 pacientes púberes (SILVEIRA, 2012).

Restaram, assim, 180 pacientes elegíveis para a pesquisa.

3.7 AMOSTRA E TÉCNICA DE AMOSTRAGEM

3.7.1 Amostra do grupo de estudo (GE)

Foram selecionados 100 sujeitos de forma não probabilística, por conveniência. As crianças foram recrutadas e avaliadas em dias de consulta na UEP. Semanalmente, no dia de ambulatório, a pesquisadora realizou uma seleção dos elegíveis a partir da lista de agendamento, consultando os dados pessoais e o histórico do paciente no sistema do Hospital de Clínicas. As crianças selecionadas foram avaliadas por ordem de chegada à medida que os responsáveis concordassem em participar do estudo.

3.7.2 Amostra do grupo controle (GC)

Participaram 100 crianças, recrutadas também de forma não probabilística por conveniência. A coleta nos ambulatórios mencionados ocorreu no dia da consulta das crianças nos ambulatórios de dermatologia, endocrinologia pediátrica geral e puericultura, seguindo a mesma forma de execução do GE. Na creche, os pais foram informados da pesquisa por meio de carta-convite e devolveram o TCLE assinado à escola. Assim, em dias previamente autorizados pela direção, a pesquisadora e o orientador compareceram às dependências da creche para realização da avaliação clínica (orientador) e coleta de dados (pesquisadora).

3.8 HIPÓTESE

Considerando a natureza associativa da hipótese de estudo, as variáveis referentes à alteração de voz e ao desvio fonológico foram posicionadas como variáveis dependentes e o HC como variável independente principal. As hipóteses de nulidade e alternativa foram assim construídas:

- H_0 : crianças com e sem HC apresentam resultados semelhantes nas avaliações vocal, fonológica e laringológica;
- H_1 : crianças com HC apresentam maior ocorrência de alterações vocais, fonológicas e laringológicas do que crianças do GC.

3.9 VARIÁVEIS DE ESTUDO

3.9.1 Variável dependente

A variável dependente, ou seja, alteração vocal e fonológica foi avaliada por:

- a) dados da anamnese fonoaudiológica (queixa de voz e (ou) fala, dificuldade escolar);
- b) avaliação perceptivo-auditiva da voz (resultado da triagem vocal);
- c) avaliação acústica da voz;
- d) qualidade de vida em voz (avaliação feita pelos pais);
- e) avaliação laringológica;
- f) avaliação fonológica.

3.9.2 Variáveis independentes

A variável independente, ou seja, o hipotireoidismo congênito foi avaliado por:

- a) idade de início do tratamento;
- b) etiologia do HC;
- c) gravidade do HC;
- d) qualidade do tratamento até os três anos de vida;
- e) resultados dos testes psicológicos;
- f) avaliação da função tireoidiana no dia da avaliação.

3.9.3 Variáveis interferentes

Para a avaliação vocal:

- a) problemas alérgicos - rinite/sinusite;
- b) problemas respiratórios – bronquite/asma;

- c) problemas gástricos – gastrites/refluxo gastresofágico;
- d) hábitos vocais abusivos.

Para a avaliação fonológica:

- a) período de gestação – prematuridade;
- b) ser aluno da Creche Pipa Encantada.
- c) nível socioeconômico e grau de escolaridade dos pais⁴

3.10 PROCEDIMENTOS

3.10.1 Verificação dos critérios de elegibilidade

Para a observação prévia dos critérios de inclusão, anteriormente ao início da coleta, os responsáveis responderam a um *check-list*, as crianças passaram por uma triagem feita pela pesquisadora, e os dados clínicos foram coletados do prontuário (Apêndice 1). Para as crianças que preencheram os critérios de inclusão, os responsáveis foram convidados a participar do estudo e orientados sobre o seu objetivo. Após o aceite de participação, a coleta de dados foi iniciada.

Para as crianças do GC foram considerados os dados das avaliações clínicas realizadas nos ambulatórios de origem. Assim, embora não tenham sido realizados exames laboratoriais neste grupo (devido à orientação do Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos), todas as crianças incluídas eram clinicamente eutireoidianas, sem quaisquer queixas e (ou) sinais/sintomas referentes à alterações na função da glândula tireoide. Para as crianças recrutadas na creche, houve uma avaliação clínica individual realizada por um médico endocrinologista (orientador do trabalho), que descartou quaisquer sinais/sintomas de alterações na função tireoidiana.

⁴ Embora tenha-se partido do pressuposto de que o nível socioeconômico seja semelhante entre as crianças, uma vez que são usuárias de um mesmo serviço público de saúde, estas variáveis não foram analisadas no presente estudo.

Quanto à avaliação do estadiamento puberal, as crianças passaram por avaliação médica, de acordo com os critérios Tanner (1962), no dia da avaliação fonoaudiológica. Foram incluídas somente as crianças pré-púberes, ou seja, meninas sem tecido mamário (M1) e pilificação pubiana ausente (P1); e meninos com testículos e pênis em estágio infantil (T1, T2 ou T3) e pilificação pubiana ausente (P1).

3.10.2 Anamnese fonoaudiológica

Após a verificação dos critérios de elegibilidade para a pesquisa, foi realizada a anamnese fonoaudiológica, com instrumento de coleta elaborado pela pesquisadora (Apêndice 2). Além dos dados de identificação (data de nascimento, sexo, idade, ano escolar), os responsáveis foram questionados sobre possíveis queixas vocais e (ou) fonológicas, dificuldade escolar (apenas para as crianças do 1.º ano escolar em diante), dificuldade de atenção/memória e período de início da oralidade. Também foi verificada a presença ou ausência das variáveis interferentes para a avaliação vocal (problemas alérgicos, respiratórios, gástricos, hábitos vocais abusivos) e fonológica (período gestacional e local de recrutamento).

Os hábitos vocais foram considerados abusivos quando os responsáveis referiram ocorrência de abusos em mais de três perguntas do protocolo (respostas da coluna da direita). Foram questionados oito hábitos de natureza interna, ou seja, relacionados ao próprio comportamento vocal. O quadro 1 contém a parte do Apêndice 2 sobre o tema:

HÁBITOS	FREQUÊNCIA	OCORRÊNCIA
Fala	Pouco	Muito
Fala	Baixo	Alto
Fala	Devagar	Rápido
Grita	Pouco	Muito
Tosse/pigarreia	Pouco	Muito
Chora	Pouco	Muito
Canta	Pouco	Muito
Faz imitações sonoras	Pouco	Muito

QUADRO 1 - QUESTÕES DA ANAMNESE FONOAUDIOLÓGICA REFERENTES AOS HÁBITOS ABUSIVOS RELACIONADOS AO COMPORTAMENTO VOCAL

FONTE: O autor (2014)

3.10.3 Avaliação vocal

A avaliação vocal foi realizada individualmente, na companhia do responsável. O material de coleta compreendeu a emissão da vogal sustentada "é" e contagem de números de um a 10, em voz e fala habitual. As amostras foram gravadas em arquivo de som *wave*, em *notebook* da marca Dell[®], com placa de som adequada (Interface Andrea Pure Audio), microfone unidirecional de cabeça, posicionado a aproximadamente um centímetro do canto da boca do sujeito (posição diagonal). Caso houvesse dificuldade de calibração devido à *loudness* apresentada pela criança (muito forte ou muito fraca), o microfone era reposicionado em local onde o ganho fosse adequado (nível suficiente de sinal, ao redor de dois terços da janela de áudio, como indicado no programa VOXMETRIA[®] (CTS Informática, versão 2.5).

Para a edição dos arquivos de áudio, foram desprezados trechos iniciais e finais das gravações, que geralmente correspondem a um período de instabilidade natural da voz, mantendo-se o trecho médio, com duração entre três e quatro segundos. Devido às pequenas diferenças na intensidade do sinal durante a captação das vozes, as amostras foram padronizadas seguindo calibração manual, no programa Audacity[®] (versão 2.0.3).

3.10.3.1 Avaliação perceptivo-auditiva da voz

Após edição, as vozes foram exportadas para o aplicativo Dropbox[®] (Dropbox Inc., 2007), em pastas individuais para cada criança. As pastas foram identificadas apenas por um número e ordenadas casualmente, misturando-se as crianças dos grupos estudo e controle. Vinte por cento das amostras foram repetidas para posterior análise estatística de concordância dos juízes.

Foram convidados três fonoaudiólogos especialistas em voz, com experiência na área de disfonia infantil, para que fizessem individualmente a avaliação perceptivo-auditiva das amostras vocais. As análises foram feitas considerando o grau geral de desvio vocal (G), rugosidade (R) e soprosidade (S) da alteração vocal por meio de

escala numérica de três pontos, considerando como 0 indica ausência de desvio, 1 alteração discreta, 2 alteração moderada e 3 alteração intensa (Apêndice 3).

Após análise dos juízes, foi realizado o teste de Kappa, que identificou baixa concordância, tanto intra quanto interavaliadores (Anexo 1). Tal resultado provavelmente seja uma condição inerente à avaliação perceptivo-auditiva, devido à sua complexidade e características próprias da audição humana (ROY *et al.*, *in press*). Por isso, optou-se por realizar uma nova análise, com a participação de quatro especialistas, que ouviram os registros e formularam uma única avaliação, por meio de consenso. Para este momento as amostras foram reeditadas, sendo que a emissão sustentada (vogal) e a emissão encadeada (números) foram apresentadas em um único arquivo de áudio, uma na sequência da outra. Isso ocorreu porque, na etapa anterior, em que os arquivos foram apresentados separadamente para duas avaliações distintas, as análises foram ainda mais difíceis para os juízes. Por isso, com este agrupamento, buscou-se minimizar a dificuldade da avaliação-perceptivo-auditiva inerente às vozes infantis e, além disso, seguir as recomendações atuais sobre este tipo de análise, quanto à importância da produção de apenas uma avaliação do desvio vocal, considerando todos os tipos de amostras produzidas pelo indivíduo (ASHA, 2003).

Todos os juízes participantes do consenso tinham experiência na área de voz, com atuação clínica e em pesquisa por uma média de 15 anos. Os avaliadores reuniram-se por quatro vezes e analisaram aproximadamente 60 vozes em cada encontro. Para essa análise, foram solicitados a avaliar o G do desvio vocal, para a emissão sustentada e encadeada, também em escala numérica de 0 a 3 (ausente, discreto, moderado e intenso). Além disso, foram orientados a avaliar se, em uma situação de triagem vocal perceptivo-auditiva, a criança passaria ou falharia, considerando as duas emissões (Apêndice 4).

Durante a análise das vozes, os juízes do consenso tiveram acesso à informação de que a pesquisa se referia a crianças com e sem hipotireoidismo congênito e ao sexo e idade de cada uma delas. Contudo, os arquivos foram destituídos de qualquer dado de identificação. Foram repetidas 10% das amostras para posterior teste de concordância. As marcações dos resultados foram feitas em protocolo específico.

Após tabulação dos dados, foi feito um novo teste estatístico de Kappa. Os resultados indicaram boa concordância intraconsenso apenas para o parâmetro

"triagem vocal" (decisão clínica de passa-falha; coeficiente de 0,75), de acordo com o teste de Kappa (Anexo 2). Os parâmetros G da vogal e G da contagem de números tiveram concordância regular e ruim (0,50 e 0,29, respectivamente). Por este motivo, optou-se por manter neste trabalho, para a análise perceptivo-auditiva, apenas o julgamento do consenso em relação ao resultado da triagem vocal, indicando se a criança passaria ou falharia, considerando a decisão após a análise das duas tarefas de fala (vogal sustentada e contagem de números).

3.10.3.2 Avaliação acústica da voz

Para a análise acústica, foi utilizado o programa VOXMETRIA[®] (CTS Informática, versão 2.5), a partir do qual foram extraídas as seguintes medidas (Apêndice 5):

- Frequência fundamental média (F_0): corresponde ao número de ciclos glóticos produzidos pelas pregas vocais em um segundo (BEHLAU *et al.*, 2001). Para crianças, espera-se valores médios de F_0 próximos 250Hz (BEHLAU; TOSI; PONTES, 1985; STEFFEN *et al.*, 1997; HORNOF; WHALEN, 2005).
- *Jitter*: corresponde à variabilidade da F_0 em curto prazo, considerando os ciclos glóticos, que estão um na sequência do outro. Mensura o quanto um ciclo é diferente do seu antecessor de acordo com a perturbação de frequência (BEHLAU *et al.*, 2001). Foi utilizado o parâmetro de normalidade do software VOXMETRIA[®], que é de 0,0 a 0,6%.
- *Shimmer*: corresponde à perturbação de amplitude em curto prazo, que indica pequenas variações no controle da saída do ar pelas PPVV e na intensidade da emissão (BEHLAU *et al.*, 2001). Foi utilizado o parâmetro de normalidade do software VOXMETRIA[®], que é de 0,0 a 6,5%.
- Proporção *Glottal to Noise Excitation* (GNE): corresponde à medida que calcula o ruído em uma série de pulsos, de acordo com a oscilação produzida pelas pregas vocais (MICHAELIS; GRAMS; STRUBE, 1997). É realizada a análise dos componentes aperiódicos do sinal sonoro, calculando o ruído por meio da subtração do componente harmônico do

sinal sonoro. Foi utilizado o parâmetro de normalidade do software VOXMETRIA[®], que é de 0,50 a 1,00.

- Diagrama de Desvio Fonatório (DDF): corresponde à análise da periodicidade do sinal e o conteúdo de ruído contido nele. É realizada análise bidimensional, que agrupa os parâmetros *jitter*, *shimmer*, correlação *Waveform Matching Coefficient* (MWC) (eixo horizontal) e proporção GNE (eixo vertical). Desta forma, é uma análise bastante completa, que permite a perda de poucos dados acústicos. Após a emissão da vogal, o diagrama é formado em um quadro composto por dois eixo (MADAZIO; LEÃO; BEHLAU, 2011). No programa VOXMETRIA[®], há a indicação do local do quadro correspondente à normalidade vocal (Figura 2). Para análise dos dados, o DDF foi considerado normal (quando a distribuição completa encontrava-se na área em cinza claro) ou alterado (quando pelo menos um ponto encontrava-se fora da área clara).

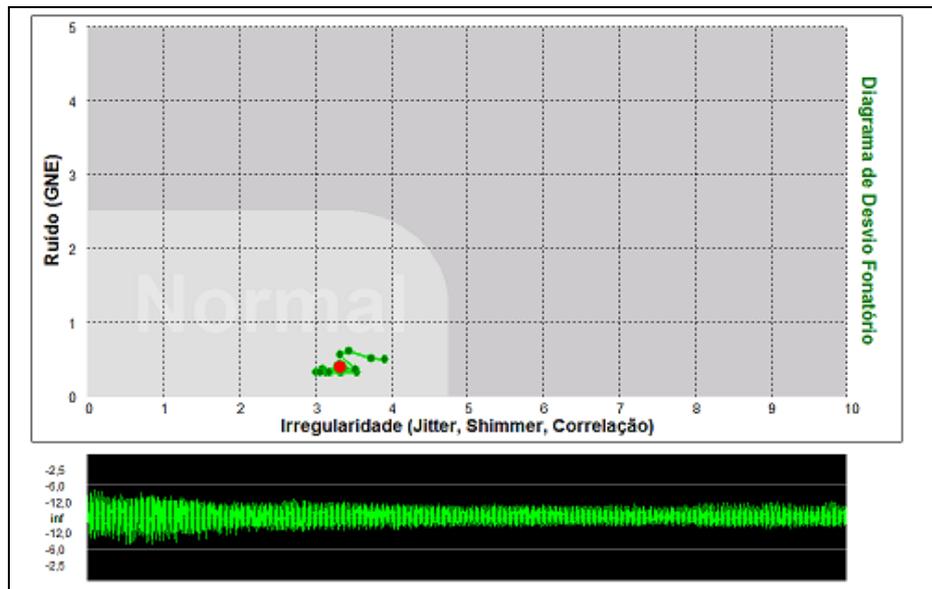


FIGURA 2 - EXEMPLO DE DISTRIBUIÇÃO DO SINAL SONORO NO DIAGRAMA DE DESVIO FONATÓRIO INDICANDO NORMALIDADE

FONTE: O autor (2014)

NOTA: VOXMETRIA[®] (CTS Informática, versão 2.5).

3.10.3.3 Avaliação da qualidade de vida em voz

No que se refere aos possíveis impactos de um problema de voz na qualidade de vida do sujeito, foi aplicado o protocolo Qualidade de Vida em Voz Pediátrico (QVV-P) (BOSELEY *et al.*, 2006) que foi traduzido e validado para a língua portuguesa por Ribeiro, De Paula e Behlau (*in press*) (Anexo 3). Trata-se de um instrumento composto por 10 questões, subdivididas no domínio Físico (DF-QVVP) e Socioemocional (DSE-QVVP), produzindo também um escore Total (DT-QVVP). O DF-QVVP refere-se às impossibilidades causadas pela disfonia às atividades do dia a dia (Exemplo: *Meu filho tem dificuldades em falar forte ou ser ouvido em lugares barulhentos*); o DSE-QVVP elenca dificuldades emocionais e (ou) psicológicas causadas pela presença da disfonia (Exemplo: *Às vezes meu filho fica ansioso ou frustrado por causa da sua voz*); e o escore total considera as respostas a todas as perguntas (DT-QVVP).

O instrumento foi aplicado pela pesquisadora e os responsáveis respondiam oralmente após a leitura da questão e das alternativas de resposta. Em caso de dificuldade de compreensão, as frases eram repetidas quantas vezes fossem necessárias, tomando-se o devido cuidado para não se induzir nenhuma resposta ou sugerir uma interpretação do conteúdo por parte da pesquisadora. As respostas eram assinaladas em escala de Likert de 5 pontos, considerando 0 indicativo de "não é um problema", 1 "é um problema pequeno", 2 "é um problema moderado", 3 "é um problema grande", 4 "é um problema muito grande". Os escores do protocolo são obtidos por meio de fórmula específica (Anexo 4), e quanto mais próximos estiverem de 100, melhor é a qualidade de vida e voz.

3.10.4 Avaliação laringológica

As crianças foram encaminhadas para a realização de avaliação laringológica no Serviço de Endoscopia Per Oral do Hospital de Clínicas da UFPR.

As avaliações foram realizadas por dois residentes de Otorrinolaringologia (ORL) e supervisionadas pelo Prof. Dr. Elmar Allen Fugmann, médico responsável pelo Serviço. A pesquisadora acompanhou todas as avaliações.

A avaliação foi feita preferencialmente por meio de Laringoscopia, por meio do laringoscópio 8.0 mm - 70° autoclavável Storz® (Karl Storz, Tuttlingen, Alemanha). Para os casos de náusea ou reflexo de vômito exacerbado, foi utilizada anestesia tópica com xilocaína 2% *spray*. Se, ainda assim, não fosse possível fazer o exame, a avaliação era feita por Nasofibrolaringoscopia, por meio Nasofibrolaringoscópio - Pentax - FNL-10RP3 (KayPentax, Nova Iorque, USA).

Foram coletadas as seguintes informações: mobilidade das PPVV (normal ou reduzida), presença de lesão em PPVV (sim ou não), tipo de lesão em PPVV (em casos de presença de lesão), dados de coaptação glótica (completa ou incompleta), tipo de fenda glótica (em casos de coaptação incompleta), dados de envolvimento supraglótico (sim ou não) (Apêndice 6). Os dados foram discutidos entre toda a equipe, que emitia um parecer por consenso, e assinalados em protocolo desenvolvido especificamente para a pesquisa.

As avaliações laringológicas foram realizadas em datas previamente agendadas pela pesquisadora junto à família. O agendamento era feito no dia da avaliação fonoaudiológica de acordo com a disponibilidade da família e não deveria ultrapassar os 15 dias subsequentes, para que houvesse compatibilidade entre os dados vocais e laringológicos.

Das 84 crianças que compareceram à avaliação, 14 não colaboraram para a realização do exame e, portanto, não puderam ter os dados laringológicos coletados. Assim, foram efetivamente realizadas 70 avaliações, sendo 30 crianças do GE e 40 crianças do GC.

3.10.5 Avaliação fonológica

Para a avaliação fonológica, foi utilizada a Prova de Fonologia do Teste de Linguagem Infantil ABFW (ANDRADE *et al.*, 2004). O objetivo do teste é verificar o inventário fonético, bem como identificar e categorizar os processos fonológicos

apresentados pela criança e pode ser aplicado em crianças de três a doze anos. Para testagem, são utilizadas duas provas: a de nomeação de 34 figuras (Anexo 5) e a de imitação de 39 vocábulos (Anexo 6), ambas balanceadas foneticamente:

- Prova de Nomeação: Foram apresentadas 34 figuras e, para cada uma delas, a pesquisadora pedia à criança que dissesse o nome da figura mostrada. As figuras fazem parte do fichário do ABFW e foram posicionadas próximas à criança, possibilitando uma visão adequada. Caso a criança não nomeasse ou nomeasse inadequadamente a figura, a pesquisadora a nomeava e continuava a apresentação das demais. Depois das cinco figuras subsequentes, a figura não nomeada era novamente apresentada, solicitando mais uma vez que a criança a nomeasse. Caso ainda não nomeasse a figura ou a nomeasse de forma inadequada, tal fato era registrado na folha de respostas. Todas as respostas foram registradas no formulário apropriado à transcrição fonética (Anexo 5). As figuras utilizadas são disponibilizadas pelo próprio instrumento.
- Prova de Imitação: A criança deveria repetir 39 vocábulos ditos pela pesquisadora. Caso não o fizesse ou a emissão fosse ininteligível, a pesquisadora repetia novamente o vocábulo ao final da lista e solicitava a repetição por parte da criança. Os registros referentes à imitação também foram feitos em formulário destinado à transcrição fonética (Anexo 6).

As duas provas foram gravadas em áudio e posteriormente ouvidas pela pesquisadora, a fim de que as eventuais alterações fonológicas observadas no momento da coleta fossem confirmadas. Após transcrição dos resultados das provas de nomeação e imitação, foi realizada a análise tradicional (elaboração do inventário fonético referente às posições de sílaba, inicial e final, sendo registrados os acertos, as omissões, as adições e as distorções). Caso fossem identificados um ou mais sons da fala com produção inadequada, prosseguia-se para a análise dos processos fonológicos, que corresponde ao objeto de estudo da presente pesquisa.

A análise de processos fonológicos verifica quais regras fonológicas o sujeito está simplificando. No Teste ABFW são descritos 14 processos, sendo 10 deles frequentemente observados durante o desenvolvimento e quatro deles não. O teste permite, ainda, que sejam acrescentados outros processos observados. Na presente pesquisa, foi acrescentado o processo 15, referente à frontalização de vibrante

posterior (substituição considerada regionalismo, frequentemente observada em falantes de algumas comunidades do interior do estado do Paraná). O quadro 2 contém as informações sobre todos os processos analisados.

PROCESSO FONOLÓGICO E SUA DESCRIÇÃO	EXEMPLO
1. Redução de sílaba: quando há perda de uma das sílabas do vocábulo	[pato] - [pa]
2. Harmonia consonantal: um som da fala sofre a interferência de um vizinho que o antecede ou o segue	[makakU] - [kakaku]
3. Plosivação de fricativa: o modo de articulação dos som das fricativas é transformado em plosivo	[sapU] - [tapu]; [vaka] - [baka]
4. Posteriorização para velar: um som da fala plosivo linguodental se transforma em um plosivo velar	[tatU] - [kaku]; [dosi] - [gosi]
5. Posteriorização para palatal: há alteração na zona de articulação transformando um som da fala fricativo palatal em um som da fala fricativo alveolar	[sapU] - [ʃapu]; [zebra] - [ʒebra]
6. Frontalização de velar: um som da fala plosivo velar transforma-se em um plosivo linguo-alveolar	[karu] - [tavu]; [gaRfU] - [garfu]
7. Frontalização de palatal: o falante anterioriza a produção de uma consoante fricativa palatal, transformando-a geralmente numa fricativa alveolar	[ʃave] - [save]; [ʒelu] - [zelu]
8. Simplificação de líquida: esse processo inclui a substituição, a semivocalização e a omissão das vibrantes	[kaa] - [kala] ou [kaya]; [bolU] - [boiu] ou [boru]
9. Simplificação do encontro consonantal: o falante elimina um ou mais membros do encontro, em geral, a consoante líquida. Esse processo é aplicado tanto às estruturas consoante + /l/ como consoantes + /r/	[pratU/ - [patu] ou [platu]; [bluza] - [buza] ou [bruza]
10. Simplificação de consoante final: o falante elimina ou substitui a consoante final do vocábulo ou da sílaba, considerando-se a estrutura silábica CVC	[tãbor] - [tãbo] ou [tãboy]; [paSta] - [pata]
11. Sonorização de plosiva: quando um som da fala plosivo surdo é substituído pelo seu correspondente sonoro	[patU] - [badu]; [karu] - [garu]
12. Sonorização de fricativa: quando um som da fala fricativo surdo é substituído pelo seu correspondente sonoro	[faka] - [vaka]; [sapU] - [zapu]
13. Ensudercimento de plosiva: quando um som da fala plosivo sonoro é substituído pelo seu correspondente surdo	[bolU] - [polu]; [dedU] - [tetu]
14. Ensudercimento de fricativa: quando um som da fala fricativo sonoro é substituído pelo seu correspondente surdo	[vazU] - [fasu]; [ʒakarɛ] - [ʃalarɛ]
15. Outro: Frontalização de vibrante posterior: substituição do vibrante posterior /R/ pelo vibrante anterior /r/	/kaRU/ - [karu]; [KaRosa] - [Karosa]

QUADRO 2 - DESCRIÇÃO E EXEMPLIFICAÇÃO DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS

FONTE: Andrade *et al.* (2004) – ABFW Teste de Linguagem Infantil

NOTA: Processos de 1 a 10: comumente observados durante o desenvolvimento; Processos de 11 a 15: não comumente observados durante o desenvolvimento.

Em um protocolo de marcação específico, são descritos os processos apresentados tanto nas provas de nomeação quanto de imitação (Anexos 7 e 8), para posterior cálculo da produtividade. Foram considerados produtivos os processos cuja frequência foi superior a 25,0%, de acordo com o número total de ocorrências durante o teste, nas provas de nomeação e imitação (Anexo 9). É importante esclarecer que todos os processos ocorrem pelo menos quatro vezes durante o teste e que em uma única palavra pode ocorrer mais de um processo.

Os processos produtivos foram identificados e tabulados. Além disso, foi feita a observação sobre a normalidade ou anormalidade da ocorrência de cada processo de acordo com a idade da criança, de acordo com os parâmetros adotados pelo

próprio teste (Quadro 3). Assim, além do processo ser classificado como produtivo ou não, ele foi classificado como "normal" ou "anormal" de acordo com o período do desenvolvimento em que a criança se encontrava.

PROCESSO FONOLÓGICO E SUA DESCRIÇÃO	ELIMINAÇÃO DO USO PRODUTIVO
1. Redução de sílaba	2:6 anos
2. Harmonia consonantal	2:6 anos
3. Plosivação de fricativa	2:6 anos
4. Posteriorização para velar	3:6 anos
5. Posteriorização para palatal	4:6 anos
6. Frontalização de velar	3:0 anos
7. Frontalização de palatal	4:6 anos
8. Simplificação de líquida	3:6 anos
9. Simplificação do encontro consonantal	7:0 anos
10. Simplificação de consoante final	7:0 anos
11. Sonorização de plosiva	-
12. Sonorização de fricativa	-
13. Ensudercimento de plosiva	-
14. Ensudercimento de fricativa	-
15. Outro: Frontalização de vibrante posterior	-

QUADRO 3 - IDADES ESPERADAS PARA ELIMINAÇÃO DOS PROCESSOS PRODUTIVOS (PARÂMETROS DE NORMALIDADE)

FONTE: Andrade *et al.* (2004) – ABFW Teste de Linguagem Infantil

NOTA: Os processos de 11 a 15 não devem ocorrer em nenhuma fase do desenvolvimento.

As crianças que não apresentaram nenhum processo fonológico produtivo foram caracterizadas como tendo a aquisição completa do sistema fonológico. As crianças que apresentaram um ou mais processos produtivos foram caracterizadas como tendo aquisição incompleta do sistema fonológico. O desvio fonológico foi atribuído às crianças que apresentaram um ou mais processos produtivos e anormais em qualquer uma das provas [imitação e (ou) nomeação].

Para análise de processos de acordo com sua normalidade foi utilizado o número total de crianças participantes ($n = 200$). Para a análise de cada processo individualmente e a comparação de sua produtividade entre os grupos GC e GE, foi realizado o controle das variáveis sexo e idade (em anos). O pareamento foi feito considerando-se os seguintes aspectos:

1. Identificação de quantos pares poderiam ser formados com cada agrupamento de sexo e idade (Exemplo: pares de meninas de 5 anos, pares de meninos de 5 anos, e assim por diante);
2. Identificação do grupo (GC ou GE) que apresentava um menor número de crianças naquele determinado agrupamento;
3. Seleção de cada uma das crianças deste grupo que tinha menos ocorrências, de forma aleatória, por sorteio, e identificação da criança

mais semelhante a ela no grupo de maior ocorrência, considerando os seguintes aspectos:

- a) Idade mais próxima em meses – cada criança teve uma diferença de no máximo quatro meses com o seu par correspondente;
- b) Caso no outro grupo houvesse duas crianças com as mesmas características de idade (em meses), era adotado o parâmetro escolaridade (série escolar).
- c) Caso houvesse empate também em relação à escolaridade, era feito um sorteio entre as duas crianças e, assim, definido quem faria parte do par.

Seguindo os critérios estabelecidos acima, foram selecionadas 128 crianças, ou seja, 64 pares (considerando GC e GE) controlados de acordo com sexo e faixa etária.

3.10.6 Dados de avaliação e tratamento médico das crianças do GE

A história clínica foi obtida por meio da análise do prontuário das crianças do GE. Foram coletadas as informações sobre: idade de início do tratamento para o HC (em dias), etiologia do HC, gravidade da doença no momento do diagnóstico, qualidade do tratamento durante os três primeiros anos de vida, resultados da função tireoidiana (valores de T_4 , T_4 livre e TSH) no dia da coleta de dados para esta pesquisa e resultados das análises neuropsicológicas realizadas no serviço.

A etiologia do HC foi classificada de acordo com a cintilografia e ecografia da tireoide, realizadas após os dois anos e seis meses de idade. As possibilidades etiológicas do HC são: agenesia de tireoide, hipoplasia de tireoide, ectopia de tireoide e disormonogênese.

Para classificação da gravidade da doença no momento do diagnóstico foi utilizado como parâmetro o T_4 total inicial inferior ou superior que $2,50\mu\text{g/dL}$ (GRANT *et al.*, 1992; DUBUIS *et al.*, 1996).

Para análise da qualidade do tratamento médico durante os três primeiros anos de vida, foram levantados todos os resultados de T_4 , T_4 livre e TSH obtidos nesse período. A partir disso, cada um dos resultados foi caracterizado como normal

ou alterado de acordo com os parâmetros de normalidade descritos na literatura (Quadro 4).

IDADE	T ₄ ⁽¹⁾		T ₄ L ⁽¹⁾		TSH ⁽²⁾	
	Normal	alterado	normal	alterado	normal	alterado
Até três anos de idade	≥ 10	< 10	≥ 1,4	< 1,4	≤ 5	≥ 5
Após três anos de idade e pré-púbere ⁽³⁾	6 -12	< 6 ou > 12	0,71 - 1,85	< 0,71 ou > 1,85	0,49 - 4,67	< 0,49 ou > 4,67

QUADRO 4 - VALORES DE REFERÊNCIA DE T₄, T₄ LIVRE E TSH

FONTES: (1) American Academy of Pediatrics (2006); (2) Rastolgi e La Franchi (2010); (3) Laboratório do Hospital de Clínicas/UFPR

Na sequência, foi obtida a porcentagem de resultados alterados durante o período, para cada um dos exames. Durante os três primeiros anos de vida, as crianças atendidas na UEP passam por aproximadamente 16 avaliações laboratoriais da função tireoidiana. De qualquer forma, para que o resultado desta variável pudesse ser computado, deveria haver no prontuário o registro de pelo menos cinco valores do exame em questão (T₄, T₄ livre e TSH) durante o período. O resultado desta análise, portanto, foi expresso em porcentagem de valores alterados.

Os dados referentes aos resultados de T₄, T₄ livre e TSH obtidos no dia da coleta de dados deste estudo referem-se aos valores exatos disponibilizados pelo laboratório. Como análise adicional, os resultados também foram categorizados como normais ou alterados de acordo com os parâmetros adotados pelo Laboratório de Análises Clínicas do Hospital de Clínicas da UFPR (Quadro 4).

Os resultados das avaliações neuropsicológicas foram coletados junto à Psicóloga do Serviço. Periodicamente, as crianças com HC passam por uma bateria de testes.

Aos 12, 24 e 36 meses, os pacientes passam pelo teste *Cognitive Adaptive Test (CAT)/Clinical Linguistic and Auditory Milestone Scale (CLAMS)* – CAT/CLAMS, que juntos geram um quociente de cognição (CDC) (ACCARDO; CAPUTE, 2005). O CAT avalia a habilidade de resolução de problemas visuais-motores e o CLAMS, por meio de entrevista com os pais, avalia as habilidades de linguagem receptiva e expressiva. Consideram-se normais valores iguais ou superiores a 80 pontos em cada um dos testes. Nesta pesquisa, CAT, CLAMS e CDC foram considerados normais quando todas as avaliações (12, 24 e 36 meses) tiveram resultados iguais ou superiores a 80 pontos e alterados quando os escores foram inferiores a 80 pontos

em uma ou mais avaliações. Foram incluídas nesta análise somente as crianças que passaram por pelo menos duas das três avaliações. Buscou-se observar se crianças com um ou mais resultados alterados apresentavam mais dificuldades relacionadas ao desenvolvimento fonológico.

Ainda, em relação aos testes neuropsicológicos, em idade pré-escolar e escolar os sujeitos com HC passam pelas escalas americanas de inteligência de Wechsler: *Preschool and Primary Scale of Intelligence* (WPPSI-R ou W-R) (1989) e *Intelligence Scale for Children* (WISC-III ou W-III) (1991). O W-III foi adaptado para o português brasileiro (FIGUEIREDO; PINHEIRO; NASCIMENTO, 1998). Os resultados destes testes são expressos da seguinte forma: Quociente Intelectual (QI) de 110 a 119 – média superior (MS); QI de 90 a 109 – média (M); QI 80 a 89 – média inferior (MI); QI de 70 a 79 – limítrofe (L); QI \leq 69 – dificuldade intelectual/funcionamento intelectual baixo (DI). Nesta pesquisa, as crianças com resultados compatíveis com DI ou L foram comparadas às demais no que se refere à queixa de dificuldade escolar trazida pelos pais.

3.10.7 Procedimentos no grupo controle (GC)

Todos os procedimentos descritos para o grupo estudo foram aplicados igualmente no grupo controle, exceto para os dados retirados do prontuário médico referentes à avaliação e tratamento do HC.

3.11 TABULAÇÃO E GERENCIAMENTO DE DADOS

Os dados foram tabulados em planilha eletrônica (*Microsoft Excel*®) exclusivamente pela pesquisadora, conferidos e exportados para os *softwares* de análise estatística.

3.12 ANÁLISE ESTATÍSTICA

Para análise estatística, foram utilizados os softwares Statistica® e MedCalc®, de propriedade de licença do Programa de Pós-Graduação em Saúde da Criança e do Adolescente.

Foi realizada análise descritiva das variáveis contínuas, com obtenção das medidas de tendência central e dispersão (média e desvio padrão em casos de distribuição simétrica e mediana, mínimo e máximo em casos de distribuição assimétrica). A estimativa da diferença entre as variáveis contínuas de distribuição normal foi realizada pelos testes paramétricos t de *Student* (dois grupos independentes) e ANOVA (mais de dois grupos independentes). Para variáveis de distribuição assimétrica foram utilizados os testes não paramétricos de Mann-Whitney (dois grupos independentes) e ANOVA de Kruskal-Wallis (mais de dois grupos independentes).

Para a análise das variáveis categóricas foram utilizados o teste exato de Fisher (tabelas 2 X 2 com $n < 100$) e teste qui-quadrado de Pearson (tabelas com mais de dois grupos e $n > 100$), com correção de Yates quando necessário (tabelas 2 X 2 e $n > 100$).

Para análise de concordância na avaliação perceptivo-auditiva da voz foi utilizado o coeficiente de concordância de Kappa, considerando coeficiente $< 0,20$ desprezível; 0,21 a 0,40 mínimo; 0,41 a 0,60 regular; 0,61 a 0,80 bom; acima de 0,81 ótimo.

Para a estudar a associação entre duas variáveis contínuas foi calculado o coeficiente de correlação de Pearson, considerando o coeficiente de correlação de 1,0 como indicativo de correlação linear perfeita, entre 0,80 e 0,99, forte, 0,50 a 0,79, moderada, 0,10 a 0,49, fraca e menor que 0,10, ínfima para as correlações positivas e negativas. Para esta análise, foram excluídos os *outliers*.

O modelo de regressão logística multivariada foi aplicado para estimar possíveis agrupamentos de variáveis independentes para o desfecho de desvio fonológico (variável dependente).

3.13 CÁLCULO DO TAMANHO MÍNIMO DA AMOSTRA

O tamanho da mostra foi calculado fixando o erro do tipo I em 5% (nível de significância) e erro do tipo II em 10%, estimando diferença de 20% entre o grupo controle e de estudo (100 crianças em cada grupo), com um poder de teste mínimo de 90%.

3.14 ÉTICA EM PESQUISA

O projeto de pesquisa foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos do Hospital de Clínicas da Universidade Federal do Paraná (CEP/HC/UFPR) sob o número 2179.073/2010-03, em 09/11/2010 (Anexo 10). Foram respeitadas todas as orientações da Resolução n.º 466, de 12 de dezembro de 2012, da Comissão Nacional de Ética em Pesquisa (CONEP). Os responsáveis foram orientados quanto aos objetivos da pesquisa e assinaram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE) (Apêndice 7).

3.15 FOMENTO PARA A PESQUISA, PROFISSIONAIS E SERVIÇOS ENVOLVIDOS

A pesquisadora recebeu bolsa da Coordenação de Aperfeiçoamento de Pessoal de Nível Superior - CAPES (demanda social) de outubro de 2011 a maio de 2014.

4 RESULTADOS

4.1 CARACTERÍSTICAS DO GRUPO CONTROLE (GC)

Constituiu o grupo controle 100 crianças, sendo 36 (36,0%) do sexo feminino e 64 (64,0%) do sexo masculino, com média de idade de $7,3 \pm 2,3$ anos, variando de 3,2 a 12,5 anos.

4.2 CARACTERÍSTICAS DO GRUPO DE ESTUDO (GE)

Constituiu o grupo GE 100 crianças, sendo 65 (65,0%) do sexo feminino e 35 (35,0%) do sexo masculino, com média de idade de $7,3 \pm 2,2$ anos, variando de 3,2 a 12,5 anos. A idade de início de tratamento para o HC foi em mediana de 18,0 dias, variando de 4,0 a 90,0 dias (IC 95% = 11,5 - 44,0). Quanto à etiologia do HC, das 90 crianças com resultado de cintilografia, nove (10,0%) apresentavam agenesia, 12 (13,3%) hipoplasia, 32 (35,5%) ectopia e 37 (41,2%) disormonogênese.

Ainda, referente à caracterização das crianças do GE, 12 (12,1%) apresentaram choro rouco na primeira consulta. O dado referente a uma criança não pôde ser coletado devido ao extravio de parte do prontuário (n = 99).

Quanto aos dados referentes às dosagens séricas iniciais de T_4 iniciais (pré-tratamento), 46 (48,4%) crianças apresentaram $T_4 < 2,5\mu\text{g/DI}$ e 49 (51,6%) apresentaram $T_4 < 2,5\mu\text{g/DI}$ (n = 90). Em relação à qualidade do tratamento, foram obtidas as porcentagens de resultados alterados de T_4 , T_4 livre e TSH durante os três primeiros anos de vida, com base nos dados normativos sugeridos pela literatura da área (Gráfico 4). Do total de exames realizados pela criança, foi calculada a porcentagem de valores alterados, por meio de regra de três simples. Obteve-se mediana de 22,2% (IC 95% = 0,0 - 70,0) de T_4 alterado, 22,2% de T_4 livre alterado (IC 95% = 0,0 - 100,0), e 27,3% (IC 95% = 0,0 - 60,0) de TSH alterado, lembrando

que este dado só foi coletado se a criança tinha pelo menos cinco resultados de cada um dos exames descritos no prontuário.

Na data da avaliação vocal e fonológica, apenas uma criança (1,7%) apresentou valor de T_4 total alterado ($n = 59$), nenhuma (0,0%) apresentou valor de T_4 livre alterado ($n = 75$), e 27 (35,5%), apresentaram valor de TSH alterado ($n = 76$). Dos 27 pacientes com TSH alterado, 17 (63,3%) tinham valores entre 4,7 e 8,7; três (11,1%) entre 10,0 e 20,0; dois (7,4%) entre 20,0 e 30,0; e três (11,1%) acima de 30,0. Dessa forma, 29,6% apresentavam TSH > 10 . Para a definição de normal ou alterado, foi utilizado o valor de referência do Hospital de Clínicas da UFPR (Quadro 4).

4.3 COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS GC E GE

4.3.1 Comparação entre os grupos quanto aos dados de identificação

Em relação ao sexo observou-se maior frequência de meninas no GE ($p < 0,001$) (Gráfico 1).

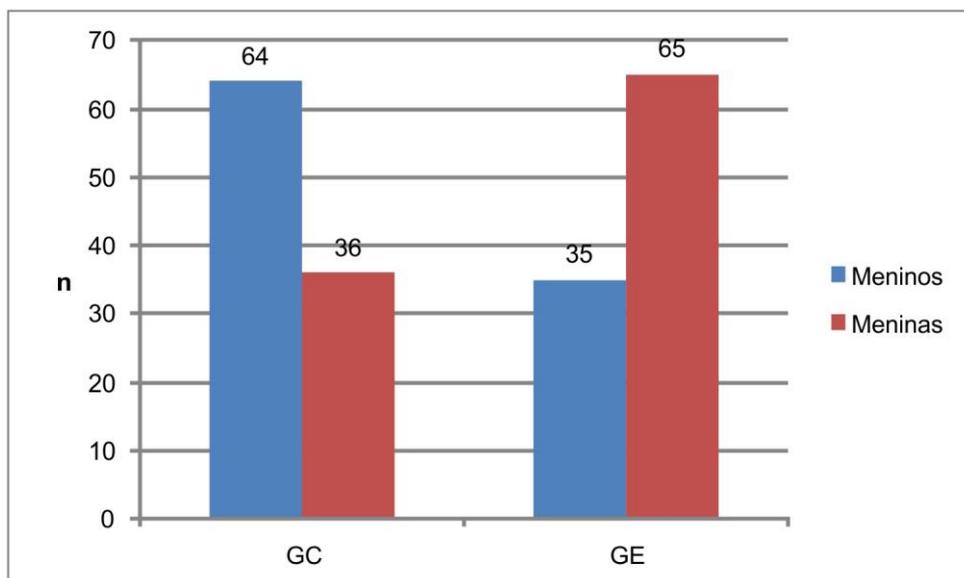


GRÁFICO 1 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM O SEXO NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-quadrado de Pearson com Yates: $p < 0,001$.

Em relação à idade, não foi observada diferença entre as médias dos grupos (GC = 7,3 \pm 2,3 anos; GE = 7,3 anos \pm 2,2 anos; p = 0,91). No que se refere à escolaridade, houve diferença entre os grupos, sendo que o GE apresentou um maior número de crianças que ainda não frequenta a escola (Gráfico 2).

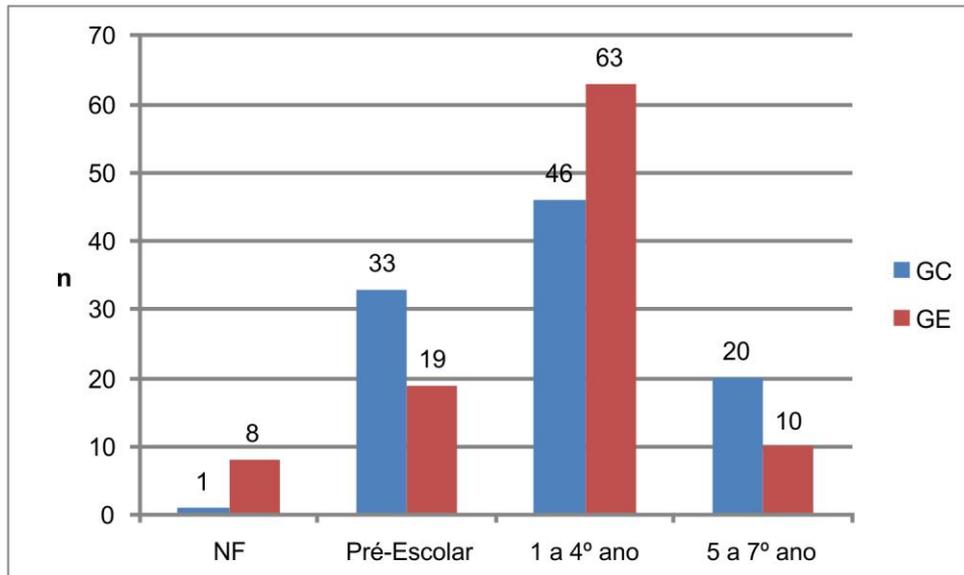


GRÁFICO 2 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM OS ANOS DE ESCOLARIDADE NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-quadrado de Pearson: p = 0,001.

4.3.2 Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação vocal

Durante a anamnese, sete (7,0%) responsáveis referiram queixa vocal no GC e seis (6,0%) no GE, não havendo diferença entre os grupos (p=1,00). O resultado da triagem vocal realizada pelos especialistas, considerando as duas amostras (vogal e números), apontou que o número de crianças que passaram e falharam foi semelhante entre os grupos (p = 0,45) (Gráfico 3).

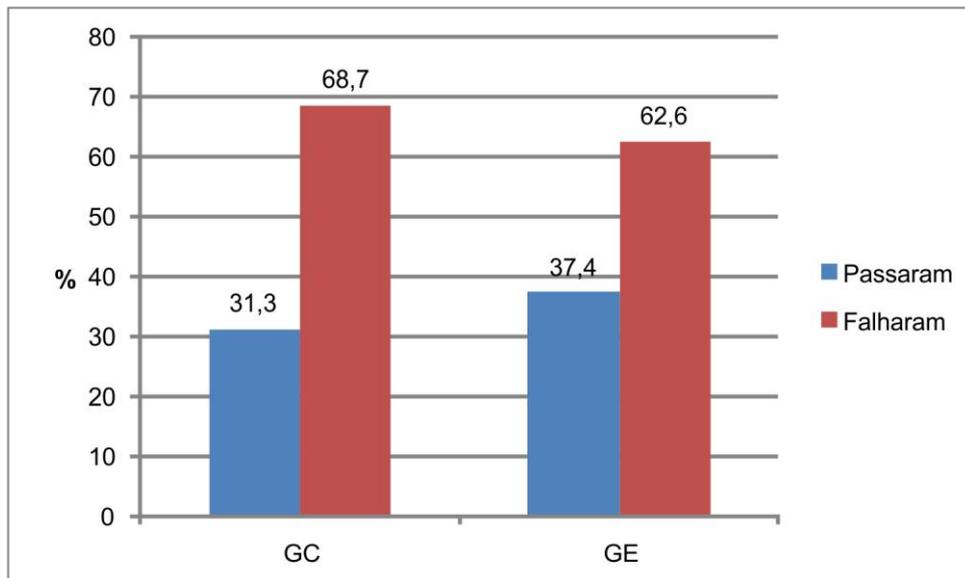


GRÁFICO 3 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM O PASSA/FALHA DA TRIAGEM VOCAL NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-quadrado de Pearson com Yates: $p = 0,45$. GC $n = 99$; GE $n = 99$.

Devido à diferença entre os grupos quanto ao sexo, foram comparadas as frequências de passa/falha na triagem vocal considerando o grupo total de crianças estudadas ($n = 200$). No grupo masculino ($n = 98$), 29 (29,6%) passaram e 69 (70,4%) falharam na triagem e no grupo feminino 39 (39,0%) passaram e 61 (61,0%) falharam, não havendo diferença entre eles ($p = 0,21$).

Quanto aos resultados do protocolo "Qualidade de Vida e Voz Pediátrico (QVV-P)", o GC apresentou escores médios de $99,1 \pm 2,8$ no DF, $100 \pm 0,0$ no DSE e $99,5 \pm 1,7$ no DT. Tais resultados foram semelhantes aos apresentados pelo GE ($98,9 \pm 3,8$ no DF, $99,9 \pm 0,6$ no DSE e $99,3 \pm 2,4$ no DT) ($p > 0,05$).

Foi realizada, ainda, a comparação dos grupos quanto aos resultados da análise acústica da voz, por meio das medidas de F_0 , *jitter*, *shimmer* e proporção GNE (Tabela 1). Houve diferença entre os grupos apenas para o parâmetro *shimmer*, sendo que o GC apresentou uma mediana maior ($p < 0,01$), embora dentro do parâmetro de normalidade do *Software VOXMETRIA* (0,0 a 6,5).

TABELA 1 - COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO QUANTO À ANÁLISE ACÚSTICA DA VOZ

VARIÁVEL	GC				GE				p
	Média	Mediana	DP	IC 95%	Média	Mediana	DP	IC 95%	
F0 ⁽¹⁾	257,6	249,6	33,0	203,0 - 375,5	263,8	259,0	36,7	201,0 - 380,6	0,29
<i>jitter</i> ⁽²⁾	0,4	0,2	0,9	0,1 - 5,3	0,6	0,2	1,2	0,1 - 6,8	0,84
<i>shimmer</i> ⁽²⁾	3,8	3,2	2,0	0,3 - 11,1	4,5	4,1	2,6	1,7 - 20,2	p < 0,01
prop. GNE ⁽¹⁾	0,8	0,8	0,1	0,4 - 1,0	0,8	0,9	0,2	0,3 - 1,0	0,90

FONTE: O autor (2014)

NOTA: n GE = 97; n GC = 98.

(1) Teste T de Student.

(2) Teste de Mann-Whitney.

Ainda em relação à análise acústica, é possível observar que a quantidade de disposições de normalidade e alteração no Diagrama de Desvio Fonatório (DDF) foi semelhante entre os grupos. O GC teve 56 vezes consideradas normais e 41 alteradas (n = 97) e o GE teve 55 vezes consideradas normais e 40 alteradas (n = 95) (p = 0,90).

4.3.3 Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação laringológica

Quanto aos dados da laringoscopia, a ocorrência de lesão em PPVV foi semelhante entre os grupos (p = 1,00) (Gráfico 4).

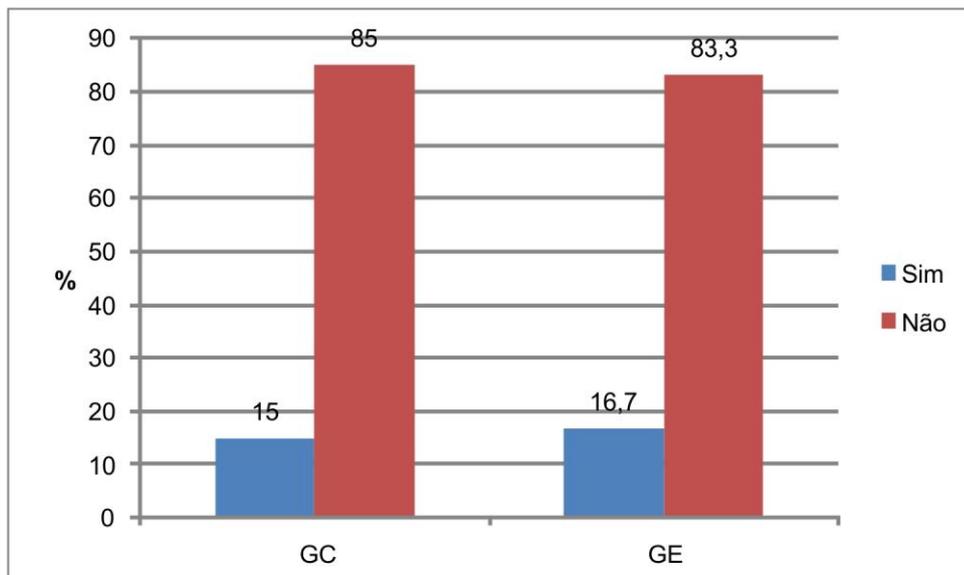


GRÁFICO 4 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A OCORRÊNCIA DE LESÃO EM PPVV NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2013)

NOTA: Teste Exato de Fisher: p = 1,00, GC n = 40; GE n = 30; Total n = 70.

Do grupo total ($n = 70$), crianças do sexo feminino e masculino tiveram frequências parecidas quanto à ocorrência de lesão em PPVV (seis meninos e cinco meninas; $p = 1,00$) e, por isso, meninos e meninas foram analisadas conjuntamente.

Considerando as 11 crianças que apresentaram lesões/alterações laríngeas, foram diagnosticados nódulos bilaterais (GC $n = 4$ e GE $n = 2$), cisto epidermoide (GC $n = 1$ e GE $n = 1$), edema difuso bilateral (GE $n = 2$) e sinais de laringite (GC $n = 1$). Os dados referentes à coaptação glótica das crianças também indicou semelhança entre os grupos ($p = 0,81$) (Gráfico 5).

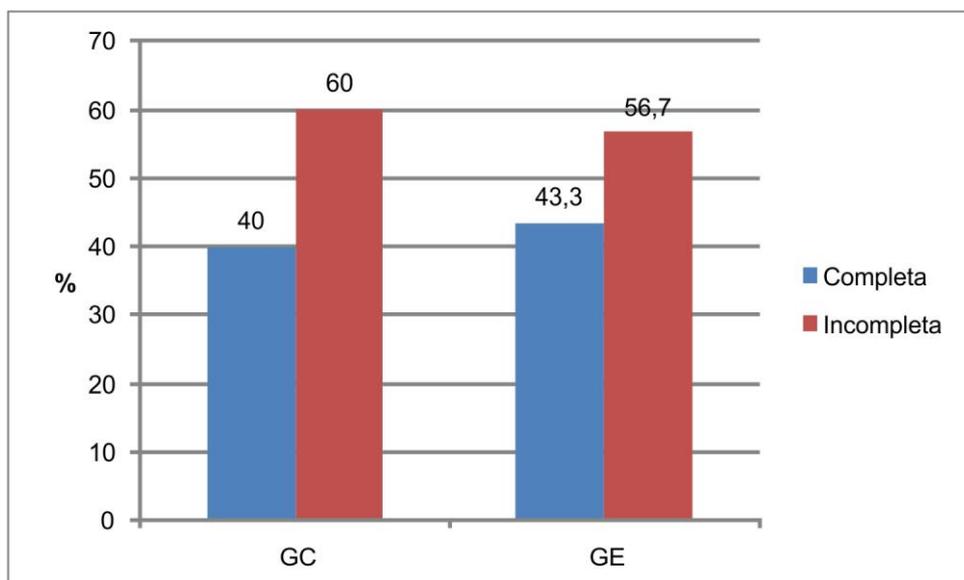


GRÁFICO 5 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A FORMA DE COAPTAÇÃO GLÓTICA NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher: $p = 0,81$ GC $n = 40$; GE $n = 30$; Total $n = 70$.

O gráfico 6 mostra a distribuição do percentual referente aos tipos de fendas glóticas nos casos de coaptação incompleta (GC n = 24; GE n = 17) (n = 41).

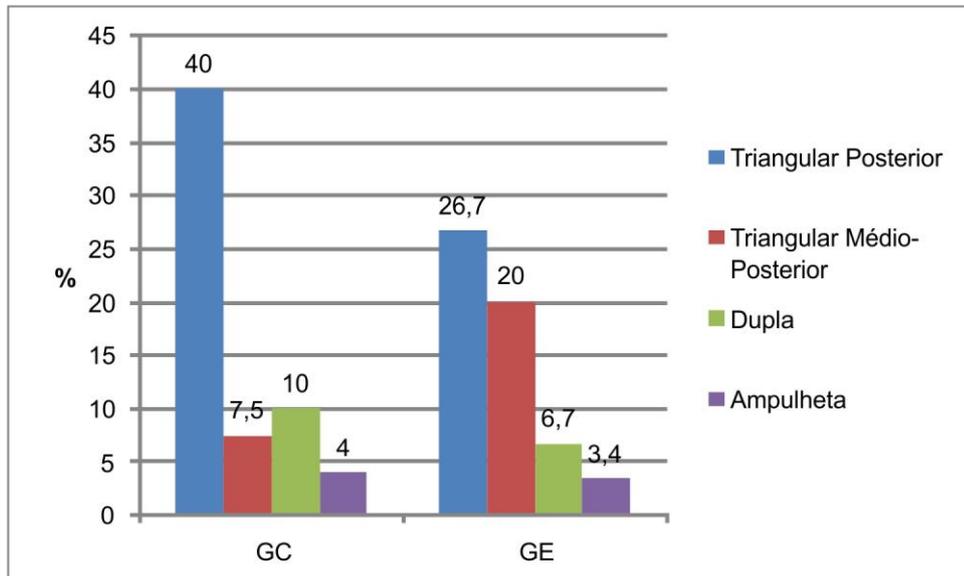


GRÁFICO 6 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM O TIPO DE FENDA GLÓTICA NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson: $p = 0,35$; GC n = 24; GE n = 17.

O protocolo de avaliação laringológica contemplava ainda a observação quanto à presença de envolvimento supraglótico durante a fonação. No entanto, este sinal não foi observado em nenhuma criança.

4.3.4 Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação fonológica

Durante a anamnese, 10 (10,0%) responsáveis referiram queixa fonológica no GC e 21 (21,0%) no GE, havendo diferença entre os grupos ($p = 0,05$) – (Gráfico 7).

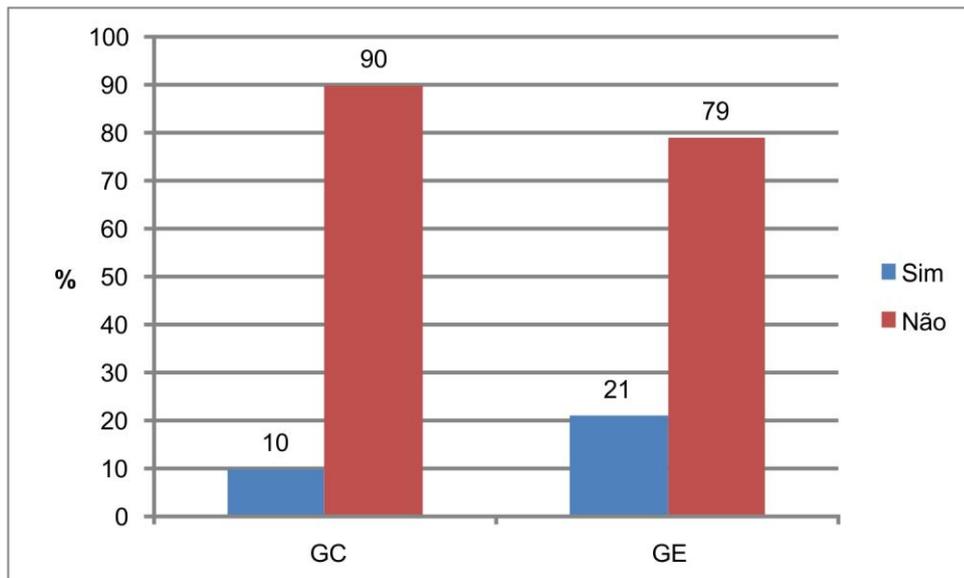


GRÁFICO 7 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL QUEIXA DE FALA NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates: $p = 0,05$; Total $n = 200$.

Ainda, durante a anamnese, os responsáveis foram questionados sobre o período de início da oralidade, possíveis dificuldades escolares e possíveis dificuldades de atenção/memória enfrentados pela criança. A maior parte das crianças, tanto do GC quanto do GE, começou a falar sílabas, palavras e frases dentro do período adequado, de acordo com a percepção dos pais (GC = 93; GE = 90; $p = 0,61$). O mesmo ocorreu para a variável referente à atenção/memória, sendo que a maior parte das crianças dos dois grupos não apresentou dificuldades em tais habilidades [GC = 84 (84,0%); GE = 77 (77,0%); ($p = 0,28$)]. Entretanto, a queixa de dificuldade escolar foi mais frequente no GE ($p = 0,02$) (Gráfico 8).

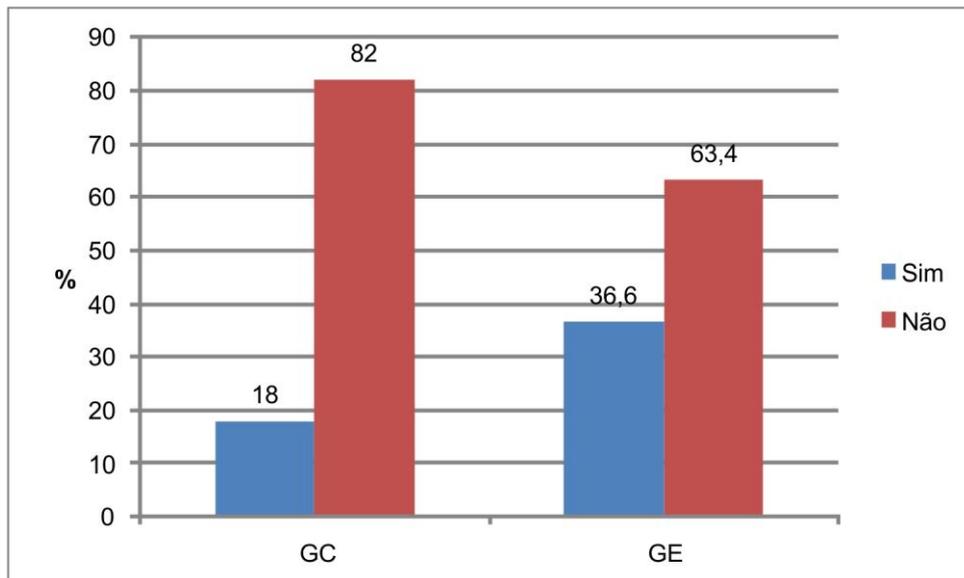


GRÁFICO 8 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL DIFICULDADE ESCOLAR NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates: $p = 0,02$; GC $n = 61$; GE $n = 71$. Foram excluídas as crianças em séries pré-escolares.

A partir da análise dos resultados do teste ABFW, as crianças foram classificadas de acordo com a presença ou ausência de desvio fonológico considerando os parâmetros de normalidade adotados no instrumento (Gráfico 9).

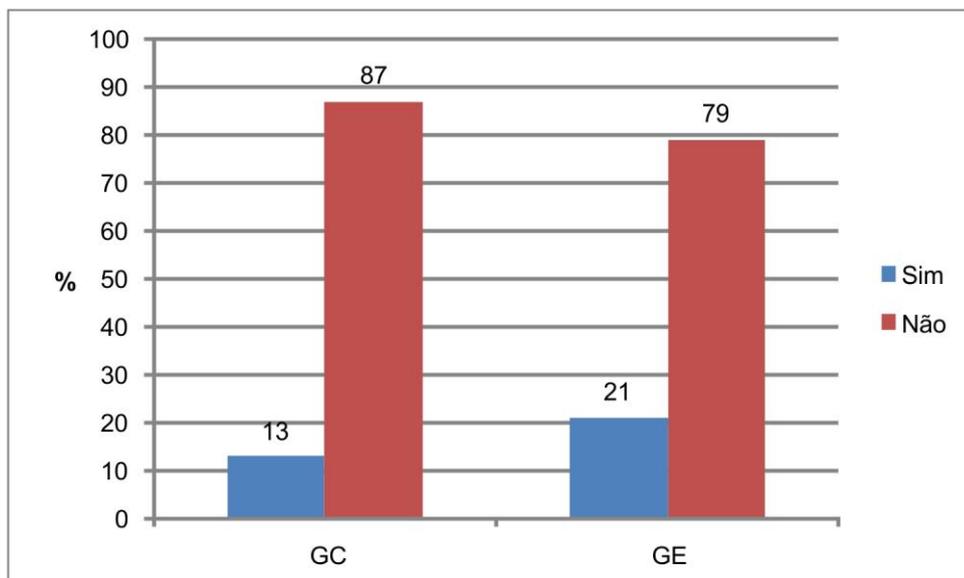


GRÁFICO 9 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL PRESENÇA DE DESVIO FONOLÓGICO NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates: $p = 0,18$; Total: $n = 200$. Parâmetros de normalidade do Teste de Linguagem Infantil (ABFW).

A ocorrência de desvio fonológico foi semelhante entre os sexos, considerando a totalidade de sujeitos estudados ($n = 200$). Do total, 16 (16,6%) meninos ($n = 99$) e 18 (18,8%) meninas ($n = 101$) apresentaram desvio fonológico ($p = 0,90$).

Os parâmetros de normalidade do teste ABFW (Figura 4), também foram utilizados para classificar cada processo como "normal" ou "anormal", de acordo com a faixa etária da criança, em cada uma das provas (nomeação e imitação). Os resultados mostraram diferença entre os grupos apenas para o processo de simplificação de encontro consonantal na prova de Imitação, sendo que o GE apresentou um maior número de alterações ($p = 0,02$) – (Tabela 2).

TABELA 2 - COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO QUANTO AOS PROCESSOS FONOLÓGICOS CONSIDERADOS ANORMAIS (PARÂMETROS ABFW)

PROCESSO FONOLÓGICO	PROVA DE NOMEAÇÃO					PROVA DE IMITAÇÃO				
	GC		GE		p	GC		GE		p
	n	%	n	%		n	%	n	%	
Posteriorização para velar	0	0,0	1	1,0	1,00	1	1,0	0	0,0	1,00
Posteriorização para palatal	2	2,0	3	3,0	1,00	2	2,0	3	3,0	1,00
Frontalização de palatal	1	1,0	2	2,0	1,00	1	1,0	2	2,0	1,00
Frontalização de velar	2	2,0	1	1,0	1,00	2	2,0	1	1,0	1,00
Simplificação de líquida	4	4,0	10	10,0	0,16	5	5,0	8	8,0	0,56
Simplificação de encontro consonantal	1	1,0	5	5,0	0,21	1	1,0	9	9,0	0,02
Simplificação de consoante final	0	0,0	1	1,0	1,00	0	0,0	1	1,0	1,00
Ensurdecimento de plosivas	4	4,0	1	1,0	0,36	4	4,0	1	1,0	0,36
Ensurdecimento de fricativas	4	4,0	0	0,0	0,13	4	4,0	1	1,0	0,13

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates; $n = 200$. GC = grupo controle; GE = grupo estudo. Os processos de redução de sílaba, harmonia consonantal e plosivação de fricativa não foram apresentados por nenhum dos sujeitos.

Foi feita, ainda, a análise da ocorrência dos processos fonológicos produtivos de acordo com a idade apresentada pela criança, comparando GC e GE. Na prova de nomeação, não houve diferença entre os grupos quando cada uma das idades foi comparada individualmente ($p > 0,05$) (Gráfico 10), embora, aos sete anos, tenha sido observada uma tendência à diferença ($p = 0,06$). Já na prova de imitação, houve diferença entre os grupos na comparação do processo "Simplificação de Encontro Consonantal" aos sete anos de idade ($p = 0,006$), sendo que o GE apresentou um número maior de ocorrências (Gráfico 11).

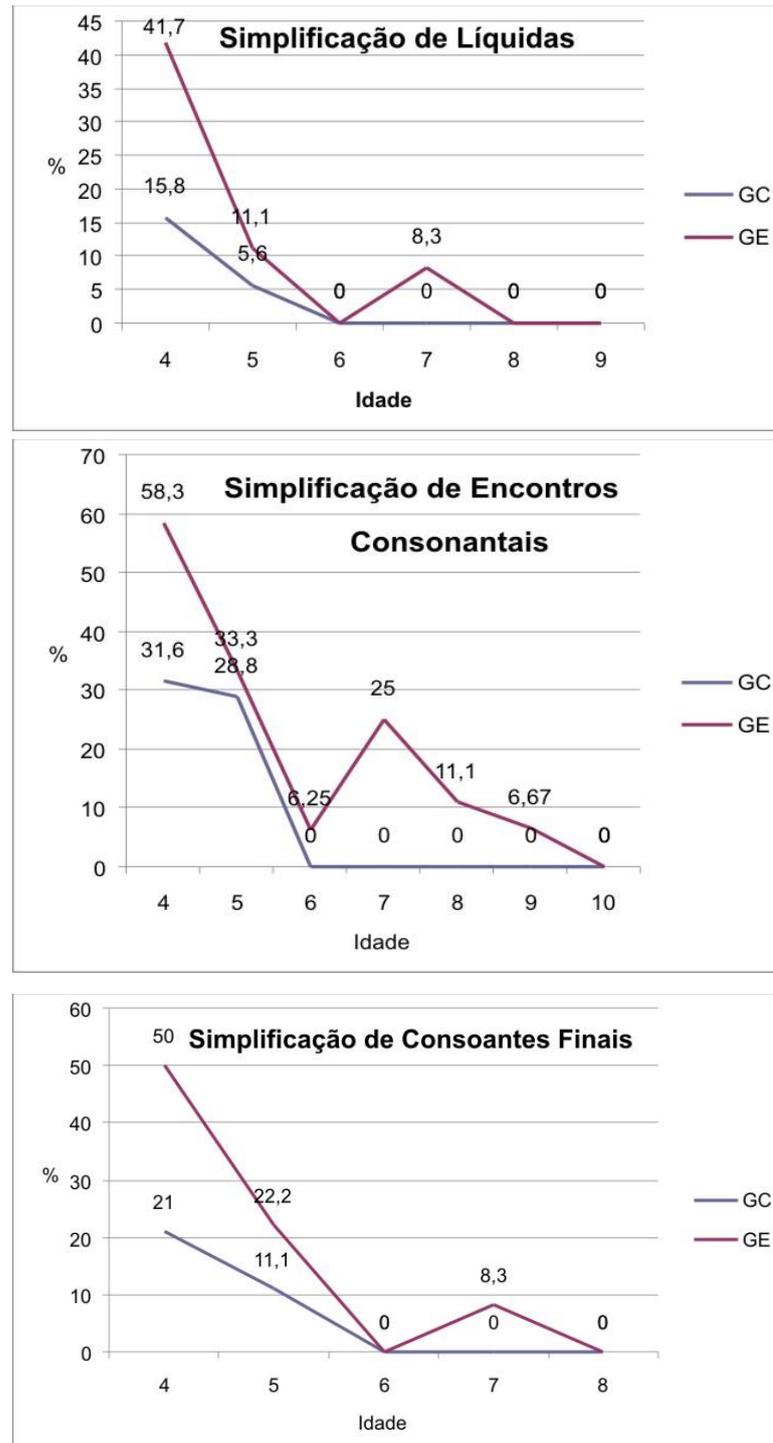


GRÁFICO 10 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DA PRODUTIVIDADE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS MAIS FREQUENTES NA PROVA DE NOMEAÇÃO DE ACORDO COM A VARIÁVEL IDADE NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher para comparação dos grupos por idade : $p > 0,05$ em todos os cruzamentos; 4 anos ($n = 31$; SL $p = 0,20$; SEC $p = 0,26$; SCF $p = 0,12$); 5 anos ($n = 27$; SL $p = 1,00$; SEC $p = 1,00$; SCF $p = 0,58$); 6 anos ($n = 22$; SL $p = *$; SEC $p = 1,00$; SCF $p = *$); 7 anos ($n = 29$; SL $p = 0,41$; SEC $p = 0,06$; SCF $p = 0,41$); 8 anos ($n = 26$; SL $p = *$; SEC $p = 0,47$; SCF $p = *$); 9 anos ($n = 28$; SL $p = *$; SEC $p = 1,00$; SCF $p = *$). SL = simplificação de líquidas; SEC = simplificação de encontros consonantais; SCF = simplificação de consoantes finais. * = valor de p não calculado devido à falta de ocorrências.

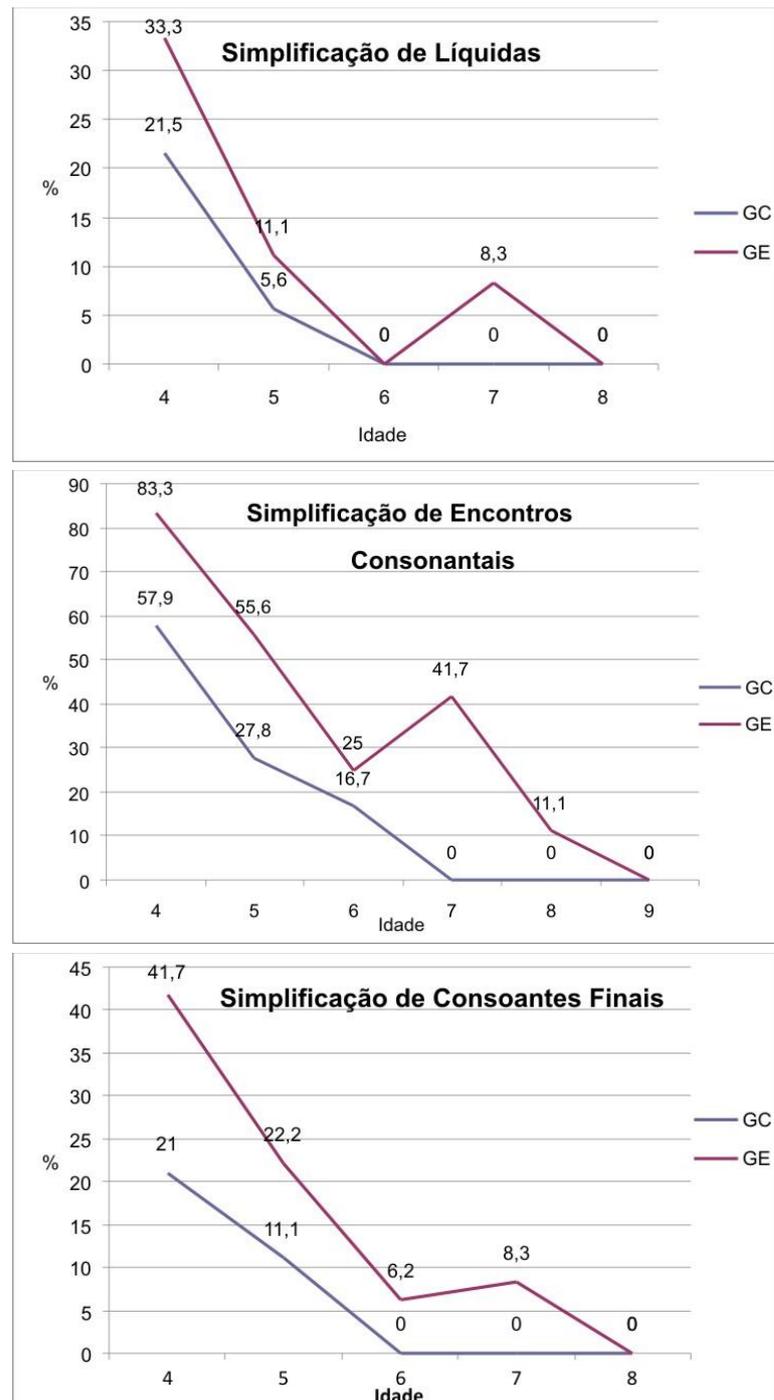


GRÁFICO 11 - DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DA PRODUTIVIDADE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS MAIS FREQUENTES NA PROVA DE IMITAÇÃO DE ACORDO COM A VARIÁVEL IDADE NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher para comparação dos grupos por idade: $p = 0,006$ na comparação do processo de SEC aos 7 anos; $p > 0,05$ em todos os demais cruzamentos; 4 anos ($n = 31$; SL $p = 0,67$; SEC $p = 0,23$; SCF $p = 0,25$); 5 anos ($n = 27$; SL $p = 1,00$; SEC $p = 0,21$; $p = 0,58$); 6 anos ($n = 22$; SL $p = *$; SEC $p = 1,00 *$; SCF $p = 1,00 *$); 7 anos ($n = 29$; SL $p = 0,41$; SEC $p = 0,006**$; SCF $p = 0,41$); 8 anos ($n = 26$; SL $p = *$; SEC $p = 1,00$; SCF $p = *$); 9 anos ($n = 28$; SL $p = *$; SEC $p = 1,00$; SCF $p = *$). SL = simplificação de líquidas; SEC = simplificação de encontros consonantais; SCF = simplificação de consoantes finais. * = valor de p não calculado devido à falta de ocorrências.

4.3.4.1 Comparação entre os grupos quanto aos dados da avaliação fonológica com controle das variáveis sexo e idade

Para que cada processo fonológico pudesse ser analisado individualmente e para que fosse possível investigar o desenvolvimento fonológico e o período de aquisição de cada som da fala nas crianças dos dois grupos, foi necessário o pareamento das crianças de acordo com sexo e faixa etária. Assim, as análises abaixo são referentes a 128 crianças (64 pares) de crianças do GC e GE.

A produtividade de cada um dos processos fonológicos pôde ser analisada individualmente. Os dados obtidos mostram que não há diferença entre os grupos GC e GE para nenhum dos processos ($p > 0,05$) (Tabela 3).

TABELA 3 - COMPARAÇÃO ENTRE OS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO QUANTO À PRODUTIVIDADE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS

PROCESSO FONOLÓGICO	PROVA DE NOMEAÇÃO					PROVA DE IMITAÇÃO				
	GC		GE		p	GC		GE		p
	n	%	N	%		N	%	n	%	
Posteriorização para velar	0	0,0	0	0,0		0	0,0	0	0,0	
Posteriorização para palatal	1	1,6	4	6,2	0,36	1	1,6	4	6,2	0,36
Frontalização de palatal	0	0,0	1	1,6	1,00	0	0,0	1	1,6	1,00
Frontalização de velar	1	1,6	0	0,0	1,00	1	1,6	0	0,0	1,00
Simplificação de líquida	1	1,6	6	9,4	0,11	2	3,1	5	7,8	0,43
Simplificação de encontro consonantal	7	11,0	14	21,9	0,15	14	21,9	19	29,7	0,41
Simplificação de consoante final	3	4,7	9	14,1	0,12	3	4,7	9	14,3	0,12
Ensurdecimento de plosivas	4	6,2	0	0,0	0,12	4	6,2	0	0,0	0,12
Ensurdecimento de fricativas	4	6,2	0	0,0	0,12	4	6,2	0	0,0	0,12
Frontalização de vibrante posterior	0	0,0	3	4,7	0,24	0	0,0	3	4,7	0,24

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates; $n = 128$ (64 pares). Os processos de redução de sílaba, harmonia consonantal e plosivação de fricativa não foram apresentados por nenhum dos sujeitos.

Quanto à presença ou ausência do desvio fonológico, com o controle das variáveis idade e sexo também não houve diferença entre os GC ($n = 7$; 10,9%) e GE ($n = 12$; 18,7%) ($p = 0,32$). O mesmo ocorreu quando os grupos foram comparados quanto à presença de sistema fonológico completo (SFC) ou incompleto (SFI). No GC, 47 (73,4%) apresentavam SFC e 17 (26,6%) SFI, enquanto no GE, 45 (70,4%) apresentavam SFC e 19 (26,7%) apresentavam SFI ($p = 0,84$).

Para entender melhor o processo de aquisição fonológica, a variável "sistema fonológico" também foi avaliada de acordo com a idade (Tabela 4). Há significância

limítrofe aos sete anos ($p = 0,09$). Ao se comparar os grupos nas idades de quatro mais cinco anos *versus* seis mais sete anos, houve diferença significativa ($p = 0,02$), indicando que, na segunda faixa etária, há maior ocorrência de SFI no GE.

TABELA 4 - COMPARAÇÃO ENTRE GC E GE QUANTO À AQUISIÇÃO COMPLETA OU INCOMPLETA DO SISTEMA FONOLÓGICO DE ACORDO COM A IDADE

IDADE	GC				GE				P
	Completo		Incompleto		Completo		Incompleto		
	n	%	n	%	n	%	n	%	
4:0 a 4:11	1	14,3	6	85,7	1	14,3	6	85,7	1,00
5:0 a 5:11	4	44,4	5	55,6	4	44,4	5	55,6	1,00
6:0 a 6:11	6	100,0	0	0,0	3	50,0	3	50,0	0,18
7:0 a 7:11	10	100,0	0	0,0	7	63,3	4	36,4	0,09
8:0 a 8:11	8	100,0	0	0,0	7	87,5	1	12,5	1,00
9:0 a 9:11	9	90,0	1	11,1	10	100,0	0	0,0	1,00
10:0 a 10:11	7	100,0	0	0,0	7	100,0	0	0,0	

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher; 4 anos ($n = 14$), 5 anos ($n = 18$), 6 anos ($n = 12$), 7 anos ($n = 22$), 8 anos ($n = 16$), 9 anos ($n = 20$), 10 anos ($n = 14$). $P = 0,02$ na comparação entre as idades 4 e 5 anos *versus* 6 e 7 anos no GC e GE. GC = grupo controle; GE = grupo estudo.

Os dados acima podem ser visualizados no gráfico 12, agora sob a ótica da aquisição fonológica completa de acordo com a progressão da idade.

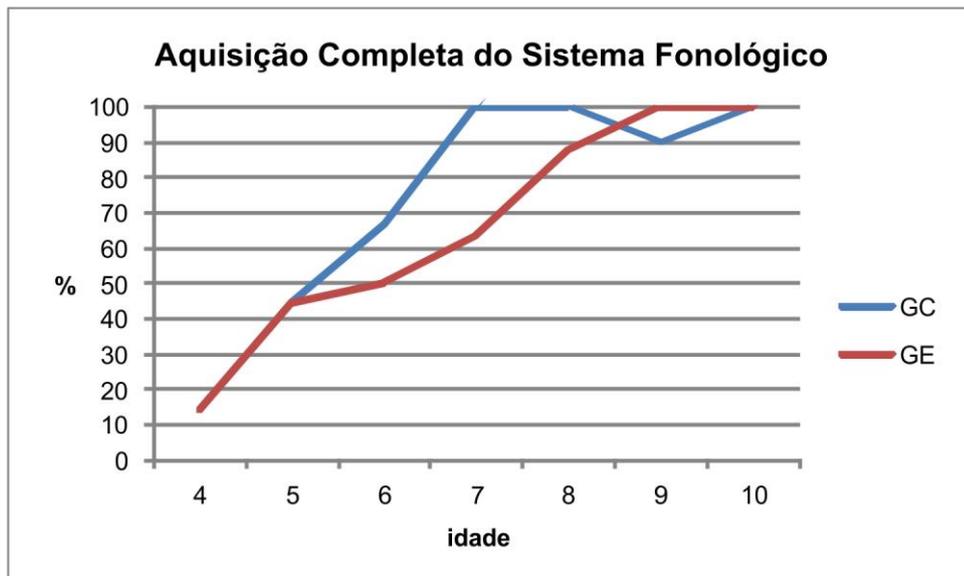


GRÁFICO 12- DISTRIBUIÇÃO DE FREQUÊNCIA DE ACORDO COM A VARIÁVEL AQUISIÇÃO DO SISTEMA FONOLÓGICO NOS GRUPOS CONTROLE E ESTUDO

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher; 4 anos ($n = 14$), 5 anos ($n = 18$), 6 anos ($n = 12$), 7 anos ($n = 22$), 8 anos ($n = 16$), 9 anos ($n = 20$), 10 anos ($n = 14$). $p = 0,02$ na comparação entre as idades 4 mais 5 anos *versus* 6 e 7 anos no GC e GE. GC = grupo controle; GE = grupo estudo.

4.4 ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DAS AVALIAÇÕES VOCAL E FONOLÓGICA AOS DADOS DE AVALIAÇÃO E TRATAMENTO MÉDICO NO GE

Para esta análise, foram selecionadas apenas as crianças do GE, devido à ausência de avaliação e tratamento médico no GC. Os resultados da avaliação vocal e fonológica foram associados ou correlacionados aos dados coletados nos prontuários.

4.4.1 Avaliação vocal e dados médicos no GE

Como apresentado na tabela 5, não houve associação entre a idade do início do tratamento (em dias) e o resultado da triagem vocal ($p=0,30$). A variável idade de início do tratamento foi, ainda, correlacionada aos resultados da análise acústica da voz (Gráfico 13). Os coeficientes obtidos foram baixos ($r=-0,12$; $r=0,22$; $r=0,26$; $r=0,08$) e indicam que não há correlação entre a idade de início de tratamento e nenhuma das variáveis referentes à análise acústica da voz.

TABELA 5 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A IDADE DE INÍCIO DE TRATAMENTO MÉDICO E O RESULTADO DA TRIAGEM VOCAL

AVALIAÇÃO PERCEPTIVO-AUDITIVA	IDADE DE INÍCIO DO TRATAMENTO (em dias)						
	n	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	P
Triagem							
Passaram	37	23,9	18,5	4,0	71,0	14,0	0,30
Falharam	62	22,2	18,0	9,0	90,0	15,1	

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Testes de Kruskal-Wallis e Mann-Whitney; n = 99. DP = desvio padrão.

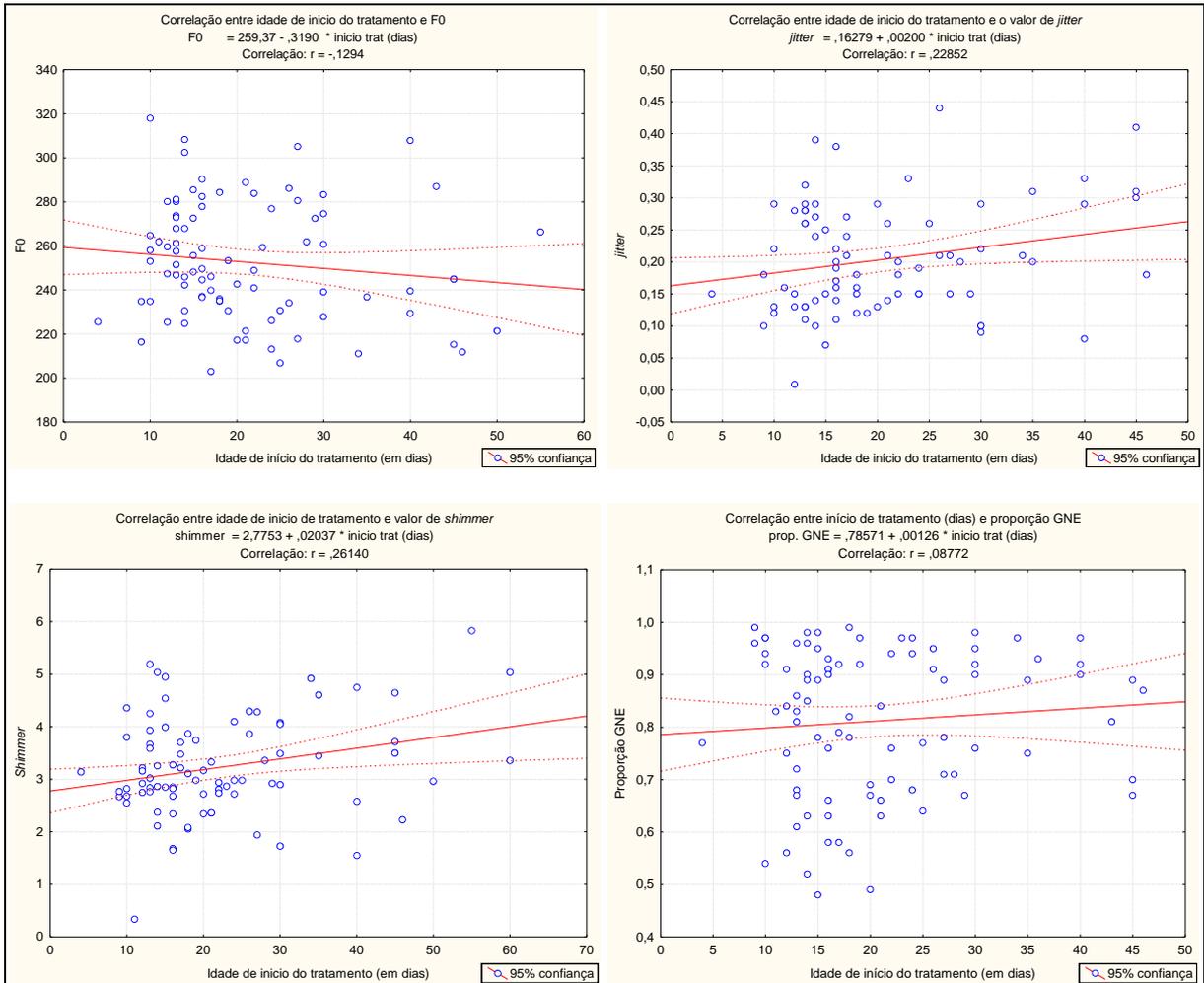


GRÁFICO 13- CORRELAÇÃO ENTRE IDADE DE INÍCIO DO TRATAMENTO E AS VARIÁVEIS REFERENTES À ANÁLISE ACÚSTICA DA VOZ

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Coeficiente de Correlação de Pearson. Exclusão dos outliers.

Não se observou associação entre a etiologia do HC e os dados da avaliação perceptivo-auditiva (triagem vocal) e acústica da voz (Tabelas 6 e 7).

TABELA 6 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA DO HIPOTIREOIDISMO E O RESULTADOS DA TRIAGEM VOCAL

ETIOLOGIA DO HC	PASSARAM		FALHARAM	
	n	%	n	%
Agenesia	4	44,4	5	55,6
Hipoplasia	1	8,3	11	91,7
Ectopia	10	32,3	21	67,7
Disormonogênese	17	45,9	20	54,1

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson; Triagem n = 99; Crianças com resultado da cintilografia n = 89. p = 0,20.

TABELA 7 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA DO HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO E AS VARIÁVEIS REFERENTES À AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ

Etiologia do HC	Frequência Fundamental (F0) ⁽¹⁾					Jitter ⁽²⁾				
	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP
Agenesia	266,8	261,2	234,7	302,4	26,5	0,2	0,1	0,1	0,3	0,1
Hipoplasia	256,3	259,8	206,9	307,7	32,2	0,3	0,2	0,1	1,6	0,4
Ectopia	262,7	253,0	203,0	375,5	39,0	0,7	0,2	0,1	5,3	1,3
Disormonogênese	247,3	245,2	211,0	317,9	25,6	0,3	0,2	0,0	1,4	0,2
P	0,16					0,38				

Etiologia do HC	Shimmer ⁽²⁾					Proporção GNE ⁽¹⁾				
	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP
Agenesia	2,9	2,8	2,1	4,9	0,9	0,8	0,8	0,5	1	0,2
Hipoplasia	3,4	2,9	1,5	9,1	1,9	0,7	0,7	0,4	1	0,2
Ectopia	4,3	3,7	1,6	11,1	2,3	0,8	0,8	0,5	1	0,1
Disormonogênese	3,7	3,2	0,3	9,7	1,8	0,8	0,9	0,4	1	0,1
p	0,08					0,23				

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Agenesia n = 9; Hipoplasia n = 12; Ectopia n = 32; Disormonogênese n = 37. DP = desvio padrão; HC = hipotireoidismo congênito.

(1) Testes ANOVA.

(2) Kruskal-Wallis.

Não houve associação entre os valores séricos iniciais de T₄ (gravidade do HC pré-tratamento) e os resultados da triagem vocal (p = 0,27) (Tabela 8).

TABELA 8 - ASSOCIAÇÃO ENTRE GRAVIDADE DO HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO PRÉ-TRATAMENTO E RESULTADO DA TRIAGEM VOCAL

DOSAGENS SÉRICAS INICIAIS	PASSARAM		FALHARAM		p
	n	%	n	%	
T ₄ < 2,5µg/dL	18	41,9	25	58,1	0,27
T ₄ > 2,5µg/dL	14	29,8	33	70,2	

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher. n = 90.

Os resultados da triagem vocal foram semelhantes entre os RN que apresentaram ou não apresentaram choro rouco na primeira consulta médica (n=98). Das 12 crianças que o apresentaram, 4 (33,3%) passaram e 8 (66,7%) falharam na triagem vocal. Dos 86 bebês que não apresentaram choro rouco, 33 (38,4%) passaram e 53 (61,6%) falharam na triagem (p=1,00).

Finalizando as análises referentes à associação entre as características vocais e os dados do tratamento para o HC, foram obtidos os resultados da triagem vocal de acordo com os valores de T₄, T₄ livre e TSH apresentados no dia da coleta de dados (Tabela 9). De acordo com os valores de referência (Quadro 4), apenas uma criança apresentou valor alterado de T₄, nenhuma de T₄ livre e 27 de TSH.

TABELA 9 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DA FUNÇÃO TIREOIDIANA DO DIA E E À AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ

VALORES	Jitter						Shimmer						p
	n	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	n	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	
T ₄ ⁽¹⁾	19	10,1	10,3	6,9	13,2	1,5	39	10,8	10,9	6,0	15,5	1,6	0,14
T ₄ livre ⁽¹⁾	24	1,5	1,5	1,1	2,4	0,3	50	1,5	1,5	0,8	1,9	0,2	0,93
TSH ⁽²⁾	23	4,8	2,5	0,0	24,6	6,0	51	11,4	2,9	0,0	311,0	44,2	0,64

FONTE: O autor (2014)

NOTA: T₄ n = 58; T₄ livre n = 74; TSH n = 74.

(1) Testes T de Student.

(2) Mann-Whitney.

Foi utilizado o valor de referência do HC para subdividir as crianças com HC em dois grupos: TSH alterado no dia da coleta de dados; e TSH normal no dia da coleta de dados. Tais grupos foram comparados no que se refere ao resultado da triagem vocal (Gráfico 14). O mesmo não foi feito com os valores de T₄ e T₄ livre, pois a ocorrência de alteração nesses dois testes no dia da coleta de dados foi praticamente inexistente.

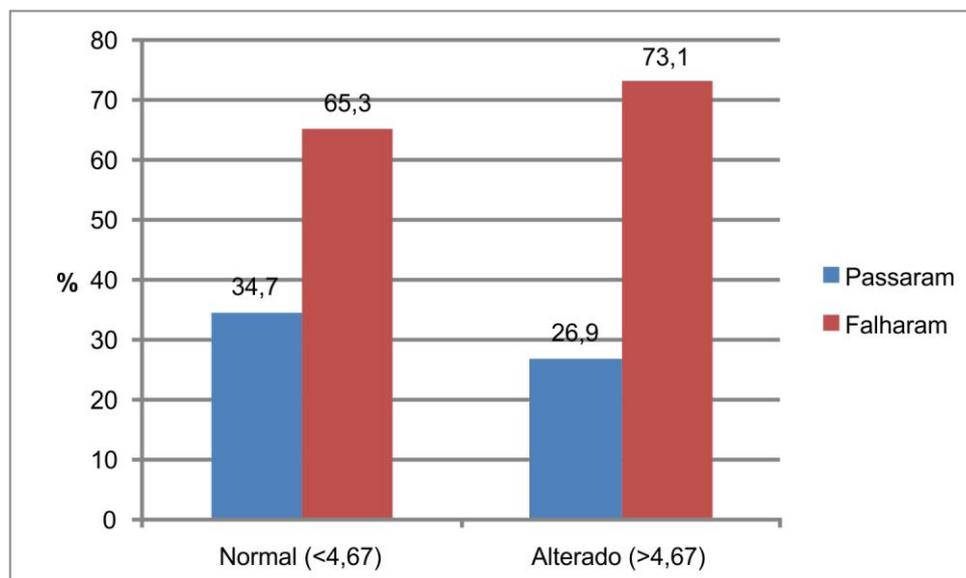


GRÁFICO 14 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DE TSH DO DIA DA COLETA DE DADOS E OS RESULTADOS DA TRIAGEM VOCAL

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher: p = 0,60; n = 75.

4.4.2 Avaliação fonológica e dados médicos

A idade de início de tratamento foi relacionada à presença ou ausência de desvio fonológico, não havendo diferença disgnificativa (p = 0,21).

TABELA 10 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A IDADE DE INÍCIO DE TRATAMENTO, A PRESENÇA OU AUSÊNCIA DE DESVIO FONOLÓGICO E A AQUISIÇÃO COMPLETA OU INCOMPLETA DO SISTEMA FONOLÓGICO

VARIÁVEIS	RESPOSTAS	IDADE DE INÍCIO DE TRATAMENTO (em dias)						p
		n	Média	Mediana	Minimo	Maximo	DP	
Desvio fonológico	Sim	21	28,4	20,0	10,0	90,0	19,7	0,21
	Não	79	21,8	18,0	4,0	71,0	12,3	

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste de Mann-Whitney. n = 100. DP = desvio padrão.

Foi realizada a associação entre a etiologia do HC e a variável "desvio fonológico". Crianças com agenesia de tireoide tiveram maior frequência de desvio ($p = 0,004$) quando comparadas às crianças com as demais etiologias (Tabela 11).

TABELA 11 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A ETIOLOGIA DO HIPOTIREOIDISMO E A PRESENÇA DE DESVIO FONOLÓGICO

ETIOLOGIA DO HC	DESVIO FONOLÓGICO			
	Sim		Não	
	n	%	n	%
Agnesia (n = 9)	5	55,6	4	44,4
Hipoplasia (n = 12)	1	8,3	11	91,7
Ectopia (n = 32)	2	6,3	30	93,7
Disormonogênese (n = 37)	10	27,0	27	73,0
P	0,004			

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson.

Não se observou associação entre a variável porcentagem de valores de T_4 , T_4 livre e TSH alterados até os três primeiros anos de vida e a ocorrência de desvio fonológico (Tabela 12).

TABELA 12 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A PORCENTAGENS DE RESULTADOS ALTERADOS DE T_4 , T_4 LIVRE E TSH E A VARIÁVEL DESVIO FONOLÓGICO

FUNÇÃO TIREOIDIANA ATÉ 3 ANOS	DESVIO FONOLÓGICO												p
	Sim						Não						
	N	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	n	Média	Mediana	Mínimo	Máximo	DP	
% T_4 alt até 3 anos	19	27,7	22,2	0,0	70,0	20	66	22,8	22,6	0,0	60,0	16,3	0,46
% T_4 l alt até 3 anos	18	33,6	26,1	0,0	100,0	26,6	67	26,8	22,2	0,0	62,5	18,9	0,38
% TSH alt até 3 anos	20	31,3	34,8	0,0	60,0	16,3	71	26,2	25,0	0,0	57,1	17,0	0,30

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste de Mann-Whitney.

As crianças com HC passam por testes psicológicos ao longo do tratamento realizado na UEP. Na tabela 13 estão apresentados os testes de associação entre a presença ou ausência de desvio fonológico e os resultados das crianças nos testes CAT, CLAMS e CDC, realizados por uma psicóloga clínica aos 12, 24 e 36 meses de

vida. As crianças com desvio fonológico apresentaram maior frequência de alteração no CLAMS e no CDC ($p = 0,007$).

TABELA 13 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DOS TESTES NEUROPSICOLÓGICOS E A OCORRÊNCIA DE DESVIO FONOLÓGICO

TESTE	DESVIO FONOLÓGICO				p
	Não		Sim		
	n	%	n	%	
CAT normal	51	82,3	11	17,7	0,20
CAT alterado	6	60,0	4	40,0	
CLAMS normal	52	85,2	9	14,7	0,007
CLAMS alterado	5	45,4	6	54,5	
CDC normal	54	84,4	10	15,6	0,008
CDC alterado	3	37,5	5	62,5	

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher; $n = 72$. CAT = *Cognitive Adaptive Test*; CLAMS = *Clinical Linguistic and Auditory Milestone Scale*; CDC = Quociente de Cognição (CAT + CLAMS).

Não se observou relação entre os testes psicológicos aplicados na fase pré-escolar (W-R) e escolar (W-III) e a presença de desvio fonológico ou a queixa de dificuldade escolar (referida pelos responsáveis durante a anamnese). As crianças com resultados indicativos de dificuldade intelectual e (ou) limítrofes foram comparadas às crianças com resultados normais em cada um dos testes (Tabela 14). Não foi obtido o valor de p referente aos cruzamentos com W-III devido ao pequeno número de crianças que passaram por esta avaliação.

TABELA 14 - ASSOCIAÇÃO ENTRE OS RESULTADOS DOS TESTES DE INTELIGÊNCIA E A OCORRÊNCIA DE DESVIO FONOLÓGICO E QUEIXA DE DIFICULDADE ESCOLAR

TESTE	DESVIO FONOLÓGICO				p	DIFICULDADE ESCOLAR				p
	Não		Sim			Não		Sim		
	n	%	n	%		n	%	n	%	
W-R DI NÃO	25	75,8	8	24,2	0,56	14	60,9	9	39,1	0,55
W-R DI SIM	5	100	0	0,0		1	33,3	2	66,7	
W-R DI ou LI NÃO	18	75,0	6	25,0	0,68	10	58,8	7	41,2	1,00
W-R DI OU LI SIM	12	85,7	2	14,3		5	55,6	4	44,4	
W-III DI NÃO	8	88,9	1	11,1	(1)	4	80,0	1	20,0	(1)
W-III DI SIM	1	50,0	1	50,0		0	0,0	1	100,0	
W-III DI OU LI NÃO	6	85,7	1	14,3	(1)	2	66,7	1	33,3	(1)
W-III DI OU LI SIM	3	75,0	1	25,0		2	66,7	1	33,3	

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher; Desvio Fonológico (W-R $n = 38$; W-III $n = 11$). Dificuldade Escolar (W-R $n = 26$; W-III $n = 6$).

- (1) Valor não calculado devido ao reduzido número de sujeitos que foram submetidos ao teste. W-R = *Preschool and Primary Scale of Intelligence*; W-III = *Intelligence Scale for Children*; DI = *Preschool and Primary Scale of Intelligence* dificuldade intelectual; LI = limítrofe.

A queixa de fala referida pelos responsáveis foi associada à presença ou ausência de desvio fonológico no GE. Os resultados mostram concordância entre a percepção dos pais sobre a dificuldade da criança e a frequência de desvio fonológico observada pela pesquisadora ($p < 0,01$) (Tabela 15).

TABELA 15 - ASSOCIAÇÃO ENTRE AS VARIÁVEIS QUEIXA DE FALA E DESVIO FONOLÓGICO

QUEIXA DE FALA	DESVIO FONOLÓGICO			
	Não		Sim	
	n	%	n	%
Não	69	87,3	10	12,7
Sim	10	47,6	11	52,4
P	$p < 0,001$			

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Exato de Fisher; $n = 100$.

4.4.2.1 Análise multivariada para a variável dependente "desvio fonológico"

Para a análise multivariada, foi selecionada como variável dependente a presença ou ausência de desvio fonológico. Tal variável foi relacionada aos dados de avaliação e tratamento médico, de acordo com a relevância para o cruzamento. O modelo aplicado foi o de Regressão Logística.

Primeiramente, a variável referente à presença ou ausência de desvio fonológico foi associada à idade de início do tratamento, etiologia do HC, dosagens iniciais de T_4 , T_4 livre e TSH, e porcentagem de T_4 , T_4 livre e TSH alterados até os três primeiros anos de vida (Tabela 16). Observou-se que nenhuma das variáveis isoladamente foi preditora do desvio fonológico.

TABELA 16 - REGRESSÃO LOGÍSTICA CONSIDERANDO O DESVIO FONOLÓGICO COMO VARIÁVEL DEPENDENTE E OS DADOS DO TRATAMENTO COMO VARIÁVEIS INDEPENDENTES

VARIÁVEIS REFERENTES AO TRATAMENTO	OR	IC	p
Idade de início de tratamento	1,03	1,0-1,0	0,14
Etiologia	1,00	1,0-1,0	0,42
T_4 pré-tratamento	2,49	0,6-10,4	0,20
% T_4 alterado até 3 anos	1,00	0,9-1,0	0,76
%TSH alterado até 3 anos	1,04	1,0-1,1	0,06
% T_4 livre alterado até 3 anos	0,98	0,9-1,0	0,61

FONTE: O autor (2014)

NOTA: OR = *odds ratio*; IC = intervalo de confiança.

O desvio fonológico como variável dependente também foi associado aos resultados dos testes neuropsicológicos realizados aos 12, 24 e 36 meses de idade, aos dados de queixa trazida pelos responsáveis e ao período de início da oralidade da criança. Observou-se que as crianças que apresentaram CLAMS alterado durante os três primeiros anos de vida e aquelas cujos pais referiram queixa de fala tiveram mais chances de apresentar desvio fonológico (OR = 13,40 e OR = 10,81, respectivamente) (Tabela 17).

TABELA 17 - REGRESSÃO LOGÍSTICA CONSIDERANDO O DESVIO FONOLÓGICO COMO VARIÁVEL DEPENDENTE E OS RESULTADOS DOS TESTES NEUROPSICOLÓGICOS E AS INFORMAÇÕES TRAZIDAS PELOS PAIS COMO VARIÁVEIS INDEPENDENTES

VARIÁVEIS	OR	IC	p
CAT	0,64	0,1-7,3	0,72
CLAMS	13,40	2,5-71,3	0,002
CDC	3,18	0,3-31,9	0,32
Queixa de fala	10,81	2,4-48,8	0,002
Período de início da oralidade	0,85	0,1-5,5	0,87
% Casos corretamente classificados	81,94		< 0,001

FONTES: O autor (2014)

NOTA: OR = odds ratio; IC = intervalo de confiança.

4.5 ANÁLISE DAS VARIÁVEIS INTERFERENTES

Foram identificadas algumas variáveis interferentes para as avaliações vocais e fonológicas. Dessa forma, buscou-se analisar sua ocorrência, fazendo uma comparação entre os grupos (GC e GE) (Tabela 18). Observou-se diferença estatisticamente significativa apenas para a variável Bronquite/ Asma ($p = 0,02$), cuja ocorrência foi maior no GC. No entanto, como foram incluídas na pesquisa somente crianças que apresentaram crises num período superior a 30 dias da data da coleta, acredita-se que tal diferença não tenha influenciado nos resultados obtidos. A ocorrência de todas as outras variáveis interferentes foi semelhante entre os grupos.

TABELA 18 - COMPARAÇÃO ENTRE GC E GE QUANTO À OCORRÊNCIA DAS VARIÁVEIS INTERFERENTES

VARIÁVEL INTERFERENTE	GC				GE				p
	Sim		Não		Sim		Não		
	n	%	n	%	n	%	n	%	
Período de gestação ⁽¹⁾	9	9,1	90	90,9	10	10,0	90	90,0	1,00
Hábitos vocais abusivos	66	66,0	34	34,0	76	76,0	24	24,0	0,20
Rinite/Sinusite	30	30,0	70	70,0	23	23,0	77	77,0	0,30
Bronquite/Asma	23	23,0	77	77,0	10	10,0	90	90,0	0,02
Gastrites/Refluxo	3	3,0	97	97,0	0	0,0	100	100,0	0,30

FONTE: O autor (2014)

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates; n = 200.

n GC para as variáveis período de gestação e intercorrências na gestação = 99.

(1) Sim = Pré-termo; Não = Termo.

Finalizando a análise das variáveis interferentes, os alunos da creche (idade cronológica de quatro a cinco anos; n = 19) foram comparados às demais crianças do GC da mesma faixa etária (n = 19) quanto à presença de desvio fonológico. Tal análise foi feita devido à possibilidade de as crianças da creche (filhos de funcionários do hospital) ter nível socioeconômico superior às demais crianças estudadas e tal fator influenciar no desenvolvimento fonológico. Para esta análise, também não houve diferença estatisticamente significativa ($p = 0,62$) e, portanto, as crianças provenientes da creche foram mantidas na amostra.

5 DISCUSSÃO

O HC é uma doença endócrina que requer grande atenção por parte da equipe de saúde. Isso porque, quando diagnosticado e tratado precocemente, permite que a criança tenha um desenvolvimento normal, sem sequelas neurológicas e (ou) de crescimento/desenvolvimento. Pensando na necessidade de trabalhos que compreendam melhor a relação entre o HC e as alterações fonoaudiológicas, o objetivo do presente trabalho foi avaliar as características vocais e fonológicas deste grupo de crianças, comparando-as a um grupo de crianças saudáveis e associando-as às variáveis referentes ao diagnóstico e tratamento médico para a doença.

Inicialmente, quanto à caracterização do GE, algumas inferências e análises podem ser feitas. Houve predomínio de crianças do sexo feminino, o que corrobora os dados já apresentados pela literatura da área, de aproximadamente duas meninas para cada menino (BENEVIDES *et al.*, 2006; KRATZSCH; PULZER, 2008). De acordo com Waller *et al.* (2000), dois fatores são elencados como possíveis causadores da maior ocorrência do HC no sexo feminino, embora ainda não haja comprovação sobre o assunto. O primeiro diz que há uma possível maior suscetibilidade das mulheres serem acometidas pela doença, e o segundo aposta em uma maior sobrevivência dos fetos do sexo feminino em relação aos do sexo masculino quando da ocorrência do HC. No entanto, não há uma explicação consensual e clara sobre o motivo pelo qual o sexo feminino é mais suscetível à ocorrência de HC.

Na presente pesquisa, as disgenesias (agenesias, ectopias e hipoplasias) corresponderam à maior parte do grupo com HC, totalizando 58,8% dos casos. A literatura aponta um valor superior a este no que se refere à etiologia da doença, indicando que as disgenesias podem representar de 85,0 a 90,0% das causas de HC (LÉGER *et al.*, 2002; VELA-AMIEVA *et al.*, 2004). Já as disormonogêneses, que têm apresentação menos comum (em torno de 1:40.000 nascidos vivos) (FISHER, 1981) tiveram elevada ocorrência neste estudo (41,2%). Deve-se considerar que estudos recentes mostram um aumento na propoção de disormonogênese nos últimos anos porque a diminuição dos níveis de corte na triagem tem detectado casos mais leves da doença (HARRIS; PASS, 2007; CORBETTA *et al.*, 2009;).

No que se refere à idade de início do tratamento, a mediana de 18,0 dias (4,0 a 90,0 dias; IC 95% = 11,5 - 44,0) indica que o início da reposição hormonal tem ocorrido de forma bastante precoce na UEP do Hospital de Clínicas/UFPR. Tal achado tem relação com o avanço do PTN a partir de 2001 em todo o Brasil, embora autores apontem que ainda seja preciso reduzir a idade de coleta e início do tratamento (NESI-FRANÇA; DOMINGOS, 2008), já que a recomendação internacional é de que todas as crianças iniciem a reposição hormonal até a segunda semana de vida para evitar sequelas (BONGERS-SCHOKKINK *et al.*, 2000; MACIEL *et al.*, 2013).

O sinal clínico "choro rouco" na primeira consulta, extraído do prontuário, foi observado em apenas 12,1% das crianças. Estudos anteriores relataram frequências entre quatro e 23,3% para este sinal (GRANT *et al.*, 1992; PEZUTTI; LIMA; DIAS, 2009). No entanto, outros trabalhos não incluíram a observação do choro rouco (BENEVIDES *et al.*, 2006; CHEN *et al.*, 2013), embora a literatura seja categórica em informar que este é um dos sinais mais comuns do HC ao nascimento (LaFRANCHI *et al.*, 1979; MORE *et al.*, 2004; SALIM; VARMA, 2014). Acredita-se que tais divergências tenham relação com a natureza subjetiva da avaliação perceptivo-auditiva da voz/choro, que depende, dentre outros aspectos, da experiência do clínico e da valorização de discretas diferenças em relação ao padrão de normalidade. Contudo, vale ressaltar que registros em prontuário não necessariamente correspondem à ocorrência real do sinal, que pode ter passado despercebido.

Após análise das dosagens séricas de T₄ pré-tratamento, observou-se semelhança entre o número de crianças com HC mais e menos grave, considerando-se o valor de corte de 2,50µg/dL (GRANT *et al.*, 1992; DUBUIS *et al.*, 1996). Resultados distintos foram obtidos no estudo realizado por Pezutti, Lima e Dias (2009), em que foi analisada a gravidade do HC em 443 recém-nascidos identificados pelo PTN do Estado de Minas Gerais. Do total, a maior parte (n = 285) apresentava a doença com maior gravidade, de acordo com o valor de T₄ livre.

A qualidade do tratamento durante os três primeiros anos de vida foi avaliada por meio da porcentagem de valores de função tireoidiana alterados. Os resultados foram próximos a 20% nas três avaliações (T₄, T₄ livre e TSH). Considerando-se o grande número de dosagens feitas durante este período (aproximadamente 16), os valores obtidos indicam que, de forma geral, a qualidade do tratamento das crianças com HC na UEP tem acontecido de forma adequada.

A comparação entre o GE e GC quanto aos dados epidemiológicos indicou semelhança entre as idades cronológicas e diferença entre os sexos e escolaridade. A coleta por conveniência, no GC, teve uma maior frequência de meninos, o que se opôs ao GE, que, como supracitado, teve predominância da doença no sexo feminino. O número de crianças que ainda não frequenta a escola/creche foi superior no GE em relação ao GC. Considerando os dados da literatura que indicam que, mesmo com o tratamento precoce, as crianças com HC possam apresentar discretos *déficits* neurológicos (ROVET, 2005), a inserção precoce à escolarização pode ser de extrema importância e deve ser sugerida e orientada aos pais pela equipe de saúde.

No que se refere à avaliação vocal, houve semelhança entre os grupos GE e GC para todos os parâmetros analisados. Não foram localizados estudos que apresentassem dados sobre a voz de crianças com HC tratadas precocemente. No entanto, dois fatores tornavam tal investigação relevante: o fato de estudos antigos referirem distúrbios vocais em crianças com HC diagnosticado tardiamente (HURXTHAL, 1946; HURXTHAL; MUSULIN, 1946); e os resultados alterados de avaliações acústicas da dos RN portadores de HC pré-tratamento (MICHELSSON; SIRVIÖ, 1976; BOERO *et al.*, 2000).

No trabalho de Boero *et al.* (2000), as alterações observadas no choro dos RN com HC pré-tratamento, por meio de análise acústica espectrográfica (menores valores de F_0 média, mínima e máxima, maiores variações de F_0 e menor intensidade em comparação a um grupo controle), mantiveram-se presentes em 25% da amostra mesmo após quatro semanas de reposição hormonal. No entanto, não foram localizados outros trabalhos que avaliassem os parâmetros vocais de crianças com HC de maior idade, ou seja, depois de um tempo maior do início do tratamento.

A avaliação perceptivo-auditiva da voz é uma tarefa complexa, que envolve uma série de fatores, tais como experiência do clínico e suas preferências, treinamento prévio, tipo de estímulo (emissão sustentada, fala encadeada) e erros casuais (KREIMAN *et al.*, 1992; PATEL; SHRIVASTAV, 2007). Quando este tipo de avaliação compreende vozes infantis, tal complexidade se torna ainda maior, devido aos desvios vocais comuns e inerentes ao desenvolvimento da laringe e maturação do ligamento vocal durante esse período (POSSAMAI; HARTLEY, 2013). Assim, o grande número de crianças que falhou na triagem vocal, em ambos os grupos, provavelmente tenha relação com esse processo de evolução anatômica e fisiológica pela qual as crianças

passam durante a infância. Além disso, a baixa concordância (intra e inter) dos juízes em alguns parâmetros durante as avaliações possivelmente está associada aos aspectos/dificuldades supracitados.

Um estudo realizado por Eckley, Anelli e Duprat (2008), durante uma Campanha Nacional da Voz, mostrou que cerca de 50,0% dos indivíduos com exames laringológicos normais são considerados disfônicos do ponto de vista perceptivo-auditivo. O contrário também é observado, ou seja, há indivíduos com lesões benignas de laringe cuja voz é considerada adaptada/normal. O mesmo resultado pôde ser observado na presente pesquisa: das 11 crianças diagnosticadas com lesões laríngeas, três passaram na triagem vocal; e das 59 com avaliações laringológicas normais, 34 falharam na triagem. Estes dados corroboram as orientações fornecidas por Roy *et al.* (*in press*) de que a avaliação vocal deve ser multidimensional e valorizar a associação de todas as possibilidades diagnósticas para a tomada de decisão sobre cada caso.

Os resultados da análise acústica da voz também foram semelhantes entre os grupos GC e GE, com todas as médias/medianas dentro dos valores de normalidade estimados pelo *Software VOXMETRIA*. Além disso, as médias/medianas referentes à F_0 e medidas de ruído (*jitter*, *shimmer* e proporção GNE) são semelhantes a valores já apresentados na literatura (TAVARES, LABIO E MARTINS; 2010; NIEDZIELSKA, 2001; OLIVEIRA *et al.*, 2011).

Um estudo desenvolvido por Behlau, Tosi e Pontes (1985) obteve média de F_0 para crianças ao redor de 238Hz, valor inferior aos obtidos no presente estudo (GE = 263,6Hz e GC = 257,6 Hz). No entanto a faixa etária envolvida no referido estudo era de oito a 11 anos enquanto nesta pesquisa houve também a inclusão um grande número de crianças mais novas.

Também não houve diferença entre os grupos quanto ao DDF, sendo que em ambos a frequência de distribuição fora da área indicativa de normalidade foi alta, de aproximadamente 40%. Embora se saiba que o DDF tenha uma importante contribuição na avaliação acústica e acompanhamento terapêutico de adultos (MADAZIO; LEÃO; BEHLAU, 2011; PIFAIA; MADAZIO; BEHLAU, 2013), um estudo recente apontou que, para crianças, ele pode não ser sensível na diferenciação de vozes saudáveis e alteradas (LIMA *et al.*, 2013).

Quanto à aplicação do protocolo QVV-P, também não houve diferença entre os grupos, e as médias dos escores obtidos tanto no GC (99,5 pontos) quanto no GE

(99,3 pontos) indicam que não há qualquer impacto na qualidade de vida relacionada à voz (RIBEIRO; DE PAULA; BEHLAU, *in press*). Tais resultados foram semelhantes aos achados da avaliação perceptivo-auditiva e acústica, embora se saiba que pode não haver uma relação direta entre a avaliação clínica e a autoavaliação do paciente diante de um possível problema de voz (MORAIS; AZEVEDO; CHIARI, 2012; UGULINO; OLIVEIRA; BEHLAU, 2012; DE ARAÚJO PERNAMBUCO *et al.*, 2013). Em caráter de ilustração, observa-se que das 11 crianças diagnosticadas com lesões benignas de PPVV, apenas dois responsáveis referiram queixa vocal durante a anamnese e apresentaram escores abaixo de 90 pontos no QVV-P, e ainda assim, somente no DF. Tal resultado confirma a falta de percepção dos pais diante dos problemas vocais enfrentados pelos filhos, historicamente referida na literatura (WILSON, 1979; TEIXEIRA; TREZZA; BEHLAU, 2003; TAVARES *et al.*, 2011).

Se por um lado ainda não existem estudos que tenham avaliado as vozes das crianças com HC, pesquisas realizadas com adultos portadores de hipotireoidismo adquirido indicam que os sintomas de rouquidão, voz grave, voz fraca e tensão ao falar são bastante comuns neste grupo (BARTON, 1951; BICKNELL, 1973; BOTTERO *et al.*, 1983; ISOLAN-CURY *et al.*, 2007).

Houve uma perda significativa na amostra para a avaliação laringológica, pelo não comparecimento das crianças, mesmo mediante agendamento prévio realizado no dia da avaliação vocal e fonológica. No estudo de TAVARES *et al.* (2011), de 2.000 escolares encaminhados para avaliação laringológica, apenas 259 compareceram, e, ainda assim, somente 222 consentiram ser examinados. Pode-se inferir que estes achados tenham relação com a falta de valorização da necessidade desse tipo de avaliação pelos responsáveis, que, em geral, não apresentam queixas e não identificam sintomas vocais enfrentados pelos filhos. Deve-se considerar, ainda, a possibilidade de viés na coleta deste dado, uma vez que os pais com queixas podem ter uma maior motivação a levarem os filhos para a avaliação.

A avaliação laringológica mostrou que as crianças do GC e GE tiveram frequências semelhantes em relação ao diagnóstico de lesões benignas em pregas vocais (15 e 16,5%, respectivamente). De forma geral, as lesões mais comuns foram os nódulos vocais bilaterais ($n = 6$), concordando com os achados de outros estudos da área de disfonia infantil (MACKIEWICZ-NARTOWICZ; SINKIEWICZ; BIELECKA,

2011; MARTINS *et al.*, 2012; POSSAMAI; HARTLEY, 2013). A maior frequência de coaptação glótica incompleta em ambos os grupos (GC = 60,0%;GE = 56,7%) era esperada mesmo nas crianças sem lesão em pregas vocais, visto que esta característica tem relação direta com o processo de desenvolvimento laríngeo das crianças. A fenda glótica triangular posterior é considerada fisiológica na infância e está relacionada ao formato circular da cartilagem cricóidea, à maior lateralização das cartilagens aritenóideas, à baixa proporção glótica entre as porções membranáceas e cartilaginosas das PPVV e à imaturidade do ligamento vocal e lâmina própria (PONTES; BEHLAU; KYRILLOS, 1994; BEHLAU *et al.*, 2001).

Não foram encontrados estudos sobre avaliação laringológica em crianças com HC. No entanto, uma pesquisa experimental teve o objetivo de identificar as características histológicas das PPVV de adultos com hipotireoidismo adquirido (RITTER, 1967). O autor identificou a presença de mixedema de PPVV decorrente do acúmulo de ácido hialurônico na região submucosa.

A literatura aponta uma maior prevalência de distúrbios vocais em crianças do sexo masculino, devido aos hábitos vocais mais abusivos (MARTINS *et al.*, 2012; KOLLBRUNNER; SEIFERT, 2013). Como os grupos GC e GE não eram homogêneos quanto a esta variável, foi realizada uma análise complementar, de associação entre os resultados da triagem vocal e do exame laringológico e a variável sexo. Tal análise não evidenciou diferença estatística em nenhum dos cruzamentos e, por este motivo, meninos e meninas foram analisados conjuntamente. É importante mencionar que, em um trabalho recente, crianças do sexo feminino e masculino também tiveram prevalência semelhante de distúrbios vocais (OLIVEIRA *et al.*, 2011) e os autores fazem inferência à modificação de hábitos vocais das meninas na atualidade, que estão mais inseridas em práticas esportivas e atividades escolares e sociais mais dinâmicas.

Durante a anamnese, as dificuldades de fala foram mais frequentes no GE e esta queixa pôde ser confirmada posteriormente pela avaliação fonológica. No que se refere ao desenvolvimento da linguagem, de forma geral, ainda há controvérsias sobre sua relação com o HC. Alguns estudos referem desenvolvimento adequado quando crianças com HC são comparadas a um grupo controle (FUGLE *et al.*, 1991; ROVET, 1999). Por outro lado, há pesquisas que apontam indícios de *déficits* fonológicos e (ou) atrasos significativos no desenvolvimento da linguagem (ROVET; EHRlich; SORBARA, 1992; KOOISTRA *et al.*, 1994; BARGAGNA *et al.*, 2000;

ALVAREZ, 2004). Acredita-se que tais divergências possam ter relação com a grande diversidade metodológica observada nos estudos, tais como seleção de variáveis, tamanho da amostra, tipos de testes/avaliações empregados e forma de análise de dados.

Neste estudo, na comparação quanto à presença de desvio fonológico, não houve diferença estatisticamente significativa entre os grupos GC e GE. Este dado foi baseado nos critérios de normalidade do Teste ABFW (ANDRADE *et al.*, 2004), que permite que a aquisição fonológica completa aconteça até os sete anos de idade (7:0 anos). Embora a prevalência de desvio fonológico na população geral de crianças seja bastante variável de acordo com a literatura (uma vez que existem muitas formas de avaliação), os estudos epidemiológicos nacionais e internacionais mais robustos do ponto de vista metodológico, indicam valores entre nove e 15% (GIERUT, 1998; LONGONI; RICHARDSON; AIELLO, 1993; CAVALHEIRO; BRANCALIONI; KESKE-SOARES, 2012). Pode-se inferir, portanto, que a frequência de desvio fonológico no GE foi superior à observada na população geral.

Um estudo realizado por Bargagna *et al.* (2000) teve o objetivo de identificar possíveis alterações nas funções neuropsicológicas enfrentadas por crianças com HC, por meio de avaliações motoras, de inteligência, de linguagem e fonológica, comparando-as às de crianças saudáveis. Foram avaliadas 24 crianças com HC e 25 controles normais. Os autores concluíram que, aos sete anos, o desenvolvimento cognitivo das crianças com HC era semelhante ao do GC. No entanto, aos três anos, 29% das crianças com HC apresentavam desvio fonológico; aos cinco anos, 37,5%; e aos sete anos, 12,5%. Os autores não mencionam qual foi a frequência de desvio fonológico no GC.

Os processos fonológicos apresentados pelas crianças foram categorizados em normais (quando esperados para a idade) ou anormais (quando já deveriam ter sido eliminados), de acordo com os parâmetros do ABFW. Houve diferença entre os grupos apenas para o processo de simplificação de encontros consonantais na prova de imitação, sendo que o GE apresentou maior frequência quando comparado ao GC.

É importante mencionar que a estrutura consoante/consoante/vogal (CCV), envolvendo as líquidas [l] e [r], é descrita na literatura como uma das mais complexas, e por este motivo, é a última a alcançar estabilidade dentro do sistema fonológico da

criança (RIBAS, 2004). Talvez por este motivo, o processo de SEC também é o mais observado entre as crianças com desvio fonológico, juntamente com o processo de SL (OLIVEIRA; WERTZNER, 2000).

Vale a pena discutir sobre os critérios de normalidade adotados pelo ABFW, que permitem que os processos de simplificação de encontros consonantais e simplificação de consoantes finais ocorram até os sete anos (7:0) de idade. Tais critérios foram estabelecidos a partir do estudo de Wertzner (1995), uma das autoras do instrumento, realizado com crianças de nível socioeconômico baixo, da cidade de São Paulo. A autora justifica que a persistência destes processos até os sete anos de idade pode ter relação com o meio linguístico frequentado pelas crianças, considerando suas variações. No referido estudo, quanto à SEC, a substituição mais comum foi a da líquida [l] pela líquida [r], como por exemplo: [bluza] por [bruza]; [plãta] por [prãta], o que também foi o mais frequente na presente pesquisa.

Embora o nível socioeconômico e o grau de instrução dos pais não tenham sido analisados no presente estudo, partiu-se do pressuposto de que pelo fato de todas as crianças serem usuárias de um mesmo serviço público de saúde, elas teriam situações semelhantes quanto a estas variáveis. Em um estudo anterior, que analisou 280 prontuários de crianças com HC atendidas na UEP/HC/UFPR, observou-se que 37,2% delas pertenciam a famílias cuja renda *per capita* mensal era inferior a meio salário mínimo. Além disso, quase 60,0%, tanto dos pais quanto das mães, não tinham completado o ensino fundamental (NESI-FRANÇA; 2006).

Em relação à diferença estatisticamente significativa na prova de imitação e não na de nomeação, tem-se a hipótese de que, na primeira, o número de processos de SEC envolvendo a líquida [l] é maior do que na segunda. Assim, se a principal dificuldade das crianças encontra-se na produção da líquida [l] na estrutura CCV, os resultados podem ser piores na prova de imitação. Um estudo desenvolvido por Wertzner, Papp e Galea (2006) teve o objetivo de verificar a associação entre os resultados de desempenho fonológico obtidos nas provas de nomeação e imitação do Teste ABFW. Embora os resultados tenham demonstrado concordância entre as provas, observou-se um maior número de processos produtivos na prova de imitação.

Optou-se por analisar a produtividade de cada um dos processos descritos pelo ABFW de acordo com a idade. Na idade de sete anos houve diferença entre os grupos GC e GE na prova de imitação e tendência à diferença na prova de nomeação.

Crianças do GE tiveram maior frequência de SEC do que as crianças do GC. Nesta faixa etária, segundo os parâmetros do instrumento, todas as crianças já deveriam apresentar o sistema fonológico completo (ANDRADE *et al.*, 2004).

Ainda aos sete anos, nota-se que não há a ocorrência da SEC entre as crianças do GC, enquanto no GE ela ocorre em 41,7% na prova de imitação e 25,0% na prova de nomeação. Em estudo sobre a análise dos processos fonológicos em crianças com desenvolvimento fonológico normal, Ferrante, Borsel e Pereira (2009) concluíram que entre 7:0 e 7:11 anos de idade, a SEC ocorre em menos de 0,5% dos casos, o que está de acordo com os resultados do GC deste estudo.

Bargagna *et al.* (1997), realizaram um estudo para comparar o desenvolvimento neuropsicológico entre uma criança com HC e sua irmã gêmea que não apresentava a doença. Uma das avaliações realizadas correspondia ao desenvolvimento fonológico e de linguagem expressiva. Observou que, aos quatro anos, a criança com HC apresentava aquisição fonológica atrasada em relação à irmã sem a doença. No entanto, aos oito anos, a criança com HC, assim como a irmã, apresentava sistema fonológico completo.

Os resultados da pesquisa supracitada chamam atenção pelo fato de que, no presente estudo, entre os oito anos e nove anos de idade, as crianças com HC também completaram seu sistema e demonstraram se equiparar às crianças do GC no que se refere à aquisição fonológica. O que não se sabe, no entanto, é o quanto este discreto atraso enfrentado pelas crianças do GE até essa idade poderia influenciar negativamente nas habilidades escolares, uma vez que, nessa faixa etária, as crianças já estão em fase de alfabetização.

Embora não tenha sido o foco deste estudo, quando questionados sobre o desempenho escolar das crianças, os responsáveis do GE referiram uma maior frequência de dificuldades quando comparados ao GC. De forma geral, estudos apontam que desvios fonológicos podem gerar dificuldades escolares, uma vez que a consciência fonológica é fundamental para o desenvolvimento das habilidades de leitura e escrita (SALGADO; CAPELLINI, 2004, SILVA; ÁVILA, 2013).

Em estudo realizado na UEP, com o objetivo de avaliar as habilidades auditivas de crianças com HC, 24,0% dos pais mencionaram dificuldade ou atraso nas questões escolares. Além disso, 20,0% das crianças já haviam repetido o ano escolar pelo menos uma vez (MUÑOZ; 2012). A autora não observou alterações

auditivas nas crianças por meio de avaliação audiométrica e de potencial evocado auditivo de tronco encefálico, mas sugeriu que as crianças com HC devam ser investigadas quanto às habilidades do processamento auditivo.

Especificamente sobre o HC, há poucos estudos que comparam as habilidades escolares deste grupo às de crianças sem a doença. Uma pesquisa teve o objetivo de descrever o progresso em leitura, matemática, habilidades motoras e comportamento em um grupo de crianças com HC. Participaram 59 crianças com HC (31 com HC mais grave e 28 com HC menos grave do ponto de vista hormonal) com 10 anos de idade e 59 colegas de classe (GC). Na habilidade de leitura não houve diferença entre os grupos. Por outro lado, crianças com HC mais grave apresentaram mais alterações em matemática, habilidades motoras e comportamento (SIMONS *et al.*, 1997). O estudo não menciona quantas crianças com HC apresentaram desvio fonológico em algum momento do desenvolvimento.

Já o estudo de Bargagna *et al.* (1999) avaliou o desempenho escolar de 19 crianças com HC tratadas precocemente e as comparou a 298 crianças sem a doença, pareadas por idade e nível escolar. Na idade pré-escolar, as crianças com HC tiveram piores desempenhos nas provas de cópia de símbolos e figuras, repetição de frases e escrita espontânea (prova de reconhecimento de erro ortográfico). Na referida pesquisa, também não houve menção sobre possíveis desvios fonológicos e (ou) de consciência fonológica.

Foi localizado um único estudo que encontrou uma relação entre os problemas de aprendizagem e o histórico de distúrbios de fala e (ou) linguagem oral em crianças com HC (DINETTI *et al.*, 1998). Na referida pesquisa, a dificuldade escolar no grupo com HC foi mais frequente do que num grupo controle pareado por série escolar e idade. As dificuldades apresentadas também foram relacionadas a outras variáveis como baixos níveis de QI e um pior nível sociocultural.

Considerando os aspectos supracitados referentes ao desempenho escolar de crianças com HC, sugere-se a realização de novos estudos, preferencialmente longitudinais, que associem as habilidades fonológicas ao desempenho escolar neste grupo. Isso porque, a presente pesquisa identificou tanto um atraso na aquisição fonológica quanto um maior número de queixas escolares quando comparadas às crianças do GC.

Os GC e GE, quando pareados por sexo e idade, foram comparados quanto à produtividade dos processos fonológicos, agora sem considerar os parâmetros de normalidade, visto que ambos os grupos tinham exatamente o mesmo número de crianças para cada uma das faixas etárias. Nesta análise, não houve diferença para nenhum dos cruzamentos. Acredita-se que este dado tenha relação com a redução do número de crianças analisadas (64 pares).

Ainda com os grupos pareados, a variável sistema fonológico foi analisada de acordo com a idade. Quando foram comparadas as faixas etárias de quatro + cinco anos e seis + sete anos, o GC apresentou uma maior frequência de aquisição completa quando comparado ao GE ($p = 0,02$). Observa-se que, até seis anos e onze meses, 100% das crianças do GC já tinham o sistema fonológico completo, contra 50% do GE. Aos sete anos e 11 meses, no GE este valor aumentou para 63,3%, porém só atingiu 100% aos nove anos e 11 meses.

Aos sete anos (7:0), de acordo com o ABFW, o sistema fonológico de todas as crianças já deveria estar completo. Entretanto, como mencionado anteriormente, devido às variáveis envolvidas durante o processo de validação, este instrumento tem critérios mais permissivos quando comparado aos de outros autores. De acordo com McLeod e Bleile (2003), a partir dos seis anos de idade, crianças com desenvolvimento fonológico normal não apresentam mais processos na fala. Este parâmetro é ainda mais rigoroso em outros estudos, que apontam que aos quatro anos de idade a maior parte das crianças já tem o sistema fonológico completo (YAVAS; HERNANDORENA; LAMPRECHT, 2002; VIEIRA; MOTA; KESKE-SOARES, 2004; CAVALHEIRO; BRANCALIONI; KESKE-SOARES, 2012).

Portanto, considerando-se os parâmetros de McLeod e Bleile (2003) e do ABFW (ANDRADE *et al.*, 2004), somente as crianças do GE apresentaram problemas de ordem fonológica; e considerando os parâmetros de Yavas, Hernandorena e Lamprecht (2002), Vieira, Mota e Keske Soares (2004) e Cavalheiro, Brancalioni e Keske-Soares (2012), ambos os grupos tiveram resultados abaixo do esperado. Deve-se considerar, no entanto, que tanto as crianças do GC quanto as do GE tinham, em geral, nível socioeconômico baixo, por serem provenientes de um mesmo serviço público de saúde e por já haver pesquisa anterior confirmando esta condição (NESI-FRANÇA; 2006).

Os resultados referentes à triagem vocal e análise acústica da voz foram comparados às variáveis de avaliação e tratamento das crianças com hipotireoidismo. Não houve associação significativa para nenhum dos cruzamentos: idade de início de tratamento, etiologia, gravidade do HC pré-tratamento e valores de T_4 , T_4 livre e TSH no dia da coleta de dados para esta pesquisa.

Esperava-se que uma maior frequência de desvios vocais fosse observada em crianças cujos valores da função tireoidiana no dia da coleta estivessem mais alterados. Isso porque, em um estudo realizado com mulheres adultas portadoras de hipotireoidismo adquirido, na primeira consulta em que todas as participantes apresentavam valores elevados de TSH e diminuídos de T_4 , as queixas de alterações vocais foram referidas por 26,3% da amostra (LEYE *et al.*, 2004). Esta falta de concordância entre a literatura e a presente pesquisa pode ter acontecido pelo fato de que, de forma geral, no dia da coleta todas as crianças estavam controladas no que se refere à função tireoidiana. Como mencionado no capítulo anterior, das 27 crianças que apresentavam valor de TSH elevado, de acordo com os parâmetros do Hospital de Clínicas, 63,3% o tinham de forma leve. Além disso, valores alterados de T_4 , T_4 livre foram praticamente inexistentes.

As variáveis referentes à avaliação fonológica também foram comparadas aos dados clínicos das crianças com HC. A presença de desvio fonológico não foi associada à idade de início de tratamento das crianças (mediana de 18 dias). Foi realizada uma pesquisa cujo objetivo era avaliar inteligência, habilidades motoras e comportamento de 51 crianças com HC e sua relação com idade de início de tratamento (FUGLE *et al.*, 1991). Os autores também não encontraram associação entre estas variáveis. Acredita-se que o desenvolvimento e o aperfeiçoamento dos PTN estejam permitindo diagnósticos cada vez mais precoces, o que homogeneiza o grupo quanto à idade de início da reposição hormonal.

Quanto à gravidade da doença pré-tratamento, também não foram observadas associações com a variável desvio fonológico. Este dado diverge de várias pesquisas da área, que concluem que quanto maiores as alterações hormonais iniciais, pior é o desenvolvimento das crianças com HC nos aspectos de inteligência (KOOISTRA *et al.*, 1994), matemática, motores, de comportamento (SIMONS *et al.*, 1997) e de linguagem (BARGAGNA *et al.*, 2000; ALVAREZ *et al.*, 2004; BARGAGNA *et al.*, 2006). É importante frisar que houve uma grande variedade metodológica nos referidos

estudos em relação à definição de gravidade, com valores de corte diferentes e isso, portanto, pode explicar a não concordância com os dados deste estudo.

Crianças com agenesia da glândula tireoide apresentaram maior frequência de desvio fonológico. Rovet, Ehrlich e Sorbara (1992), em trabalho realizado com 108 crianças com HC com idades entre um e cinco anos e 71 irmãos sem a doença, concluíram que crianças com agenesia de tireoide tiveram mais risco de problemas do desenvolvimento neurológico. Na mesma linha de investigação, Kooistra *et al.* (1994) concluíram que crianças com agenesia de tireoide apresentam maiores dificuldades relacionadas à fluência verbal quando comparadas às crianças com HC por outras etiologias.

Os resultados mostraram, ainda, associação entre a presença de desvio fonológico e os resultados dos testes neuropsicológicos aplicados às crianças com HC aos 12, 24 e 36 meses. Crianças que tiveram pelo menos um resultado alterado no Teste CLAMS, relacionado à fala e à linguagem, tiveram uma maior frequência de desvio quando comparadas àquelas que tiveram todas as avaliações normais. O mesmo ocorreu em relação ao quociente de cognição CDC. Este dado é de extrema importância à equipe de saúde e permite a inferência de que crianças que falham no CLAMS estão mais suscetíveis a terem atraso na aquisição fonológica e, por este motivo, devem ser acompanhadas com mais rigor. Além disso, se os pais forem orientados quanto às formas de incentivo ao desenvolvimento da fala já nesse momento inicial (aos 12, 24 ou 36 meses), é possível que problemas futuros possam ser prevenidos e (ou) minimizados.

Um estudo teve o objetivo de traçar o perfil de desenvolvimento comunicativo na faixa etária de dois a 36 meses, com 32 crianças com HC tratadas precocemente (GEJÃO; LAMÔNICA, 2008). Foram aplicados dois instrumentos, que avaliavam linguagem, cognição, habilidades motoras, autocuidados e estimulação infantil. No instrumento mais voltado para a avaliação de linguagem, a *Early Language Milestone Scale*, 31,43% das crianças apresentou desempenho alterado, principalmente nas habilidades expressivas (balbúcio, palavras isoladas, frases, etc.) e nas de cognição. No referido estudo, portanto, também foi possível identificar dificuldades específicas apresentadas pelas crianças já nos primeiros anos de vida e que poderão se transformar em dificuldades fonológicas nos anos subsequentes.

A análise multivariada tendo o desvio fonológico como variável dependente indicou que crianças cujos responsáveis relataram queixa de fala têm aproximadamente 10 vezes mais chances de apresentarem este problema. Quando a criança falha em pelo menos uma das avaliações do Teste CLAMS, as chances são ainda maiores, aumentando em 13 vezes a possibilidade de atraso na aquisição fonológica. Tais dados merecem ser analisados com cautela e valorizados pela equipe de saúde, principalmente porque, ainda na análise multivariada, nenhuma das outras variáveis referentes ao acompanhamento médico (etiologia, idade de início de tratamento, gravidade da doença pré-tratamento e qualidade do tratamento) foram isoladamente preditoras de desvio fonológico. Assim, a queixa dos pais deve ser sempre valorizada.

Os dados deste estudo permitem dizer que as características vocais e laringológicas do grupo de crianças com HC são semelhantes às das crianças da população geral. Contudo, há um atraso no desenvolvimento fonológico em relação ao GC, que se acentua quando se consideram etiologia da doença, queixas trazidas pelos responsáveis e resultados dos testes neuropsicológicos realizados nos primeiros anos de vida. A relação entre o atraso na aquisição fonológica e as dificuldades escolares merece ser mais bem aprofundada em um novo estudo, que acompanhe longitudinalmente as crianças com HC.

Espera-se que, a partir dos resultados deste estudo, sejam criadas propostas preventivas e (ou) terapêuticas na área da Fonoaudiologia, visando ao desenvolvimento integral da saúde de crianças com HC. Com estas propostas de intervenção, será possível a realização de novos estudos, que elucidem questões sobre: quais seriam os resultados obtidos a partir de um trabalho precoce de desenvolvimento das habilidades fonológicas em crianças com HC que falham nos testes neuropsicológicos nos três primeiros anos de vida; se tais resultados permitiriam que o sistema fonológico dessas crianças estivesse completo na mesma faixa etária apresentada pelas crianças sem a doença; se o trabalho fonológico precoce, principalmente no que se refere ao desenvolvimento da consciência fonológica, permitiria que as crianças com HC tivessem o mesmo desempenho escolar de crianças saudáveis; qual seria a relação entre atraso no desenvolvimento fonológico e dificuldades escolares em crianças com HC.

6 CONCLUSÕES

A partir os resultados deste estudo, realizado com 100 crianças com HC e 100 crianças de um grupo controle, é possível concluir que:

- Crianças com hipotireoidismo congênito, tratadas precoce e adequadamente, apresentam as mesmas características vocais e laringológicas das crianças sem a doença;
- Há um atraso na aquisição fonológica quando as crianças com HC são comparadas às crianças sem a doença, especialmente na faixa etária entre seis e sete anos;
- Quanto à relação entre a avaliação fonológica e os dados de avaliação e acompanhamento médico: a) A etiologia do HC tem relação com o desenvolvimento fonológico: crianças com agenesia de tireoide estão mais suscetíveis à presença de desvio; b) Crianças que falham nos testes neuropsicológicos nos três primeiros anos de vida têm 13 vezes mais chances de apresentar desvio fonológico nos anos subsequentes; c) A queixa de fala referida pelos pais/responsáveis tem relação direta com as dificuldades fonológicas apresentadas pelas crianças.

REFERÊNCIAS

ACCARDO, P. J.; CAPUTE, A. J. **The Capute scales**: cognitive adaptive test/clinical linguistic and auditory milestone scale (CAT/CLAMS). Baltimore: Paul H. Brookes Pub. Co., 2005. 136p.

ALTMAN, K. W.; HAINES, G. K.; VAKKALANKA, S. K.; KENI, S. P.; KOPP, P. A.; RADOSEVICH, J. A. Identification of thyroid hormone receptors in the human larynx. **Laryngoscope**, v.113, n.11, p.1931-1934, 2003.

ALVAREZ, M.; CARVAJAL, F.; RENÓN, A.; PÉREZ, C.; OLIVARES, A.; RODRÍGUEZ, G.; ALVAREZ, V. Differential effect of fetal, neonatal and treatment variables on neurodevelopment in infants with congenital hypothyroidism. **Hormone Research**, v.61, n.1, p.17-20, 2004.

AMERICAN ACADEMY OF PEDIATRICS; ROSE, S. R.; SECTION ON ENDOCRINOLOGY AND COMITEE ON GENETICS; AMERICAN THYROID ASSOCIATION; BROWN, R. S.; PUBLIC HEALTH COMITEE; LAWSON WILKINS PEDIATRIC ENDOCRINE SOCIETY. Update of newborn screening and therapy for congenital hypothyroidism. **Pediatrics**, v.117, n.6, p.2290-2303, 2006.

AMERICAN SPEECH-LANGUAGE-HEARING ASSOCIATION'S (ASHA). **Consensus Auditory – Perceptual evaluation of voice (CAPE-V). Sponsored by Division 3: Voice and Voice disorders**, Department of Communication Science and Disorders. Pittsburgh: University of Pittsburgh, 2003.

AMERICAN SPEECH-LANGUAGE-HEARING ASSOCIATION (ASHA). **Preferred practice patterns for the profession of speech-language pathology** [Preferred Practice Pattern]. 2004. Disponível em: <www.asha.org/policy>. Acesso em: 20 mar. 2014.

AMIR, O.; ENGEL, M.; SHABTAI, E.; AMIR, N. Identification of children's gender and age by listeners. **Journal of Voice**, v.26, n.3, p.313-321, 2012.

ANDRADE, C. R. F. Prevalência de desordens idiopáticas da fala e da linguagem em crianças de um a onze anos de idade. **Revista de Saúde Pública**, v.31, n.5, p.495-501, 1997.

ANDRADE, C. R. F.; BÉFI-LOPES, D. M.; FERNANDES, F. D. M.; WERTZNER, H. F. **ABFW**: teste de linguagem infantil e nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática. São Paulo: Pró-fono, 2004.

BARGAGNA, S.; ASTREA, G.; PERELLI, V.; RAFANELLI, V. [Neuropsychiatric outcome in patients with congenital hypothyroidism precautiously treated: Risk factors analysis in a group of patients from Tuscany]. **Minerva Pediatrica**, v.58, n.3, p.279-287, 2006.

BARGAGNA, S.; CANEPA, G.; COSTAGLI, C.; DINETTI, D.; MARCHESCHI, M.; MILLEPIEDI, S.; MONTANELLI, L.; PINCHERA, A.; CHIOVATO, L. Neuropsychological Follow-up in Early-Treated Congenital Hypothyroidism: a problem-oriented approach. **Thyroid**, v.10, n.3, p.243-249, 2000.

BARGAGNA, S.; CHIOVATO, L.; DINETTI, D.; MONTANELLI, L.; GIACHETTI, C.; ROMOLINI, E.; MARCHESCHI, M.; PINCHERA, A. A Neuropsychological development in a child with early-treated congenital hypothyroidism as compared with her unaffected identical twin.. **European Journal Of Endocrinology**, v.136, n.1, p.100-104, 1997.

BARGAGNA, S.; DINETTI, D.; PINCHERA, A.; MARCHESCHI, M.; MONTANELLI, L.; PRESCIUTTINI, S.; CHIOVATO, L. School attainments in children with congenital hypothyroidism detected by neonatal screening and treated early in life.. **European Journal Of Endocrinology**, v.140, n.5, p.407-413, 1999.

BARTON, R. T. Pharyngeal and laryngeal symptoms of thyroid origin. **New England Journal of Medicine**, v.244, n.11, p.398-399, 1951.

BEHLAU, M. Considerações sobre a análise acústica em laboratórios computadorizados de voz. In: ARAÚJO, R.; PRACOWNIK, A., SOARES, L. S. D. **Fonoaudiologia atual**. Rio de Janeiro: Revinter, 1997. p.93-115.

BEHLAU, M.; AZEVEDO, R.; MADAZIO, M. Anatomia da laringe e fisiologia da produção vocal. In: BEHLAU, M. (Org.). **Voz: o livro do especialista**. Rio de Janeiro: Revinter, 2001. v.1. p.54-84.

BEHLAU, M.; AZEVEDO, R.; PONTES, P. Conceito de voz normal e classificação das disfonias. In: BEHLAU, M. (Org.). **Voz: o livro do especialista**. Rio de Janeiro: Revinter, 2001. v.1. p.2-51.

BEHLAU, M.; MADAZIO, G.; FEIJÓ, D.; PONTES, P. Avaliação de voz. In: BEHLAU, M. (Org.). **Voz: o livro do especialista**. Rio de Janeiro: Revinter, 2001. v.1. p.85-245.

BEHLAU, M.; MADAZIO, G.; PONTES, P. Disfonias organofuncionais. In: BEHLAU, M. (Org.). **Voz: o livro do especialista**. Rio de Janeiro: Revinter, 2001. v.1. p.295-341.

BEHLAU, M.; OLIVEIRA, G.; SANTOS, L. M. A.; RICARTE, A. Validação no Brasil de protocolos de autoavaliação do impacto de uma disfonia. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.21, n.4, p.326-332, 2009.

BEHLAU, M.; REHDER, M. I.; VALENTE, O. Disfonias endócrinas. In: BEHLAU, M. (Org.). **Voz: o livro do especialista**. Rio de Janeiro: Revinter, 2005. v.2. p.51-74.

BEHLAU, M.; SANTOS, L. M. A.; OLIVEIRA, G. Cross-cultural adaptation and validation of the voice handicap index into brazilian Portuguese. **Journal of Voice**, v.25, n.3, p.354-359, 2009.

BEHLAU, M.; TOSI, O.; PONTES, P. Determinação da frequência fundamental e suas variações em altura (jitter) e intensidade (shimmer) para falantes do português brasileiro. **Acta AWHO**, v.4, n.1, p.5-9, 1985.

BENEVIDES, A. M.; LIMA, C. H. V.; ROCHA, C. A.; CORRÊA, A. R. R.; EL HUSNY, A. S.; FERNANDES-CALDATO, M. C. Perfil epidemiológico de portadores de hipotireoidismo congênito. **Revista Paranesa de Medicina**, v.20, n.3, p.23-26, 2006.

BICKNELL, P. G. Mild hypothyroidism and its effects on the larynx. **The Journal of Laryngology & Otology**, v.87, n.2, p.123-127, 1973.

BIKBAEVA, A. I.; GABDULLIN, N. T. Voice disorders in thyroid gland dysfunction. **Vestnik otorinolaringologii**, n.4, p.51-55, 1986.

BOERO, D.; WEBER, G.; VIGONE, M. C.; LENTI, C. Crying abnormalities in Congenital Hypothyroidism: Preliminary Spectrographic Study. **Journal Of Child Neurology**, v.15, n.9, p.603-608, 2000.

BONGERS-SHOKKING, J. J.; KOOT, H. M.; WIERSMA, D.; VERKERK, P. H.; DE MUNICK KEIZER-SCHRAMA, S. M. Influence of timing and dose of thyroid hormone replacement in infants with congenital hypothyroidism. **Journal of Pediatrics**, v.136, n.3, p.292-297, 2000.

BOSELEY, M. E.; CUNNINGHAM, M. J.; VOLK, M. S.; HARTNICK, C. J. Validation of the Pediatric Voice-Related Quality-of-Life Survey. **Archives Otolaryngology Head & Neck Surgery**, v.132, n.7, p.717-720, 2006.

BOTTERO, S.; MINUTO, I.; MODICA, V.; RISPOLI, G. [Dysphonia in known hypothyroidism]. **La Clinica terapeutica**, v.106, n.2, p.109-111, 1983.

BRASIL. Ministério da Saúde. Portaria GM/MS n.º 822/GM, de 6 de junho de 2001. Disponível em: <<http://dtr2001.saude.gov.br/sas/gab01/gab01.htm>>. Acesso em: 10 jan. 2014.

BRASIL. Ministério da Saúde. Portaria SAS n.º 390, de 10 de junho de 2002. Disponível em: <<http://dtr2001.saude.gov.br/sas/sas02/sasjun02.htm>>. Acesso em: 20 mar 2014.

BROCKMANN-BAUSER, M.; DRINNANM, J. Routine acoustic voice analysis: time to think again. **Current Opinion in Otolaryngology, Head and Neck Surgery**, v.19, p.165-170, 2011.

CAPPELLARI, V. M.; CIELO, C. A. Vocal acoustic characteristics in pre-school aged children. **Brazilian Journal of Otorhinolaryngology**, v.74, n.2, p.265-272, 2008.

CARDING, P. N.; ROULSTONE, S.; NORTHSTONE, K.; ALSPAC STUDY TEAM. The Prevalence of childhood dysphonia: a cross-sectional study. **Journal of Voice**, v.20, n.4, p.623-630, 2006.

CAVALHEIRO, L. G.; BRANCALIONI, A. R.; KESKE-SOARES, M. Prevalência do desvio fonológico em crianças da cidade de Salvador, Bahia. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.17, n.4, p.441-446, 2012.

CHEN, C. Y.; LEE, K. T.; LEE, C. T. C.; LAI, W. T.; HUANG, Y. B. Epidemiology and Clinical Characteristics of Congenital Hypothyroidism in an Asian Population: A Nationwide Population-Based Study. **Journal of Epidemiology**, v.23, n.2, p.85-94, 2013.

CIGANA, L.; CHIARI, B.; MOTTA, H. B.; CECHELLA, C. Perfil do desenvolvimento fonológico de crianças de creches da rede municipal de Santa Maria-RS, na faixa etária de 4:0 a 6:2 anos. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.7, n.2, p.15-20, 1995.

CONNELLY, A.; CLEMENT, W. A.; KUBBA, H. Management of dysphonia in children. **The Journal of Laryngology & Otology**, v.123, n.6, p.642-647, 2009.

CONNOR, N. P.; COHEN, S. B.; THEIS, S. M.; THIBEAULT, S. L.; HEATLEY, D. G.; BLESS, D. M. Attitudes of children with dysphonia. **Journal of Voice**, v.22, n.2, p.197-209, 2008.

CORBETTA, C.; WEBER, G.; CORTINOVIS, F.; CALEBIRO, D.; PASSONI, A.; VIGONE, C. *et al.*. A 7-year experience with low blood TSH cutoff levels for neonatal screening reveals an unsuspected frequency of congenital hypothyroidism (CH). Attitudes of children with dysphonia. **Clin Endocrinol**, v.71, n.5, p.739-745, 2009.

D'ANTONIO, L.; CHAIT, D.; LOTZ, W.; NETSELL, R. Pediatric videonasoscopy for speech and voice evaluation. **Otolaryngology: Head and Neck Surgery**, v.94, n.5, p.578-583, 1986.

DE ARAÚJO PERNAMBUCO, L.; DE MORAIS COSTA, É. B.; DE SOUZA ZIMMERMANN, T.; DE SOUSA SILVA, A. C.; COSTA DA SILVA, B. Autoavaliação vocal, avaliação perceptivo-auditiva da voz e qualidade de vida em pacientes com suspeita de câncer tireoidiano: existe correlação? Vocal self-assessment, auditory-perceptual evaluation of voice and quality of life in patients with suspected thyroid cancer: does a correlation exist? **Revista Brasileira de Cirurgia de Cabeça e Pescoço**, v.42, n.1, 2013.

DE CARVALHO, T. M.; DOS SANTOS, H. P.; DOS SANTOS, I. C.; VARGAS, P. R.; PEDROSA, J. Newborn screening: a national public health programme in Brazil. **Journal of Inherited Metabolic Disease**, v.30, n.4, p.615, 2007.

DEJONCKERE, P. H. Pathogenesis of voice disorders in childhood. **Acta Otorhinolaryngol** (Bélgica), v.38, n.3, p.307-314, 1984.

DINETTI, D.; BARGAGNA, S.; GIACHETTI, C.; MILLEPIEDI, S.; NENCIOLI, R.; MARCHESCHI, M. [Early treated congenital hypothyroidism. Evaluation of school learning]. **Minerva Pediatrica**, v.50, n.1-2, p.1-8, 1998.

DONICHT, G.; PAGLIARIN, K. C.; MOTA, H. B.; KESKE-SOARES, M. A inteligibilidade do desvio fonológico julgada por três grupos de julgadores. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.21, n.3, p.213-218, 2009.

DUBUIS, J. M.; GLORIEUX, J.; RICHER, F.; DEAL, C. L.; DUSSAULT, J. H.; VAN VLIET, G. Outcome of severe congenital hypothyroidism: closing the development gap with early high dose levothyroxine treatment. **Journal of Clinical Endocrinology & Metabolism**, v.81, n.1, p.222-227, 1996.

ECKLEY, C. A.; ANELLI, W.; DUPRAT, A. D. C. Sensibilidade e especificidade da análise perceptivo-auditiva da voz na triagem de distúrbios laríngeos. **Revista Brasileira de Otorrinolaringologia**, v.74, n.2, p.168-171, 2008.

FERRANTE, C.; VAN BORSEL, J.; PEREIRA, M. M. B. Análise dos processos fonológicos em crianças com desenvolvimento fonológico normal. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.14, n.1, p.36-40, 2009.

FERREIRA, L. O.; RELVAS, R. C.; RAMALHO, M. S. S. C.; RONCHI, C. M. S. G.; PERILLO, V. C. A.; RODRIGUES, L. C. B. Manifestações fonoaudiológicas relatadas por pais de crianças com hipotireoidismo congênito. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.16, n.3, p.317-322, 2011.

FIGUEIREDO, V. L. M.; PINHEIRO, S.; NASCIMENTO, E. Teste de inteligência WISC-III adaptando para a população brasileira. **Psicologia Escolar e Educacional**, v.2, n.2, p.101-107, 1998.

FISHER, D. A. Thyroid in the neonate and childhood. In: DE GROOT, L. J. (Org.). **Endocrinology**. Philadelphia: Saunders, 1981. p.733.

FUGLE, P. W.; GRANT, D. B.; SMITH, I.; MURPHY, G. Intelligence, motor skills and behavior at 5 years in early-treated congenital hypothyroidism. **European Journal of Pediatrics**, v.150, n.8, p.570-574, 1991.

GASPARINI, G.; BEHLAU, M. Quality of Life: Validation of the Brazilian Version of the Voice-Related Quality of Life (V-RQOL) Measure. **Journal of Voice**, v.23, p.76-81, 2009.

GEJÃO, M. G.; FERREIRA, A. T.; SILVA, G. C.; ANASTÁCIO-PESSAN, L. D. Communicative and psycholinguistic abilities in children with phenylketonuria and congenital hypothyroidism. **Journal of Applied Oral Science**, v.17, n. spe, p.69-75, 2009.

GEJÃO, M. G.; LAMÔNICA, D. A. C. Habilidades do desenvolvimento em crianças com hipotireoidismo congênito: enfoque na comunicação. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.20, n.1, p.25-30, 2008.

GIERUT, J. Treatment efficacy: functional phonological disorders in children. **Journal of Speech, Language, and Hearing Research**, v.41, n.1, p.85-100, 1998.

GRAMUGLIA, A. C.; TAVARES, E. L.; RODRIGUES, S. A.; MARTINS, R. H. Perceptual and acoustic parameters of vocal nodules in children. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v.78, n.2, p.312-316, 2014.

GRANT, D. B.; SMITH, I.; FUGLE, P. W.; TOKAR, S.; CHAPPLEE, J. Congenital hypothyroidism detected by neonatal screening: relationship between biochemical severity and early clinical features. **Archives of Disease in Childhood**, v.67, p.87-90, 1992.

GRILLO, M. H. M. M.; PENTEADO, R. Z. Impacto da voz na qualidade de vida de professores de ensino fundamental. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.17, n.3, p.321-330, 2005.

GRUNWELL, P. **Developmental speech disorders**: clinical issues and practical implications. New York: Churchill Livingstone, 1990. 187p.

HARRIS, K. B.; PASS, K.A. Increase of congenital hypothyroidism in New York State and in the United States. **Mol Genet Metab**, v.91, n.3, p.268-277, 2007.

HASKELL, J. A. The speech pathologist's roles in the treatment of voice disorders. In: RUBIN, J.; SATALOFF, R. T.; KOROVING, G.; GOULD, W. **Diagnosis and treatment of voice disorders**. New York: Igaku-Shoin, 1995. p.393-404.

HERSAN, R. A laringe infantil. In: PINHO, S. R. **Fundamentos em fonoaudiologia: tratando os distúrbios da voz**. São Paulo: Guanabara, 1998. p.57-61.

HIRANO, M. **Clinical Examination of Voice**. New York: Spring-Verlag, 1981.

HORII, Y. Jitter and shimmer differences among sustained vowel phonations. **Journal of Speech and Hearing Research**, v.25, n.1, p.12-14, 1982.

HORNOF, D. N.; WHALEN, D. H. Perception of pitch location within a speaker's F0 range. **The Journal of the Acoustical Society of America**, v.117, 4Pt1, p.2193, 2005.

HURXTHAL, L. M. The treatment of myxedema and cretinism. **Clinics**, v.5, n.4, p.763-774, 1946.

HURXTHAL, L. M.; MUSULIN, N. Cretinism. **The American Journal of Medicine**, v.1, n.1, p.56-82, 1946.

ISOLAN-CURY, R. W.; ANDRADA E SILVA, M. A.; MONTE, O.; CURY, A. N. Caracterização vocal de pacientes com hipertireoidismo e Hipotireoidismo. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.12, n.2, p.135-140, 2007.

KASAMA, S. T.; BRASOLOTTO, A. G. Percepção vocal e qualidade de vida. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.19, n.1, p.19-28, 2007.

KOLLBRUNNER, J.; SEIFERT, E. Functional hoarseness in children: short-term play therapy with family dynamic counseling as therapy of choice. **Journal of Voice**, v.27, n.5, p.579-588, 2013.

KOOISTRA, L.; LAANE, C.; VULSMA, T.; SCHELLEKENS, J. M.; VAN DER MEERE, J. J.; KALVERBOER, A. F. Motor and cognitive development in children with congenital hypothyroidism: a long-term evaluation of the effects of neonatal treatment.. **Journal of Pediatrics**, v.124, n.6, p.903-909, 1994.

KRATZSCH, J.; PULZER, F. Thyroid gland development and defects. **Best Practice & Research Clinical Endocrinology & Metabolism**, v,22, n.1, p.57-75, 2008.

KREIMAN, J.; GERRAT, B. R.; PRECODA, K.; BERKE, G. S. Individual differences in voice quality perception. **Journal of Speech and Hearing Research**, v.35, n.3, p.512-520, 1992.

KRISCHKE, S.; WEIGELT, S.; HOPPE, U.; KOLLNER, V.; KLOTZ, M. Quality of life in Dysphonic Patients. **Journal of Voice**, v.19, n.1, p.132-137, 2005.

KURITA, S.; NAGATA, K.; HIRANO, M. Comparative study of the layer structure of the vocal fold. In: BLESS, D. M. **Vocal fold physiology**. 1st ed. San Diego: Singular; 1983. p.03-21.

LaFRANCHI, S. H.; MURPHEY, W. H.; FOLEY, T. P.; LARSEN, P. R.; BUIST, N. R. Neonatal hypothyroidism detected by the Northwest Regional Screening Program. **Pediatrics**, v.63, n.2, p.180-191, 1979.

LAMÔNICA, D. C.; PICOLLINI, M. M. Habilidades do desenvolvimento de prematuros. **Revista CEFAC**, v.11, Supl. 2, p.145-153, 2009.

LAMPRECHT, R. R. Sobre os desvios fonológicos. In: LAMPRECHT, R. R. (Org.). **Aquisição fonológica do português**: perfil de desenvolvimento e subsídios para a terapia. Porto Alegre: Artmed, 2004. p.17-32.

LÉGER, J.; MARINOVIC, D.; GAREL, C.; BONAÏTI-PELLIÉ, C.; POLAK, M.; CZERNICHOW, P. Thyroid developmental anomalies in first degree relatives of children with congenital hypothyroidism. **J Clin Endocrinol Metab**, v.87, n.2, p.575-580, 2002.

LEGRAND, J. Effects of thyroid hormones on central nervous system development. In: YANAT, J. (Ed.). **Neurobehavioral teratology**. Amsterdam: Elsevier, 1984. p.331-363.

LEYE, A.; POUYE, A.; FALL, S.; NDONGO, S.; OULD ISSELMOU EL, B.; KA, M. M.; MOREIRA-DIOP, T. [Non iatrogenic primary hypothyroidism in adults at Le Dantec Hospital: clinical features, diagnosis and treatment. Review of 19 cases]. **Dakar Medical**, v.49, n.2, p.110-113, 2004.

LIMA, I. L. B.; ALMEIDA, A. A. F.; SILVA, P. O. C.; AZEVEDO, E. H. M.; LOPES, L. W. Uso do diagrama de desvio fonatório na avaliação de vozes infantis. In: CONGRESSO BRASILEIRO, 21.; CONGRESSO IBERO-AMERICANO DE FONOAUDIOLOGIA, 2., 2013, Porto de Galinhas. **Anais...** Porto de Galinhas, 22-25 set. 2013. p.548-552.

LOBO, G.; GUEVARA, D. L.; ARNELLO, F.; PÉREZ, A.; VIVANCO, X.; BRUGENDIECK, B.; BUSTOS, M. E.; JIMENEZ, C.; DONOSO, G.; BRANTES, J.; BECERRA, C. Cintigrafía tiroidea (CT) con Tc99m-pertecnectato en recién nacidos (RN) con hipotiroidismo congénito (HC). **Revista Médica de Chile**, v.131, n.3, p.283-289, 2003.

LONGONI, A. M.; RICHARDSON, J. T.; AIELLO, A. Articulatory rehearsal and phonological storage in working memory. **Memory & Cognition**, v.21, n.1, p.11-22, 1993.

LOPES, L. W.; LIMA, I.; AZEVEDO, E.; LIMA-SILVA, M. F.; ALMEIDA, L.; CAVALCANTE, D.; ALMEIDA, A. A. Características vocais ao longo do desenvolvimento infantil: dados perceptivo-auditivos e acústicos. In: CONGRESSO BRASILEIRO, 21.; CONGRESSO IBERO-AMERICANO DE FONOAUDIOLOGIA, 2., 2013, Porto de Galinhas. **Anais...** Porto de Galinhas, 22-25 set. 2013. p.481-485.

MACIEL, L. M. Z.; KIMURA, E. T.; NOGUEIRA, C. R.; MAZETO, G. M. F. S.; MAGALHÃES, P. K. R.; NASCIMENTO, M. L.; NESI-FRANÇA, S.; VIEIRA, S. E. Hipotireoidismo congênito: recomendações do Departamento de Tireoide da Sociedade Brasileira de Endocrinologia e Metabologia. **Arquivos Brasileiros de Endocrinologia & Metabologia**, v.57, n.3, p.184-192, 2013.

MACKIEWICZ-NARTOWICZ, H.; SINKIEWICZ, A.; BIELECKA, A.
Laryngovideostroboscopy in children--diagnostic possibilities and constraints. **Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v.75, n.8, p.1015-1017, 2011.

MADAZIO, G.; LEÃO, S.; BEHLAU, M. The phonatory deviation diagram: a novel objective measurement of vocal function. **Folia Phoniatica et Logopaedica**, v. 63, n. 6, p. 305-311, 2011.

MARTINS, R. H. G.; TRINDADE, S. H. K. A criança disfônica: diagnóstico, tratamento e evolução clínica. **Revista Brasileira de Otorrinolaringologia**, v.69, n.6, p.801-806, 2003.

MARTINS, R. H.; HIDALGO RIBEIRO, C. B.; FERNANDES DE MELLO, B. M.; BRANCO, A.; TAVARES, E. L. Dysphonia in children. **Journal of Voice**, v.26, n.5, p.674.e17-20, 2012.

McLEOD, S.; BLEILE, K. **Neurological and developmental foundations of speech acquisition**. American Speech Language-Hearing Association Convention. Chicago: ASHA, 2003.

MEDDA, E.; OLIVIER, A.; STAZI, M. A.; GRANDOLFO, M. E.; FAZZINI, C.; BASERGA, M.; BURRONI, M.; CACCIARI, E.; CALACIURA, F.; CASSIO, A.; CHIOVATO, L.; COSTA, P.; LEONARDI, D.; MARTUCCI, M.; MOSCHINI, L.; PAGLIARDINI, S.; PARLATO, G.; PIGNERO, A.; PINCHERA, A.; SALA, D.; SAVA, L.; STOPPIONI, V.; TANCREDI, F.; VALENTINI, F.; VIGNERI, R.; SORCINI, M. Risk factors for congenital hypothyroidism: results of a population case-control study (1997-2003). **European Journal of Endocrinology**, v.153, n.6, p.765-773, 2005.

MELLO, D. E. A interferência da situação socioeconômica no processo de desenvolvimento fonológico em crianças de classes sociais e idades diferentes. **Língua e Letras**, v.1, p.75-96, 2002.

MELO, E. C. M.; MATTIOLI, F. M.; BRASIL, O. C. O.; BEHLAU, M.; PITALUGA, A. C. A.; MELO, D. M. Disfonia infantil: aspectos epidemiológicos. **Revista Brasileira de Otorrinolaringologia**; v.67, n.6, p.804-807, 2001.

MICHAELIS, D.; GRAMSS, T.; STRUBE, H. W. Glottal-to noise excitation ratio – a new measure for describing pathological voices. **Acta Acustica**, v.83, p.700-706, 1997.

MICHELSSON, K.; SIRVIÖ, P. Cry analysis in congenital hypothyroidism. **Folia Phoniatica** (Basel), v.28, n.1, p.40-47, 1976.

MOHAMMADZADEH, A.; HEYDARI, E.; AZIZI, F. Speech impairment in primary hypothyroidism. **Journal of Endocrinological Investigation**, v.34, n.6, p.431-433, 2011.

MORAIS, E. P. G. D.; AZEVEDO, R. R.; CHIARI, B. M. Correlação entre voz, autoavaliação vocal e qualidade de vida em voz de professoras. **Revista CEFAC**, v.14, n.5, p.892-900, 2012.

MORE, V.; AHUJA, S. R.; KULKARNI, H. V.; KULKARNI, M. V. Bilateral anotia with congenital hypothyroidism. **The Indian Journal of Pediatrics**, v.71, n.4, p.369-370, 2004.

MORETI, F. T. G. **Validação da versão brasileira da Voice Symptom Scale – VoiSS**. Dissertação (Mestrado) - Universidade Federal de São Paulo, São Paulo, 2011.

MUÑOZ, M. B. **Avaliação auditiva em crianças e adolescentes com hipotireoidismo congênito**. 84f. Dissertação (Mestrado) – Departamento de Pediatria, Setor de Ciências da Saúde, Universidade Federal do Paraná, Curitiba, 2012.

NESI-FRANÇA, S. **Avaliação antropométrica de pacientes com hipotireoidismo congênito diagnosticado por triagem neonatal**. 166f. Tese (Doutorado) - Departamento de Pediatria, Setor de Ciências da Saúde, Universidade Federal do Paraná, Curitiba, 2006.

NESI-FRANÇA, S.; DOMINGOS, M. T. Triagem neonatal do hipotireoidismo congênito: novas conquistas... novos desafios... **Arquivos Brasileiros de Endocrinologia e Metabologia** [online], v.52, n.4, p.579-580, 2008.

NESI-FRANÇA, S.; ROJAS-RAMOS, J. C. R. Hipotireoidismo congênito In: SOCIEDADE BRASILEIRA DE ENDOCRINOLOGIA E METABOLOGIA. **Pro-endócrino**. Porto Alegre: Artmed, 2009. p.31-76.

NEVES, L. R.; FUJITA, R. R. Disfonia infantil. In: COSTA, S. S.; CRUZ, O. L. M.; OLIVEIRA, J. A. A. (Orgs.). **Otorrinolaringologia: princípios e prática**. 2.ed. Porto Alegre: Artmed, 2006. p.960-970.

NICOLLAS, R.; GARREL, R.; OUAKNINE, M.; GIOVANNI, A.; NAZARIAN, B.; TRIGLIA, J. M. Normal voice in children between 6 and 12 years of age: database and nonlinear analysis. **Journal of Voice**, v.2, n.6, p.671-675, 2008.

NIEDZIELSKA, G. Acoustic analysis in the diagnosis of voice disorders in children. **International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology**, v.57, p.189-193, 2001.

OLIVEIRA, M. M. M.; WERTZNER, H. F. Estudo do distúrbio fonológico. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.7, p.68-75, 2000.

OLIVEIRA, R. C.; TEIXEIRA, L. C.; GAMA, A. C.; MEDEIROS, A. M. [Auditory-perceptive, acoustic and vocal self-perception analyses in children]. **Jornal da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.23, n.2, p.158-163, 2011.

PAPP, A. C. C. S.; WERTZNER, H. F. O aspecto familiar e o transtorno fonológico. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.18, n.2, p.151-160, 2006.

PATAH, L. K.; TAKIUCHI, N. Prevalência das alterações fonológicas e uso dos processos fonológicos em escolares aos 7 anos. **Revista CEFAC**, v.10, n.2, p.158-167, 2008.

PATEL, S.; SHRIVASTAV, R. Perception of dysphonic vocal quality: some thoughts and research update. **Perspectives on Voice and Voice Disorders**, v.17, p.3-7, 2007.

PELAEZ, J.M. **Avaliação neuropsicológica de crianças com hipotireoidismo congênito**. 71p. Dissertação (Mestrado em Saúde da Criança e do Adolescente) – Universidade Federal do Paraná (UFPR), Curitiba, 2005.

PEZUTTI, I. L.; LIMA, P. P.; DIAS, V. M. A. Congenital hypothyroidism: the clinical profile of affected newborns identified by Newborn Screening Program of the State of Minas Gerais, Brazil. **Jornal de Pediatria** (Rio J), v.85, n.1, p.72-79, 2009.

PIFAIA, L. R.; MADAZIO, G.; BEHLAU, M. Phonatory Deviation Diagram pre and post vocal rehabilitation. **CoDAS**, v.25, n.2, p.140-147, 2013.

PONTES, P.; BEHLAU, M.; KYRILLOS, L. Glottic configurations and glottic proportion: an attempt to understand the posterior triangular glottic chink. **Revue Oto Rhino Laryngologie Bordeaux**, v.115, n.4, p.261-266, 1994.

POSSAMAI, V.; HARTLEY, B. Voice disorders in children. **Pediatric Clinics of North America**, v.60, n.4, p.879-892, 2013.

POTTER, B.; MANO, M.; BELLING, G.; MCINTOSH, G. H.; JUA, C.; CRAG, B. C.; MARSHALL, J.; WELLBY, M. L.; HETZEL, B. S. Retarded fetal brain development resulting from severe dietary iodine deficiency in sheep. **Neuropathology & Applied Neurobiology**, v.8, p.303-313, 1982.

QUEIJA, D. C.; S.; FERREIRA, A. S.; PORTAS, J. G.; DEDIVITIS, R. A.; PFUETZENREITER JUNIOR, E.; BARROS, A. P. B. Avaliação vocal e autopercepção da desvantagem vocal (VHI) após laringectomia frontolateral. **Revista Brasileira de Cirurgia de Cabeça e Pescoço**, v.36, n.2, 2007.

QUINTAS, V. G.; ATTONI, T. M.; KESKE-SOARES, M.; MEZZOMO, C. L. Auditory processing in children with normal and disordered speech. **Brazilian Journal of Otorhinolaryngology**, v.76, n.6, p.718-722, 2010.

RASTOLGI, M. V.; LAFRANCHI, S. H. Congenital Hypothyroidism. **Orph Journal of Rares Diseases**, v.5, n.17, p.1-22, 2010.

RIBAS, L. P. Onsetcomplexo: características da aquisição. **Letras Hoje**, v.38, n.2, p.23-31, 2003.

RIBAS, L. P. Sobre a aquisição do onset complexo. In: LAMPRECHT, R. et al. **Aquisição fonológica do português**: perfil de desenvolvimento e subsídios para terapia. Porto Alegre: Artmed, 2004. p.151-164.

RIBEIRO, L. L.; DE PAULA, K. M. P.; BEHLAU, M. Qualidade de vida em voz na população pediátrica: validação da versão brasileira do Protocolo QVV-P. **Revista CoDAS** [*in press*].

RICARTE, A.; OLIVEIRA, G.; BEHLAU, M. Validação do protocolo Perfil de Participação e Atividades Vocais no Brasil. **CoDAS**, v.25, n.3, p.242-249, 2013.

RITTER, F. N. The effects of hypothyroidism upon the ear, nose and throat. A clinical and experimental study. **Laryngoscope**, v.77, n.8, p.1427-179, 1967.

ROSMAN, N.; MALONE, M.; HELFENSTEIN, M.; KRAFT, E. The effect of thyroid deficiency on myelination of the brain. **Neurology**, v.22, p.99-106, 1972.

ROVET, J. F. Long-term neuropsychological sequelae of early-treated congenital hypothyroidism: effects in adolescence. **Acta Paediatrica Suppl**, v.88, n.432, p.88-95, 1999.

ROVET, J. F. Children with congenital hypothyroidism and their siblings: do they really differ? **Pediatrics**, v.115, n.1, p.52-57, 2005.

ROVET, J. F.; EHRLICH, R. M.; SORBARA, D. L. Neurodevelopment in infants and preschool children with congenital hypothyroidism: etiological and treatment factors affecting outcome. **Journal of Pediatric Psychology**, v.17, n.2, p.187-213, 1992.

ROY, N.; BARKMEIER-KRAEMER, J.; EADIE, T.; SIVASANKAR, M. P.; MEHTA, D.; PAUL, D.; HILLMAN, R. Evidence-based clinical voice assessment: a systematic review. **American Journal of Speech-Language Pathology** (*in press*). Disponível em: <<http://ajslp.asha.org/papbyrecent.dtl>>. Acesso em: 20 mar. 2014.

ROY, N.; HOLT, K. I.; REDMOND, S.; MUNTZ, H. Behavioral Characteristics of Children with Vocal Fold Nodules. **Journal of Voice**, v.21, n.2, p.157-168, 2007.

SALES, N. J.; QUEIROZ GURGEL, R.; REBELO GONÇALVES, M. I.; OLIVEIRA CUNHA, E.; PRADO-BARRETO, V. M.; TODT-NETO, J. C.; NEYRA CASTANEDA, D. F.; SAMPAIO D'AVILA, J. Vocal function and vocal discomfort in sheltered and non-sheltered 7- to 10-year-old school children in Aracaju, Brazil. **Journal of Voice**, v.27, n.5, p.656.e17-22, 2013.

SALGADO, C.; CAPELLINI, S. A. Desempenho em leitura e escrita de escolares com transtorno fonológico. **Psicologia Escolar e Educacional**, v.8, n.2, p.179-188, 2004.

SALIM, F. A.; VARMA, S. K. Congenital Hypothyroidism and the Importance of Universal Newborn Screening. **The Indian Journal of Pediatrics**, v.81, n.1, p.53-57, 2014.

SCHWARTZ, S. R.; COHEN, S. M.; DAILEY, S. H.; ROSENFELD, R. M.; DEUTSCH, E. S.; GILLESPIE, M. B.; GRANIERI, E.; HAPNER, E. R.; KIMBALL, C. E.; KROUSE, H. J.; McMURRAY, J. S.; MEDINA, S.; O'BRIEN, K.; OUELLETTE, D. R.; MESSINGER-RAPPORT, B. J.; STACHLER, R. J.; STRODE, S.; THOMPSON, D. M.; STEMPLE, J. C.; WILLGING, J. P.; COWLEY, T.; McCOY, S.; BERNAD, P. G.; PATEL, M. M. Clinical practice guideline: Hoarseness (dysphonia). **Otolaryngology - Head and Neck Surgery**, v.141, p.S1-S31, 2009.

SHEVELL, M. I.; MAJNEMER, A.; WEBSTER, R. I.; PLATT, R. W.; BIRNBAUM, R. Outcomes at school age of preschool children with developmental language impairment. **Pediatric Neurology**, v.32, n.4, p.264-269, 2005.

SHULZ, L T. **Correlações entre o hipotireoidismo e as alterações vocais**. 31p. Monografia (Especialização em Voz) -. Centro de Especialização em Fonoaudiologia Clínica (CEFAC), São Paulo, 1999.

SILVA, E. I.; LIMA, E. M.; SILVEIRA, P. C. Ocorrência de desvios fonológicos em crianças de escolas públicas do município de Camaragibe. **Fonoaudiologia Atual**, v.6, n.25, p.4-12, 2003.

SILVA, M. C.; ÁVILA, C. R. B. Influências da fala sobre a leitura e escrita. **ACR**, v.18, n.3, p.203-212, 2013.

SILVA, T. C. **Fonética e fonologia do português**. 6.ed. São Paulo: Contexto, 2006.

SILVEIRA, R. B. **Puberdade e estatura final de pacientes com hipotireoidismo congênito detectado por triagem neonatal**. 100p. Dissertação (Mestrado) - Programa de Mestrado e Doutorado em Saúde da Criança e do Adolescente, Universidade Federal do Paraná, Curitiba, 2012.

SIMONS, W. F.; FUGLE, P. W.; GRANT, D. B.; SMITH, I. Educational progress, behavior, and motor skills at 10 years in early treated congenital hypothyroidism. **Archives of Disease in Childhood**, v.77, n.3, p.219-222, 1997.

STACKHOUSE, J; WEELS, B. **Children's speech and literacy difficulties: a psycholinguistic framework**. London: Whurr Publisher, 1997.

STAMPE, D. **A Dissertation on Natural Phonology**. Bloomington: IULC, 1979.

STEFFEN, N.; MOSCHETTI, M. B.; WOLFF, C.; DOSSIN, L.; OUSSALE, M.; KEIL, D. T. Frequência fundamental de 131 crianças de 6 a 10 anos estudantes de Porto Alegre relacionada com idade, peso, estatura e superfície corporal. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, n.1, p.22-28, 1997.

TANNER, J. M. **Growth at adolescence**. 2.ed. Oxford: Blackwell Scientific Publications, 1962.

TAVARES, E. L. M.; LABIO, R. B. D.; MARTINS, R. H. G. Estudo normativo dos parâmetros acústicos vocais de crianças de 4 a 12 anos de idade sem sintomas vocais: estudo piloto. **Brazilian Journal of Otorhinolaryngology**, v.76, n.4, p.485-490, 2010.

TAVARES, E. L.; BRASOLOTTO, A.; SANTANA, M. F.; PADOVAN, C. A.; MARTINS, R. H. Epidemiological study of dysphonia in 4-12 year-old children. **Brazilian Journal of Otorhinolaryngology**, v.77, n.6, p.736-746, 2011.

TEIXEIRA, M. Z. M.; TREZZA, E. M. C.; BEHLAU, M. Opinião dos pais sobre a voz de seus filhos de 5 a 12 anos. **Revista Paulista de Pediatria**, v.21, n.2, p.68-75, 2003.

TITZE, I. **Workshop on acoustic voice analysis**. Iowa City: International Center for Voice and Speech, 1995.

TITZE, I. R.; HORII, Y.; SCHERER, R. C. Some technical considerations in voice perturbation measurements. **Journal of Speech, Language, and Hearing Research**, v.30, n.2, p.252-260, 1987.

UGULINO, A. C.; OLIVEIRA, G.; BEHLAU, M. Perceived dysphonia by the clinician's and patient's viewpoint. **Jornal da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.24, n.2, p.113-118, 2012.

VELA-AMIEVA, M. M. C.; GAMBOA-CARDIEL, S.; PÉREZ-ANDRADE, M. E.; ORTIZ-CORTÉS, J.; GONZÁLEZ-CONTRERAS, C. R.; ORTEGA-VELÁZQUEZ, V. Epidemiology of congenital hypothyroidism in Mexico. **Salud Publica de Mexico**, v.46, n.2, p.141-148, 2004.

VIEIRA, M. G.; MOTA, H. B.; KESKE-SOARES, M. Relação entre idade, grau de severidade do desvio fonológico e consciência fonológica. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.9, n.3, p.144-150, 2004.

VLIET, G. Neonatal hypothyroidism: treatment and outcome. **Thyroid**, v.9, n.1, p.79-84, 1999.

WALLER, D. K.; ANDERSON, J. L.; LOREY, F.; CUNNINGHAM, G. C. Risk factors for congenital hypothyroidism: An investigation of infant's birth weight, ethnicity and gender in California 1990-1998. **Teratology**, v.62, n.1, p.36-41, 2000.

WANG, L. Voice parameters in normal children measured with computer. **Zhonghua Er Bi Yan Hou Ke Za Zhi**, v.24, n.3, p.182-183, 190-191, 1989.

WECHSLER, D. **Intelligence scale for children (WISC-III)**. 3rd ed. San Antonio, Texas: The Psychological Corporation Harcourt Brace Jovanovich, 1991.

WECHSLER, D. **Preschool and primary scale of intelligence – Reviser (WPPSI-R)**. San Antonio, Texas: The Psychological Corporation Harcourt Brace Jovanovich, 1989.

WENDAHL, R. W. Laryngeal analog synthesis of jitter and shimmer auditory parameters of harshness. **Folia Phoniatria** (Basel), v.18, n.2, p.98-108, 1966.

WERTZNER, H. F. Estudo da aquisição do sistema fonológico: o uso de processos fonológicos em crianças de três a sete anos. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.7, n.1, p.21-26, 1995.

WERTZNER, H. F. Fonologia: desenvolvimento e alterações. In: FERREIRA, I. P.; BEFI-LOPES, D. M.; LIMONGI, S. C. O. **Tratado de fonoaudiologia**. São Paulo: Roca, 2004. p.787-814.

WERTZNER, H. F.; AMARO, L.; TERAMOTO, S. S. Gravidade do distúrbio fonológico: julgamento perceptivo e porcentagem de consoantes corretas. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.17, n.2, p.185-194, 2005.

WERTZNER, H. F.; OLIVEIRA, M. M. F. Semelhanças entre os sujeitos com distúrbio fonológico. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.14, n.2, p.143-152, 2002.

WERTZNER, H. F.; PAGAN, L. O.; GALEA, D. E. S.; PAPP, A. C. C. S. Características fonológicas de crianças com transtorno fonológico com e sem histórico de otite média. **Revista da Sociedade Brasileira de Fonoaudiologia**, v.12, n.1, p.41-47, 2007.

WERTZNER, H. F.; PAPP, A. C. C. S.; GALEA, D. E. S. Provas de nomeação e imitação como instrumentos de diagnóstico do transtorno fonológico. **Pró-Fono Revista de Atualização Científica**, Barueri (SP), v.18, n.3, p.303-312, 2006.

WILLIAMS, R. H. Textbook of Endocrinology. **Saunders**, Philadelphia (PA-USA), 1974.

WILSON, K. D. **Voice Problems of Children**. 2nd. ed. Baltimore: Williams & Wilkins, 1979.

YAVAS, M. Padrões na aquisição fonológica do português. **Letras de Hoje**, Porto Alegre, v.23, n.3, p.7-30, 1988.

YAVAS, M.; HERNANDORENA, C. L.; LAMPRECHT, R. R. **Avaliação fonológica da criança**: reeducação e terapia. Porto Alegre: Artmed, 2001.

YAVAS, M. S.; HERNANDORENA, C. L.; LAMPRECHT, R. R. **Avaliação fonológica da criança**. 2.ed. Porto Alegre: Artes Médicas, 2002.

APÊNDICES

APÊNDICE 1
VERIFICAÇÃO DOS CRITÉRIOS DE ELEGIBILIDADE PARA A PESQUISA
(CHECK-LIST)

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ – UFPR
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
UNIDADE DE ENDOCRINOLOGIA PEDIÁTRICA – UEP

Coleta com o responsável	Sim	Não
Intercorrências durante o parto		
Intercorrências após o nascimento		
Queixa auditiva/Otites de repetição		
Respiração oral		
Lábios entreabertos frequentemente		
Crise alérgica há menos de 1 mês		
Crise respiratória há menos de um mês		
Terapia fonoaudiológica prévia		
Gripe ou resfriado		
Coleta no prontuário médico	Sim	Não
Problema neurológico		
Púbere (estadiamento de Tanner)		
Deficiência mental		
Hipotireoidismo transitório		
Diagnóstico ou início de tratamento tardio		
Coleta pela pesquisadora (triagem)	Sim	Não
Lábios entreabertos/ressecados		
OFA's com características de hipofunção		
Hiperpigmentação orbital		
Obstrução nasal		
Frênulo lingual encurtado*		
Frênulo lingual anteriorizado*		
Retardo de linguagem		
Dificuldade pragmática/discursiva		

NOTA: Exclusão em caso de uma ou mais respostas "sim", exceto para as afirmativas marcadas com * (permitidas caso a criança não apresentasse desvio fonológico na avaliação posterior).

APÊNDICE 2

PROTOCOLO DE ANAMNESE FONOAUDIOLÓGICA

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ – UFPR
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
UNIDADE DE ENDOCRINOLOGIA PEDIÁTRICA – UEP

ANAMNESE FONOAUDIOLÓGICA		
Coleta com o responsável		
Nome:		
Registro:	DN:	Idade:
Nome responsável:		Telefone:
Ambulatório/Serviço:		
Série escolar:		Grupo:
Queixa de voz	Sim	Não
Queixa de fala	Sim	Não
Intercorrências comuns na gestação	Sim	Não
Semanas de gestação	Pré-termo	Termo
Período de início da oralidade	Normal	Atrasado
Dificuldade de atenção/memória	Sim	Não
Dificuldade escolar	Sim	Não
Rinite	Sim	Não
Sinusite	Sim	Não
Bronquite	Sim	Não
Asma	Sim	Não
Gastrites	Sim	Não
Refluxo gastroesofágico	Sim	Não
Fala	Pouco	Muito
Fala	Baixo	Alto
Fala	Devagar	Rápido
Grita	Pouco	Muito
Tosse/pigarreia	Pouco	Muito
Chora	Pouco	Muito
Canta	Pouco	Muito
Faz imitações sonoras	Pouco	Muito
Fumantes no domicílio	Sim	Não
Pó/poeira no domicílio	Sim	Não

Observações:

APÊNDICE 3
PROTOCOLO DE AVALIAÇÃO PERCEPTIVO-AUDITIVA DA VOZ – MODELO
DE AVALIAÇÃO INDIVIDUAL DOS JUÍZES

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ – UFPR
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
UNIDADE DE ENDOCRINOLOGIA PEDIÁTRICA – UEP

Sujeito 1 - fem; 6 anos				Sujeito 2 - fem; 6 anos			
Vogal	G=	R=	B=	Vogal	G=	R=	B=
Números	G=	R=	B=	Números	G=	R=	B=
Sujeito 3 – masc;7 anos				Sujeito 4 - fem; 5 anos			
Vogal	G=	R=	B=	Vogal	G=	R=	B=
Números	G=	R=	B=	Números	G=	R=	B=
Sujeito 5 - fem; 9 anos				Sujeito 6 – masc; 4 anos			
Vogal	G=	R=	B=	Vogal	G=	R=	B=
Números	G=	R=	B=	Números	G=	R=	B=
Sujeito 7 – masc; 10 anos				Sujeito 8 – fem;4 anos			
Vogal	G=	R=	B=	Vogal	G=	R=	B=
Números	G=	R=	B=	Números	G=	R=	B=
Sujeito 9 – masc; 6 anos				Sujeito 10 ; masc; 9 anos			
Vogal	G=	R=	B=	Vogal	G=	R=	B=
Números	G=	R=	B=	Números	G=	R=	B=

OBS: Foram apresentados 240 sujeitos (20% de repetições)

APÊNDICE 4
PROTOCOLO DE AVALIAÇÃO PERCEPTIVO-AUDITIVA DA VOZ – MODELO
DE AVALIAÇÃO DO CONSENSO

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ – UFPR
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
UNIDADE DE ENDOCRINOLOGIA PEDIÁTRICA – UEP

Sujeito 1- fem; 6 anos			Sujeito 2 – fem; 6 anos			Sujeito 3 – masc; 7 anos		
Vogal	G=1		Vogal	G=0		Vogal	G=0	
Números	G=2		Números	G=0		Números	G=1	
Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia
Sujeito 4 – fem; 5 anos			Sujeito 5 - fem; 9 anos			Sujeito 6 – masc; 4 anos		
Vogal	G=1		Vogal	G=2		Vogal	G=0	
Números	G=1		Números	G=1		Números	G=0	
Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia
Sujeito 7 – masc;10 anos			Sujeito 8 – fem; 4 anos			Sujeito 9 – masc; 6 anos		
Vogal	G=1		Vogal	G=2		Vogal	G=1	
Números	G=0		Números	G=1		Números	G=0	
Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia
Sujeito 10 – masc; 9 anos			Sujeito 11 – fem; 9 anos			Sujeito 12 – fem; 5 anos		
Vogal	G=2		Vogal	G=1		Vogal	G=1	
Números	G=2		Números	G=1		Números	G=1	
Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia	Triagem	() passaria	() falharia

OBS: Foram apresentados 240 sujeitos (20% de repetições)

APÊNDICE 5

PROTOCOLO DE AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ – UFPR
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
UNIDADE DE ENDOCRINOLOGIA PEDIÁTRICA – UEP

AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ		
Nome:		
Registro:	DN:	Idade:
Nome responsável:	Telefone:	
Ambulatório/Serviço:		
ANÁLISE ACÚSTICA		
FREQUÊNCIA fundamental: Hz		
Jitter:		
Shimmer:		
Proporção GNE:		
Diagrama de desvio fonatório (DDF)	Normal	Alterado
OBS:		

APÊNDICE 6
PROTOCOLO DE AVALIAÇÃO LARINGOLÓGICA

UNIVERSIDADE FEDERAL DO PARANÁ – UFPR
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
UNIDADE DE ENDOCRINOLOGIA PEDIÁTRICA – UEP

Nome do paciente: _____

Data: _____

Lesão laríngea: () sim () não

Tipo de lesão: () nódulos () cisto () sulco () edema () outra: _____

Fechamento glótico: () completo () incompleto

Tipo de fenda:

() triangular posterior

() triangular médio-posterior

() dupla

() ampulheta

() fusiforme

() outra: _____

Envolvimento supraglótico à fonação: () sim () não

Observações: _____

APÊNDICE 7

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

TERMO DE CONSENTIMENTO INFORMADO LIVRE E ESCLARECIDO

Título do Projeto: Avaliação de voz e fala de crianças e adolescentes portadores de hipotireoidismo congênito

Investigador: Ana Paula Dassie Leite

Local da Pesquisa: Hospital de Clínicas da Universidade Federal do Paraná – Unidade de Endocrinologia Pediátrica e Serviço de Endoscopia Perioral

PROPÓSITO DA INFORMAÇÃO AO PACIENTE E DOCUMENTO DE CONSENTIMENTO

Você está sendo convidado (a) a participar de uma pesquisa, coordenada por um profissional de saúde agora denominado pesquisador. Para poder participar, é necessário que você leia este documento com atenção. Ele pode conter palavras que você não entende. Por favor, peça aos responsáveis pelo estudo para explicar qualquer palavra ou procedimento que você não entenda claramente.

O propósito deste documento é dar a você as informações sobre a pesquisa e, se assinado, dará a sua permissão para participar no estudo. O documento descreve o objetivo, procedimentos, benefícios e eventuais riscos ou desconfortos caso queira participar. Você só deve participar do estudo se você quiser. Você pode se recusar a participar ou se retirar deste estudo a qualquer momento.

INTRODUÇÃO

O diagnóstico precoce das alterações de voz e fala em crianças é de grande importância para que possíveis distúrbios não interfiram nas atividades sociais das crianças e, conseqüentemente, na vida adulta. Por isso, tem havido consenso na literatura brasileira sobre a importância da intervenção fonoaudiológica nesses casos.

O hipotireoidismo congênito, por ocasionar edema nas pregas vocais em macroglossia podem ter como conseqüência alterações de voz e fala. Embora com o avanço científico já recebam tratamento medicamentoso desde o primeiro mês de vida, ainda não é claro o quanto das alterações de voz e fala podem persistir na infância e adolescência.

PROPÓSITO DO ESTUDO

Avaliar a voz e a fala de crianças e adolescentes portadores de hipotireoidismo congênito

SELEÇÃO

Para o grupo experimental serão incluídas:

- a) Crianças e adolescentes com hipotireoidismo congênito (HC), de ambos o sexos;
- b) Faixa etária de 2 a 18 anos;
- c) Pacientes acompanhados e atendidos na UEP;

Para o grupo controle serão incluídas:

- d) Crianças e adolescentes, da mesma faixa etária, não portadores de HC;
- Serão excluídos da pesquisas os pacientes com:
- d) Alterações de saúde significativa que possam influenciar na produção de voz e fala (tumores, alterações neurológicas);
 - e) idade inferior a 24 meses.

PROCEDIMENTOS

Todos os exames realizados nessa pesquisa não causam dor ou desconforto bem como nenhum prejuízo ao paciente. Inicialmente será realizada uma entrevista com os responsáveis, seguida por avaliação de voz, avaliação de fala e avaliação laringológica. As avaliações consistirão em:

- A) ENTREVISTA: investigação junto aos responsáveis sobre o histórico e possível alteração de voz e fala.
- B) AVALIAÇÃO PERCEPTIVO-AUDITIVA DA VOZ: nessa avaliação a pesquisadora solicitará ao participante a emissão de alguns sons isolados, contagem de números e fala espontânea. A voz será gravada e posteriormente analisada por especialistas da área
- C) AVALIAÇÃO ACÚSTICA DA VOZ: serão solicitadas algumas emissões vocais em um microfone específico que direcionará a gravação a um computador onde estão localizados programas que farão análises objetivas sobre os sinais acústicos.
- D) AVALIAÇÃO DE FALA: a pesquisadora fará análise de fonologia por meio de aplicação de figuras e solicitará repetição de algumas palavras para observar como está acontecendo a produção de todos os sons necessários para a utilização do português brasileiro
- E) TELELARINGOSCOPIA: exame para visualizar a condição geral das pregas vocais, presença ou ausência de lesões e como está o funcionamento básico da laringe. Será feita por um médico otorinolaringologista, colaborador da pesquisa, que introduzirá pela boca do paciente um

aparelho rígido acoplado a uma câmera, sob anestesia tópica. O exame não é invasivo e não trará nenhum prejuízo ao paciente. A imagem do exame poderá ser reproduzida posteriormente, durante a realização da pesquisa.

- F) **ENCAMINHAMENTOS:** caso seja detectada qualquer alteração de voz e fala os pacientes serão encaminhados para terapia fonoaudiológica. Até o final do doutoramento, a pesquisadora fará a reabilitação dos pacientes que necessitarem na Unidade de Endocrinologia Pediátrica do HC/UFPR.

PARTICIPAÇÃO VOLUNTÁRIA:

Sua decisão em participar deste estudo é voluntária. Você pode decidir não participar no estudo. Uma vez que você decidiu participar do estudo, você pode retirar seu consentimento e participação a qualquer momento. Se você decidir não continuar no estudo e retirar sua participação, você não será punido ou perderá qualquer benefício ao qual você tem direito.

CUSTOS

Não haverá nenhum custo a você relacionado aos procedimentos previstos no estudo.

PAGAMENTO PELA PARTICIPAÇÃO

Sua participação é voluntária, portanto você não será pago por sua participação neste estudo.

PERMISSÃO PARA REVISÃO DE REGISTROS, CONFIDENCIALIDADE E ACESSO AOS REGISTROS:

O Investigador responsável pelo estudo e equipe irá coletar informações sobre você. Em todos esses registros um código substituirá seu nome. Todos os dados coletados serão mantidos de forma confidencial. Os dados coletados serão usados para a avaliação do estudo, membros das Autoridades de Saúde ou do Comitê de Ética, podem revisar os dados fornecidos. Os dados também podem ser usados em publicações científicas sobre o assunto pesquisado. Porém, sua identidade não será revelada em qualquer circunstância.

Você tem direito de acesso aos seus dados. Você pode discutir esta questão mais adiante com seu médico do estudo.

CONTATO PARA PERGUNTAS

Se você ou seus parentes tiver (em) alguma dúvida com relação ao estudo, direitos do paciente, ou no caso de danos relacionados ao estudo, você deve contatar o Investigador do estudo ou sua equipe Ana Paula Dassie Leite, telefone (42)9908.9000. Se você tiver dúvidas sobre seus direitos como um paciente de pesquisa, você pode contatar Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos (CEP) do Hospital de Clínicas da Universidade Federal do Paraná, pelo telefone: 3360-1896. O CEP trata-se de um grupo de indivíduos com conhecimento científicos e não científicos que realizam a revisão ética inicial e continuada do estudo de pesquisa para mantê-lo seguro e proteger seus direitos.

DECLARAÇÃO DE CONSENTIMENTO DO PACIENTE:

Eu li e discuti com o investigador responsável pelo presente estudo os detalhes descritos neste documento. Entendo que eu sou livre para aceitar ou recusar, e que eu posso interromper minha participação a qualquer momento sem dar uma razão. Eu concordo que os dados coletados para o estudo sejam usados para o propósito acima descrito

Eu entendi a informação apresentada neste termo de consentimento. Eu tive a oportunidade para fazer perguntas e todas as minhas perguntas foram respondidas.

Eu receberei uma cópia assinada e datada deste Documento de Consentimento Informado.

_____	_____	_____
NOME DO PACIENTE	ASSINATURA	DATA
_____	_____	_____
NOME DO RESPONSÁVEL (Se menor ou incapacitado)	ASSINATURA	DATA
_____	_____	_____
NOME DO INVESTIGADOR (Pessoa que aplicou o TCLE)	ASSINATURA	DATA

ANEXOS

ANEXO 1
TESTE KAPPA PARA CONCORDÂNCIA INTRA E INTERAVALIADORES DO
JULGAMENTO INDIVIDUAL DOS JUÍZES

Concordância de Kappa Intra avaliador

		Juiz 1		Juiz 2		Juiz 3	
		Kappa	P-valor	Kappa	P-valor	Kappa	P-valor
Vogal	Grau	56,80%	0,001	36,10%	0,018	69,20%	<0,001
	Rugosidade	58,30%	0,001	15,70%	0,27	54,50%	0,003
	Soprosidade	65,30%	<0,001	60,60%	<0,001	45,30%	0,004
Número	Grau	50,90%	0,001	20,00%	0,209	30,70%	0,065
	Rugosidade	22,30%	0,223	16,70%	0,295	17,00%	0,228
	Soprosidade	58,00%	<0,001	26,60%	0,125	52,00%	0,001
	Vogal	66,10%	<0,001	33,00%	<0,001	56,70%	<0,001
	Número	50,80%	<0,001	21,10%	0,027	34,50%	<0,001
	Grau	45,30%	0,001	28,30%	0,01	50,60%	<0,001
	Rugosidade	35,20%	0,01	16,30%	0,126	36,00%	0,002
	Soprosidade	53,70%	<0,001	45,20%	<0,001	49,40%	<0,001
	Geral	58,20%	<0,001	27,10%	<0,001	46,80%	<0,001

Concordância de Kappa Inter avaliadores

		Juiz 1 x 2		Juiz 1 x 3		Juiz 2 x 3	
		Kappa	P-valor	Kappa	P-valor	Kappa	P-valor
Vogal	Grau	25,00%	<0,001	24,30%	<0,001	6,70%	0,057
	Rugosidade	7,80%	0,133	6,10%	0,061	11,70%	0,002
	Soprosidade	22,80%	<0,001	33,70%	<0,001	31,00%	<0,001
Número	Grau	8,00%	0,044	24,70%	<0,001	4,20%	0,293
	Rugosidade	9,50%	0,089	9,40%	0,015	9,60%	0,029
	Soprosidade	4,10%	0,272	25,80%	<0,001	24,30%	<0,001
	Vogal	20,60%	<0,001	19,90%	<0,001	16,30%	<0,001
	Número	8,50%	0,002	20,00%	<0,001	12,20%	<0,001
	Grau	16,50%	<0,001	24,70%	<0,001	6,10%	0,024
	Rugosidade	8,10%	0,034	7,80%	0,002	11,10%	<0,001
	Soprosidade	13,50%	<0,001	29,80%	<0,001	27,80%	<0,001
	Geral	14,80%	<0,001	20,20%	<0,001	15,00%	<0,001

ANEXO 2
TESTE KAPPA PARA CONCORDÂNCIA INTRA DO CONSENSO

Tabela 1: Kappa Intraconsenso

	Kappa
G (Vogal)	50,00%
G (Números)	29,10%
Triagem vocal	73,70%
Geral	58,60%

ANEXO 3

PROTOCOLO QUALIDADE DE VIDA E VOZ PEDIÁTRICO (QVV-P)

Anexo 1. Protocolo Qualidade de Vida em Voz Pediátrico

Estamos procurando compreender melhor como um problema de voz pode interferir nas atividades de vida diária de seu/sua filho(a). Apresentamos uma lista de possíveis problemas relacionados à voz. Por favor, responda a todas as questões baseadas em como a voz de seu/sua filho(a) tem estado nas DUAS ÚLTIMAS SEMANAS. Não existem respostas certas ou erradas. Para responder ao questionário, considere tanto a gravidade do problema, como sua frequência de aparecimento, avaliando cada item abaixo de acordo com o tamanho do problema que ele/ela tem. A escala que você irá utilizar é a seguinte:

- 1 = não é um problema
- 2 = é um problema pequeno
- 3 = é um problema médio
- 4 = é um problema grande
- 5 = é um problema muito grande

1. Meu/minha filho(a) tem dificuldades em falar forte (alto) ou ser ouvido(a) em lugares ou situações barulhentos.	1	2	3	4	5
2. Quando fala ele/ela fica sem ar e precisa respirar muitas vezes.	1	2	3	4	5
3. Às vezes, quando começa a falar, ele/ela não sabe como a voz vai sair.	1	2	3	4	5
4. Às vezes, meu/minha filho(a) fica ansioso(a) ou frustrado(a) por causa da sua voz.	1	2	3	4	5
5. Às vezes, meu/minha filho(a) fica deprimido(a) por causa da sua voz.	1	2	3	4	5
6. Meu/minha filho(a) tem dificuldades em falar ao telefone ou conversar pessoalmente com seus/suas amigos(as).	1	2	3	4	5
7. Meu/minha filho(a) tem problemas na escola por causa da sua voz.	1	2	3	4	5
8. Meu/minha filho(a) evita sair socialmente por causa da sua voz.	1	2	3	4	5
9. Meu/minha filho(a) tem que repetir o que fala para ser entendido(a).	1	2	3	4	5
10. Meu/minha filho(a) ficou menos expansivo(a) por causa da sua voz.	1	2	3	4	5

ANEXO 4

CÁLCULO DOS ESCORES DO PROTOCOLO QUALIDADE DE VIDA E VOZ PEDIÁTRICO (QVV-P)

COMO CALCULAR ESCORES DO PROTOCOLO QVV

Para o cálculo do escore final do QVV, utilizam-se as regras geralmente empregadas na maior parte dos instrumentos de qualidade de vida. É calculado um escore padrão a partir do escore bruto, com um valor mais elevado indicando uma maior correlação entre a voz e a qualidade de vida. O escore máximo é de 100 (melhor qualidade de vida), e o escore mínimo é zero, tanto para um domínio particular, como para o escore global.

O escore geral do QVV é calculado de acordo com o seguinte algoritmo:

$$100 - \frac{(\text{escore bruto} - \# \text{ itens no domínio ou total})}{\text{maior escore bruto possível} - \# \text{ itens}} \times 100$$

Desta forma, se quisermos calcular o escore do domínio sócio-emocional, correspondente aos itens 4, 5, 8 e 10, utilizaremos o seguinte algoritmo:

$$100 - \frac{(\text{escore bruto} - 4)}{16} \times 100$$

Já o escore do funcionamento físico, correspondente aos itens 1, 2, 3, 6, 7 e 9 é calculado de acordo com o seguinte algoritmo:

$$100 - \frac{(\text{escore bruto} - 6)}{24} \times 100$$

Finalmente, o escore total, correspondente aos itens de 1 a 10, é calculado de acordo com o seguinte algoritmo:

$$100 - \frac{(\text{escore bruto} - 10)}{40} \times 100$$

Desta forma, se o escore padrão for 30, como se um problema moderado existisse em todos os itens, então, o resultado global do QVV seria:

$$100 - \frac{20}{40} \times 100 = 100 - (0,5 \times 100) = 100 - 50 = 50 \text{ escore padrão}$$

Obs.: Referência do artigo original em inglês: Hogikyan ND, Sethuraman G. Validation of an instrument to measure voice-related quality of life (V-RQOL). *Journal of Voice*, 13(4):557-69, 1999.

ANEXO 5

REGISTRO DA PROVA DE NOMEAÇÃO ABFW



ABFW - TESTE DE LINGUAGEM INFANTIL
NAS ÁREAS DE FONOLOGIA, VOCABULÁRIO, FLUÊNCIA E PRAGMÁTICA



CAPÍTULO I - FONOLOGIA
HAYDÉE FISZBEIN WERTZNER

ANEXO 2

FONOLOGIA. PROTOCOLO DE REGISTRO - NOMEAÇÃO

Nome: Data do Exame: Idade:
--

Registro	
Vocábulo	Transcrição
1. Palhaço	
2. Bolsa	
3. Tesoura	
4. Cadeira	
5. Galinha	
6. Vassoura	
7. Cebola	
8. Xícara	
9. Mesa	
10. Navio	
11. Livro	
12. Sapo	
13. Tambor	
14. Sapato	
15. Balde	
16. Faca	
17. Fogão	
18. Peixe	
19. Relógio	
20. Cama	
21. Anel	
22. Milho	
23. Cachorro	
24. Blusa	

Análise Tradicional		
Fonema	Inicial	Final
p		
b		
t		
d		
k		
g		
f		
v		
s		
z		
ʃ		
ʒ		
m		
n		
ɲ		
l		
ʎ		
ɾ		
r		
Arqui/S/		
Arqui/R/		
pR		
bR		
tR		



continuação

Vocabulo	Transcrição
25. Garfo	
26. Trator	
27. Prato	
28. Pasta	
29. Dedo	
30. Braço	
31. Girafa	
32. Zebra	
33. Planta	
34. Cruz	

Fonema	Inicial	Final
dR		
kR		
gR		
vR		
pl		
bl		
kl		
gl		
fl		

<p>Acerto: Omissão: Substituição: Distorção:</p>

REFERENCIAR ESTE MATERIAL COMO:

WERTZNER, H. F. Fonologia. In: ANDRADE, C. R. F.; BEFI-LOPES, D. M.; FERNANDES, F. D. M.; WERTZNER, H. F. *ABFW: teste de linguagem infantil nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática*. 2. ed. rev. ampl. e atual. Barueri (SP): Pró-Fono, 2004. Cap. 1, Anexo 2. 1 CD Rom.

ANEXO 6

REGISTRO DA PROVA DE IMITAÇÃO ABFW



ABFW - TESTE DE LINGUAGEM INFANTIL
NAS ÁREAS DE FONOLOGIA, VOCABULÁRIO, FLUÊNCIA E PRAGMÁTICA



CAPÍTULO I - FONOLOGIA
HAYDÉE FISZBEIN WÉRTZNER

ANEXO I

FONOLOGIA. PROTOCOLO DE REGISTRO - IMITAÇÃO

Nome: Data do Exame: Idade:
--

Registro		Análise Tradicional		
Vocábulo	Transcrição	Fonema	Inicial	Final
01. Peteca		p		
02. Bandeja		b		
03. Tigela		t		
04. Doce		d		
05. Cortina		k		
06. Gato		g		
07. Foguete		f		
08. Vinho		v		
09. Selo		s		
10. Zero		z		
11. Chuva		ʃ		
12. Jacaré		ʒ		
13. Machado		m		
14. Nata		n		
15. Lama		ɲ		
16. Lápis		l		
17. Preggo		ʎ		
18. Café		ɾ		
19. Alface		r		
20. Raposa		Arqui/S/		
21. Borracha		Arqui/R/		
22. Abelha		pR		
23. Carro		bR		
24. Branco		tR		



continuação

Vocábulo	Transcrição	Fonema	Inicial	Final
25. Travessa		dR		
26. Droga		kR		
27. Cravo		gR		
28. Grosso		fR		
29. Fraco		pl		
30. Plástico		bl		
31. Bloco		kl		
32. Clube		gl		
33. Globo		fl		
34. Flauta				
35. Pastel				
36. Porco				
37. Nariz				
38. Amor				
39. Roupa				

Acerto:
 Omissão:
 Substituição:
 Distorção:

REFERENCIAR ESTE MATERIAL COMO:

WERTZNER, H. F. Fonologia. In: ANDRADE, C. R. F.; BEFI-LOPES, D. M.; FERNANDES, F. D. M.; WERTZNER, H. F. *ABFW: teste de linguagem infantil nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática*. 2. ed. rev. ampl. e atual. Barueri (SP): Pró-Fono, 2004. Cap. 1, Anexo 1. 1 CD Rom.

ANEXO 7
ANÁLISE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS PROVA DE NOMEAÇÃO ABFW


 CAPÍTULO 1 - FONOLOGIA
 HAYDÉE FISZBEIN WERTZNER

 ANEXO 3
 FONOLOGIA. ANÁLISE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS - NOMEAÇÃO

Nome:																	
Idade:		Data:															

	palhaço	bolsa	tesoura	cadeira	galinha	vassoura	cebola	xícara	mesa	navio	livro	sapo	tambor	sapato	balde	faca	fogão	total	
Transcrição																			
redução de sílaba																			
harmonia consonantal																			
plosivação de fricativas																			
posteriorização para velar																			
posteriorização para palatal																			
frontalização de velares																			
frontalização de palatal																			
simplificação de líquida																			
simplificação do encontro consonantal																			
simplificação da consoante final																			
sonorização de plosivas																			
sonorização de fricativas																			
ensurdecimento de plosivas																			
ensurdecimento de fricativas																			
outros																			
Total																			

Legenda: processos fonológicos observados durante o desenvolvimento;
 processos fonológicos não observados freqüentemente durante o desenvolvimento.



continuação

	peixe	relógio	cama	anel	milho	cachorro	blusa	garfo	trator	prato	pasta	dedo	zebra	girafa	braço	planta	cruz	total	
Transcrição																			
redução de sílaba																			
harmonia consonantal																			
plosivação de fricativas																			
posteriorização para velar																			
posteriorização para palatal																			
frontalização de velares																			
frontalização de palatal																			
simplificação de líquida																			
simplificação do encontro consonantal																			
simplificação da consoante final																			
sonorização de plosivas																			
sonorização de fricativas																			
ensurdecimento de plosivas																			
ensurdecimento de fricativas																			
outros																			
Total																			

Legenda: processos fonológicos observados durante o desenvolvimento;
 processos fonológicos não observados freqüentemente durante o desenvolvimento.

REFERENCIAR ESTE MATERIAL COMO:

WERTZNER, H. F. Fonologia. In: ANDRADE, C. R. F.; BEFI-LOPES, D. M.; FERNANDES, F. D. M.; WERTZNER, H. F. *ABFW: teste de linguagem infantil nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática*. 2. ed. rev. ampl. e atual. Barueri (SP): Pró-Fono, 2004. Cap. 1, Anexo 3. 1 CD Rom.

ANEXO 8
ANÁLISE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS PROVA DE IMITAÇÃO ABFW



CAPÍTULO 1 - FONOLOGIA
HAYDÉE FISZBEIN WERTZNER

ANEXO 4
FONOLOGIA. ANÁLISE DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS - IMITAÇÃO

Nome: _____
Idade: _____ Data: _____

	peteca	bandeja	tigela	doce	cortina	gato	foguete	vinho	selo	zero	chuva	jacaré	machado	nata	lama	lápiz	prego	café	alface	total	
Transcrição																					
redução de sílaba																					
harmonia consonantal																					
plosivação de fricativas																					
posteriorização para velar																					
posteriorização para palatal																					
frontalização de velares																					
frontalização de palatal																					
simplificação de líquida																					
simplificação do encontro consonantal																					
simplificação da consoante final																					
sonorização de plosivas																					
sonorização de fricativas																					
ensurdecimento de plosivas																					
ensurdecimento de fricativas																					
outros																					
Total																					

Legenda: processos fonológicos observados durante o desenvolvimento;
processos fonológicos não observados frequentemente durante o desenvolvimento.



continuação

	raposa	borracha	abelha	carro	branco	travessa	droga	cravo	grosso	fraco	plástico	bloco	clube	globo	flauta	pastel	porco	nariz	amor	roupa	total	
Transcrição																						
redução de sílaba																						
harmonia consonantal																						
plosivação de fricativas																						
posteriorização para velar																						
posteriorização para palatal																						
frontalização de velares																						
frontalização de palatal																						
simplificação de líquida																						
simplificação do encontro consonantal																						
simplificação da consoante final																						
sonorização de plosivas																						
sonorização de fricativas																						
ensurdecimento de plosivas																						
ensurdecimento de fricativas																						
outros																						
Total																						

Legenda: processos fonológicos observados durante o desenvolvimento;
processos fonológicos não observados frequentemente durante o desenvolvimento.

REFERENCIAR ESTE MATERIAL COMO:

WERTZNER, H. F. Fonologia. In: ANDRADE, C. R. F.; BEFI-LOPES, D. M.; FERNANDES, F. D. M.; WERTZNER, H. F. *ABFW: teste de linguagem infantil nas áreas de fonologia, vocabulário, fluência e pragmática*. 2. ed. rev. ampl. e atual. Barueri (SP): Pró-Fono, 2004. Cap. 1, Anexo 4. 1 CD Rom.

ANEXO 9
DISTRIBUIÇÃO DE OCORRÊNCIAS DOS PROCESSOS DURANTE
AS PROVAS DE NOMEAÇÃO E IMITAÇÃO

CAPÍTULO 1 - FONOLOGIA (PARTE A)

ANEXO 7

FONOLOGIA. POSSIBILIDADES DE OCORRÊNCIA DOS FONEMAS E DOS
 ENCONTROS CONSONANTAIS NA PROVA DE IMITAÇÃO

Fonema	Inicial	Final	Total
p	3	2	5
b	2	2	4
t	1	5	6
d	1	1	2
k	3	6	9
g	1	2	3
f	1	1	2
v	1	2	3
s	1	4	5
z	1	1	2
ʃ	1	1	2
ʒ	1	1	2
m	1	2	3
n	2	1	3
ɲ	0	1	1
l	2	2	4
ʎ	0	1	1
ʎ	0	3	3
r	2	1	3
Arqui/S/	2	2	4
Arqui/R/	2	1	1
Total	28	42	70

Encontro Consonantal	Inicial	Final	Total
p R	1	0	1
bR	1	0	1
tR	1	0	1
dR	1	0	1
kR	1	0	1
gR	1	0	1
fR	1	0	1
pl	1	0	1
bl	1	0	1
kl	1	0	1
gl	1	0	1
fl	1	0	1
Total	12	0	12

ANEXO 8

FÔNLOGIA. POSSIBILIDADES DE OCORRÊNCIA DOS PROCESSOS FONOLÓGICOS NAS PROVAS DE IMITAÇÃO E NOMEAÇÃO

	Imitação	Nomeação
1. Redução de sílaba	52	45
2. Harmonia consonantal	52	45
3. Plosivação de fricativas	22	23
4. Posteriorização para velar	13	12
5. Posteriorização para palatal	7	11
6. Frontalização de velares	17	9
7. Frontalização de palatal	6	5
8. Simplificação de líquida	8	11
9. Simplificação do encontro consonantal	12	8
10. Simplificação da consoante final	7	5
1. Sonorização de plosivas	29	21
2. Sonorização de fricativas	13	14
3. Ensurdimento de plosivas	17	14
4. Ensurdimento de fricativas	9	9

Legenda: processos fonológicos observados durante o desenvolvimento;
 processos fonológicos não observados freqüentemente durante o desenvolvimento.

ANEXO 10
APROVAÇÃO DO COMITÊ DE ÉTICA EM PESQUISA
COM SERES HUMANOS – HC/UFPR



Curitiba, 09 de novembro de 2010.

Ilmo (a) Sr. (a)
Ana Paula Dassie Leite
Neste

Prezada Pesquisadora:

Comunicamos que o Projeto de Pesquisa intitulado "AVALIAÇÃO DE VOZ E FALA DE CRIANÇAS E ADOLESCENTES PORTADORES DE HIPOTIREOIDISMO CONGÊNITO", foi analisado COM PENDÊNCIA pelo Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos, em reunião realizada no dia 30 de março de 2010. Após, analisada as respostas das pendências encaminhadas pela pesquisadora, este CEP/HC considera o projeto aprovado em 09 de novembro de 2010. O referido projeto atende aos aspectos das Resoluções CNS 196/96, e demais, sobre Diretrizes e Normas Regulamentadoras de Pesquisa Envolvendo Seres Humanos do Ministério da Saúde.

CAAE: 0075.0.208.000-10
Registro CEP: 2179.073/2010-03

Conforme a Resolução 196/96, solicitamos que sejam apresentados a este CEP, relatórios sobre o andamento da pesquisa, bem como informações relativas às modificações do protocolo, cancelamento, encerramento e destino dos conhecimentos obtidos.

Data para entrega do primeiro relatório: 09 de maio de 2011.

Atenciosamente,

A handwritten signature in black ink, appearing to read "Renato Tambara Filho".

Renato Tambara Filho
Coordenador do Comitê de Ética em Pesquisa
em Seres Humanos do Hospital de Clínicas/UFPR

PRODUÇÃO ACADÊMICA

MUÑOZ, M. B.; DASSIE-LEITE, A. P.; BEHLAU M; LACERDA FILHO, L; HAMERSCHMIDT, R; NESI-FRANÇA, S. Alterações fonoaudiológicas em crianças com hipotireoidismo congênito: revisão crítica da literatura. **Revista CEFAC** [*in press*]

DASSIE-LEITE, A. P.; BEHLAU, M.; FUGMANN, E. A.; LACERDA FILHO, L. Avaliação laringológica de crianças com hipotireoidismo congênito. In: **Anais do 21º Congresso Brasileiro e 2º Ibero Americano de Fonoaudiologia**: Porto de Galinhas, 2013.

RIBEIRO, V. V.; DASSIE-LEITE, A. P. ; LACERDA FILHO, L.; CIELO, C. A.; BAGAROLLO, M. F. Percepção dos pais sobre a qualidade de vida em voz e evolução clínica de crianças disfônicas pré e pós-terapia fonoaudiológica em grupo. **Distúrbios da Comunicação**, v.25, p.81-90, 2013.

MUÑOZ, M. B.; DASSIE-LEITE, A. P.; DE LACERDA, L.; MARQUES-PEREIRA, R.; HAMERSCHMIDT, R.; NESI-FRANÇA, S. Perda auditiva sensorineural em crianças com hipotireoidismo congênito. In: **Anais do Encontro Internacional de Audiologia**: Bauru, 2012.

MUÑOZ, M. B.; DASSIE-LEITE, A. P.; DE LACERDA, L.; MARQUES-PEREIRA, R.; HAMERSCHMIDT, R.; NESI-FRANÇA, S. Hearing evaluation in children and adolescents with congenital hypothyroidism. In: **Anais da Reunión Anual de la Sociedad Latinoamericana de Endocrinología Pediátrica**: Montevideo, 2012.

ARTIGO A SER SUBMETIDO AO PERIÓDICO THE JOURNAL OF PEDIATRIC – SERÁ REVISADO POSTERIORMENTE À DEFESA, DE ACORDO COM AS SUGESTÕES FEITAS À TESE PELA BANCA

Recebido em: ; Aceito em:

Avaliação fonológica de crianças com hipotireoidismo congênito

Phonological evaluation of children with congenital hypothyroidism

Título resumido: Hipotireoidismo e Fonologia

Ana Paula Dassie-Leite¹, Mara Behlau², Luiz de Lacerda Filho¹

(1) Universidade Federal do Paraná – UFPR – Curitiba (PR), Brasil.

(2) Centro de Estudos da Voz – CEV - e Universidade Federal de São Paulo – UNIFESP – São Paulo (SP), Brasil

(3) Trabalho realizado na Universidade Federal do Paraná – UFPR – Curitiba (PR), Brasil.

RESUMO

Objetivo: Obter os dados da avaliação fonológica de crianças com Hipotireoidismo Congênito (HC) e compará-los aos de crianças saudáveis e aos dados de avaliação e tratamento médico para a doença. **Métodos:** Participaram 200 crianças, sendo 100 com HC (Grupo estudo - GE), e 100 sem a doença (Grupo controle - GC), com idades cronológicas entre três e 12 anos, que foram submetidas a: 1) Anamnese Fonoaudiológica - identificação, queixas e presença de variáveis interferentes; 2) Avaliação fonológica – prova de fonologia do Teste de Linguagem Infantil ABFW; 3) Análise de prontuários (GE) - etiologia do HC, idade de início do tratamento, gravidade ao diagnóstico, qualidade de tratamento, resultados dos testes neuropsicológicos (CAT, CLAMS e CDC) nos três primeiros anos de vida, e da função tireoidiana no dia da coleta. GE e GC foram diferentes quanto ao sexo ($p < 0,001$) e escolaridade ($p = 0,001$) e semelhantes quanto à idade ($p = 0,91$). Quanto à avaliação fonológica por idade, observou-se maior ocorrência de simplificação de encontros consonantais aos sete anos no GE ($p = 0,006$ na prova de imitação e $0,06$ na prova de nomeação). Houve diferença entre as faixas etárias de 4 + 5 e 6 + 7 anos quanto à aquisição fonológica, sendo que o GC completou o sistema mais precocemente ($p = 0,02$). A agenesia de tireóide ($p = 0,04$) e os resultados alterados nos testes CLAMS ($p = 0,007$) e CDC ($p = 0,008$) foram associados à presença de desvio fonológico. Conclui-se que crianças com HC, mesmo quando tratadas precoce e adequadamente, apresentam um atraso na aquisição fonológica, principalmente entre seis e sete anos de idade, que parece ter relação com a etiologia e com os resultados dos testes neuropsicológicos. **Descritores:** Questionários; Satisfação do paciente; Auxiliares de audição; Perda auditiva; Idoso

ABSTRACT

Purpose: Evaluate phonological characteristics of a group of children with CH and their association with clinical, laboratory and therapeutic profile. **Methods:** Two-hundred children, aged 3 to 12 y-old, were enrolled: 100 with CH (Study Group, SG) and 100 euthyroid. The following parameters were evaluated: 1) Speech Language Pathology Interview – identification, complaints and interfering variables; 2) Phonological Assessment - phonology test by the Child Language Test ABFW ; 3) Medical records (SG) - CH etiology , age at onset of treatment , severity at diagnosis , quality of treatment, neuropsychological tests (CAT, CLAMS and CDC) in the first three years of life, and thyroid function of the day of examination. **Results:** SG and CG were different according to gender ($p < 0.001$) and schooling ($p = 0.001$) and similar in age ($p = 0.91$). As for phonological assessment by age, SG had higher incidence of simplification of consonant clusters at seven years ($p = 0.006$ for the imitation and 0.06 for the naming task). There were differences between the age groups of 4 plus 5 and 6 plus 7 years regarding phonological acquisition as the system was completed earlier by the CG ($p = 0.02$). Thyroid agenesis ($p = 0.04$) and altered results in CLAMS ($p = 0.007$) and CDC ($p = 0.008$) tests were associated with the presence of phonological disorders. **Conclusion:** CH children with early diagnosis and adequate treatment have a delay in phonological acquisition, especially between ages six and seven, probably related to etiology and results of neuropsychological tests.

Keyword: congenital hypothyroidism; child; voice; voice disorders; speech; speech disorders

INTRODUÇÃO

O hipotireoidismo congênito (HC) é a segunda doença endócrina mais comum na infância, estando atrás somente da diabetes *mellitus* (VLIET, 1999). Estima-se que, nos países com suficiência de iodo, o HC acometa de 1: 2.000 a 1: 4.000 nascidos vivos (WALLER *ET AL.*, 2000). No Brasil, relata-se a incidência da doença varia entre os em 1: 2.500 nascidos vivos (DE CARVALHO *ET AL.*, 2007).

O HC é causado por produção insuficiente dos hormônios tireoidianos devido à malformação da glândula tireoide ou alteração na biossíntese hormonal. Sua ocorrência pode ser influenciada por gestação gemelar, famílias com histórico de alterações na glândula tireoide, entre outros (Medda, Olivier, Stazi, Grandolfo, Fazzini e Baserga, 2005).

Atualmente, com o avanço dos Programas de Triagem Neonatal (PTN), o hipotireoidismo congênito tem sido diagnosticado precocemente e o tratamento medicamentoso começa durante os primeiros dias de vida. Isso permite que os danos físicos e mentais sejam minimizados (França e Domingos, 2008). No entanto, como há um período de privação hormonal intraútero, e considerando que os hormônios tireoidianos (HT) são fundamentais para o desenvolvimento cerebral (migração neuronal, formação de axônios e dendritos, mielinização) (ROSMAN *ET AL.*, 1972; LEGRAND, 1981; POTTER *ET AL.*, 1982), é possível que a criança, mesmo com o HC detectado precocemente, tenha alguns pequenos déficits relacionados ao desenvolvimento neuropsicomotor (Rovet, Ehrlich e Sorbara, 1992). São apontadas na literatura dificuldades de linguagem, de habilidades motoras, rebaixamento de inteligência, problemas de aprendizagem, entre outras (Kooistra et

al, 1994; Bargagna et al, 1997; Alvarez et al, 2004). Especificamente em relação ao desenvolvimento fonológico, um estudo apontou que este grupo apresenta desvios aos três, cinco e sete anos, porém não os compara à frequência apresentada pelas crianças sem a doença. Além disso, em geral, os estudos referentes às dificuldades escolares, não as relacionam ao histórico de possíveis problemas fonológicos (Bargagna et. al, 2000).

A Unidade de Endocrinologia Pediátrica (UEP) do Hospital das Clínicas da Universidade Federal do Paraná (UFPR) é um serviço de referência no atendimento a crianças com HC, tendo um número muito grande de pacientes atendidos desde o ano de 1973. No entanto, ainda não foi realizado nenhum estudo de caracterização fonológica desse grupo de pacientes, o que motivou a realização deste trabalho.

No presente estudo, partiu-se do pressuposto de que o diagnóstico precoce das alterações fonológicas em crianças é de grande importância para que possíveis distúrbios não interfiram nas atividades sociais, escolares e, conseqüentemente, na qualidade de vida quando adultas (Stackhouse, 1997). O desenvolvimento fonológico têm um importante papel na competência comunicativa e linguística e, portanto, devem ser valorizadas durante a infância. Não há, contudo, estudos que tenham se preocupado em analisar esses aspectos, em crianças com reposição hormonal, comparando-se com crianças sem a doença. Dessa forma, conhecer o perfil das crianças com HC quanto a essa habilidade pode contribuir para o delineamento de ações da equipe de saúde e, mais especificamente, da Fonoaudiologia, no manejo deste grupo.

Diante do exposto, o objetivo do presente estudo foi obter os dados da avaliação fonológica de crianças com HC, comparando-os aos de crianças saudáveis e aos dados de avaliação e tratamento médico para a doença.

MÉTODOS

A pesquisa foi aprovada pelo Comitê de Ética em Pesquisa do Hospital de Clínicas da Universidade Federal do Paraná, sob o número 2179.073/2010-03. Trata-se de estudo observacional, analítico, transversal e ambispectivo. Foram incluídas 200 crianças, com idades entre três e 12 anos, pré-púberes (de acordo com o estadiamento de Tanner) sendo: 100 crianças com HC (GE), provenientes do ambulatório da UEP/HC/UFPR; e 100 crianças sem a doença (GC), provenientes dos ambulatórios de dermatologia, puericultura e endocrinopediatria geral, e alunos da creche, todos também vinculados ao Hospital de Clínicas.

Adotou-se como critérios de exclusão, em ambos os grupos: não colaboração à avaliação; diagnóstico ou suspeita de deficiência mental, em qualquer grau, e/ou histórico de alteração do desenvolvimento neuropsicomotor; doenças neurológicas ou síndromes genéticas; histórico de intercorrências pré, peri ou pós-natais; características faciais e/ou informações familiares sugestivas de respiração oral e (ou) alterações miofuncionais; frênulo lingual encurtado e/ou anteriorizado; queixa auditiva; histórico de acompanhamento fonoaudiológico para distúrbio de fala; não assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE) pelo responsável. Além disso, foram excluídas do GC as crianças com quaisquer outras doenças ou suspeitas de alterações endocrinológicas e do GE aquelas cujo diagnóstico do HC não foi feito na TN e (ou) que não aderiram ao tratamento de forma adequada.

A coleta de dados foi feita por conveniência nos dias de consulta das crianças no Hospital de Clínicas. Inicialmente, os critérios de elegibilidade para o estudo foram checados por meio de informações obtidas junto aos responsáveis, triagem fonoaudiológica feita pela pesquisadora e consulta de dados do prontuário médico. As crianças consideradas aptas a fazerem parte do estudo passaram pelos seguintes procedimentos:

- **Anamnese fonoaudiológica**

Além dos dados de identificação (data de nascimento, sexo, idade, ano escolar), os responsáveis foram questionados sobre possíveis queixas fonológicas, dificuldade escolar (apenas para as crianças do 1º ano escolar em diante), dificuldade de atenção/memória e período de início da oralidade. Também foi verificada a presença ou ausência da variável interferente referente ao período gestacional.

- **Avaliação fonológica**

Foi utilizada a Prova de Fonologia do Teste de Linguagem Infantil ABFW (ANDRADE ET AL., 2001). O objetivo do teste é verificar o inventário fonético, bem como identificar e categorizar os processos fonológicos apresentados pela criança e pode ser aplicado em crianças de três a doze anos. Para testagem, são utilizadas duas provas: a de nomeação de 34 figuras e a de imitação de 39 vocábulos, ambas balanceadas foneticamente.

Após a coleta, fez-se a análise tradicional e, caso fossem identificados um ou mais sons da fala com produção inadequada, prosseguia-se para a análise dos processos fonológicos, que corresponde ao objeto de estudo da presente pesquisa. A análise de processos fonológicos verifica quais regras fonológicas o sujeito está simplificando. No Teste ABFW são descritos 14 processos, sendo 10 deles frequentemente observados durante o desenvolvimento e quatro deles não. O teste permite, ainda, que sejam acrescentados outros processos observados. Na presente pesquisa, foi acrescentado o processo 15, referente à frontalização de vibrante posterior (substituição considerada regionalismo, frequentemente observada em falantes de algumas comunidades do interior do estado do Paraná).

Em um protocolo de marcação específico, são descritos os processos apresentados tanto nas provas de nomeação quanto de imitação para posterior cálculo da produtividade. Foram considerados produtivos os processos cuja frequência foi superior a 25%, de acordo com o número total de ocorrências durante o teste, nas provas de nomeação e imitação. É importante esclarecer que todos os processos ocorrem pelo menos quatro vezes durante o teste e que em uma única palavra pode ocorrer mais de um processo.

Os processos produtivos foram identificados e tabulados. Além disso, foi feita a observação sobre a normalidade ou anormalidade da ocorrência de cada processo de acordo com a idade da criança, de acordo com os parâmetros adotados pelo próprio teste. Assim, além do processo ser classificado como produtivo ou não, ele foi classificado como “normal” ou “anormal” de acordo com o período do desenvolvimento em que a criança se encontrava.

As crianças que não apresentaram nenhum processo fonológico produtivo foram caracterizadas como tendo a aquisição completa do sistema fonológico. As crianças que apresentaram um ou mais processos produtivos foram caracterizadas como tendo aquisição incompleta do sistema fonológico. O desvio fonológico foi atribuído às crianças que apresentaram um ou mais processos produtivos e anormais em qualquer uma das provas (imitação e/ou nomeação).

- **Dados de avaliação e tratamento médico das crianças do GE**

Foram coletadas as informações sobre: idade de início do tratamento para o HC (em dias), etiologia do HC, gravidade da doença no momento do diagnóstico, qualidade do tratamento durante os três primeiros anos de vida, resultados da função tireoidiana (valores de T₄, T₄ livre e TSH) no dia da coleta de dados para esta pesquisa e resultados das análises neuropsicológicas realizadas no serviço.

A etiologia do HC foi classificada de acordo com a cintilografia e ecografia da tireoide, realizadas após os dois anos e seis meses de idade. As possibilidades etiológicas do HC são: agenesia de tireoide, hipoplasia de tireoide, ectopia de tireoide e disormonogênese. Para classificação da gravidade da doença no momento do diagnóstico foi utilizado como parâmetro o T₄ total inicial inferior ou superior que 2,50µg/dL (GRANT et. al., 1992; DUBUIS et. al., 1996).

Para análise da qualidade do tratamento médico durante os três primeiros anos de vida, foram levantados todos os resultados de T₄, T₄ livre e TSH obtidos nesse período. A partir disso, cada um dos resultados foi caracterizado como normal ou alterado de acordo com os parâmetros de normalidade descritos na literatura: T₄ até três anos normal >10; T₄ livre até três anos normal >1,4; TSH até três anos normal <5; American Academy of pediatrics 2006, Rastolgi e Lafranchi 2010).

Na sequência, foi obtida a porcentagem de resultados alterados durante o período, para cada um dos exames. Durante os três primeiros anos de vida, as crianças atendidas na UEP passam por aproximadamente 16 avaliações laboratoriais da função tireoidiana. De qualquer forma, para que o resultado desta variável pudesse ser computado, deveria haver no prontuário o registro de pelo menos cinco valores do exame em questão (T₄, T₄ livre e TSH) durante o período. O resultado desta análise, portanto, foi expresso em porcentagem de valores alterados.

Os dados referentes aos resultados de T₄, T₄ livre e TSH obtidos no dia da coleta de dados deste estudo referem-se aos valores exatos disponibilizados pelo laboratório. Como análise adicional, os resultados também foram categorizados como normais ou alterados de acordo com os parâmetros adotados pelo Laboratório de Análises Clínicas do Hospital de Clínicas da UFPR para crianças pré- púberes: T₄ normal de 6 a 12; T₄ livre normal de 0,7 a 1,85; TSH de 0,49 a 4,67.

Os resultados das avaliações neuropsicológicas foram coletados junto à Psicóloga do Serviço. Periodicamente, as crianças com HC passam por uma bateria de testes. Aos 12, 24 e 36 meses, os pacientes passam pelo teste *Cognitive Adaptive Test (CAT)/Clinical Linguistic and Auditory Milestone Scale (CLAMS)* – CAT/CLAMS, que juntos geram um quociente de cognição (CDC) (ACCARDO ET AL., 2005). O CAT avalia a habilidade de resolução de problemas visuais-motores e o CLAMS, por meio de entrevista com os pais, avalia as habilidades de linguagem receptiva e expressiva. Consideram-se normais valores iguais ou superiores a 80 pontos em cada um dos testes. Nesta pesquisa, CAT, CLAMS e CDC foram considerados normais quando todas as avaliações (12, 24 e 36 meses) tiveram resultados iguais ou superiores a 80 pontos e alterados quando os escores foram inferiores a 80 pontos em uma ou mais avaliações. Foram incluídas nesta análise somente as crianças que passaram por pelo menos duas das três avaliações. Buscou-se observar se crianças com um ou mais resultados alterados apresentavam mais dificuldades relacionadas ao desenvolvimento fonológico.

Para análise específica quanto à aquisição do sistema fonológico (completo ou incompleto) os grupos foram pareados por gênero e idade, o que gerou um total de 64 pares, ou seja, um total de 128 crianças.

Os dados foram tabulados e analisados estatisticamente por meio dos softwares Statistica® e MedCalc®. A estimativa da diferença entre as variáveis contínuas de distribuição normal foi realizada pelos testes paramétricos *t* de *Student* (dois grupos independentes) e ANOVA (mais de dois grupos independentes). Para variáveis de distribuição assimétrica foram utilizados os testes não paramétricos de Mann-Whitney (dois grupos independentes) e ANOVA de Kruskal-Wallis (mais de dois independentes). Para a análise das variáveis categóricas foram utilizados o teste exato de Fisher (tabelas 2X2 com $n < 100$) e teste qui-quadrado de Pearson (tabelas com mais de dois grupos e $n > 100$), com correção de Yates quando necessário (tabelas 2X2 com $n > 100$). O modelo de regressão logística multivariada foi aplicado para estimar possíveis agrupamentos de variáveis independentes para o desfecho de desvio fonológico. Para todas as análises, foi adotado nível de significância de 0,05 ou 95%.

RESULTADOS

Em relação ao sexo observou-se maior frequência de meninas no GE ($n = 64$) e de meninos no GC ($n = 65$), com diferença estatisticamente significativa entre os grupos ($p < 0,001$). Em relação à idade, não foi observada diferença entre as médias dos grupos (GC = $7,3 \pm 2,3$ anos; GE = $7,3$ anos $\pm 2,2$ anos; $p = 0,91$). No que se refere à escolaridade, houve diferença entre os grupos, sendo que o GE apresentou um maior número de crianças em idade pré-escolar que ainda não frequenta a escola (GE $n = 8$; GC $n = 1$).

Durante a anamnese, 10 (10,0%) responsáveis referiram queixa fonológica no GC e 21 (21,0%) no GE, havendo diferença entre os grupos ($p = 0,05$). A maior parte das crianças, tanto do GC quanto do GE, começou a falar sílabas, palavras e frases dentro do período adequado, de acordo com a percepção dos pais (GC = 93; GE = 90; $p = 0,61$). O mesmo ocorreu para a variável referente à atenção/memória, sendo que a maior parte das crianças dos dois grupos não apresentou dificuldades em tais habilidades - GC = 84 (84,0%); GE = 77 (77,0%); ($p = 0,28$). Entretanto, a queixa de dificuldade escolar foi mais frequente no GE ($p = 0,02$).

A partir da análise dos resultados do teste ABFW, as crianças foram classificadas de acordo com a presença ou ausência de desvio fonológico de acordo com os parâmetros de normalidade adotados no instrumento (Figura 1). A ocorrência de desvio fonológico foi semelhante entre os sexos, considerando a totalidade de sujeitos estudados ($n = 200$). Do total, 16 (16,6%) meninos ($n = 99$) e 18 (18,8%) meninas ($n = 101$) apresentaram desvio fonológico ($p = 0,90$).

Os parâmetros de normalidade do teste ABFW, também foram utilizados para classificar cada processo como “normal” ou “anormal”, de acordo com a faixa etária da criança, em cada uma das provas (nomeação e imitação). Os resultados mostraram diferença entre os grupos apenas para o processo de simplificação de encontro consonantal na prova de Imitação, sendo que o GE apresentou um maior número de alterações ($p=0,02$) – (TABELA 1).

Foi feita, ainda, a análise da ocorrência dos processos fonológicos produtivos de acordo com a idade apresentada pela criança, comparando GC e GE. Na prova de nomeação, não houve diferença entre os grupos quando cada uma das idades foi comparada individualmente ($p > 0,05$) (Figura 2), embora, aos sete anos, tenha sido observada uma tendência à diferença ($p = 0,06$). Já na prova de imitação, houve diferença entre os grupos na comparação do processo “Simplificação de Encontro

Consonantal” aos sete anos de idade ($p = 0,006$), sendo que o GE apresentou um número maior de ocorrências (Figura 3).

A variável referente à análise do sistema fonológico completo ou incompleto, realizada com os grupos pareados por gênero e idade ($n = 128$), indicou que as crianças do GC tem maior frequência de sistema completo aos sete anos. Quando as idades 4+5 anos e 6+7 anos são comparadas entre os grupos, também há diferença que indica que a aquisição no GC ocorre de forma mais precoce (TABELA 2).

A idade de início de tratamento foi relacionada à presença ou ausência de desvio fonológico e aquisição completa ou incompleta. Não houve diferenças estatisticamente significantes para nenhuma das duas variáveis ($p = 0,21$ e $p = 0,73$, respectivamente). Quanto à etiologia, crianças com agenesia de tireoide tiveram maior ocorrência de desvio quando comparadas as crianças com outras etiologias; o mesmo ocorreu com as crianças com alterações nos Testes CLAMS E CDC (TABELA 3).

Não se observou associação entre a variável porcentagem de valores de T_4 , T_4 livre e TSH alterados até os três primeiros anos de vida e a ocorrência de desvio fonológico (TABELA 4). A queixa de fala referida pelos responsáveis foi associada à presença ou ausência de desvio fonológico no GE. Os resultados mostram concordância entre a percepção dos pais sobre a dificuldade da criança e a frequência de desvio fonológico observada pela pesquisadora ($p < 0,01$) (TABELA 5).

Para a análise multivariada, foi selecionada como variável dependente a presença ou ausência de desvio fonológico. Tal variável foi relacionada aos dados de avaliação e tratamento médico, de acordo com a relevância para o cruzamento. O modelo aplicado foi o de Regressão Logística. Primeiramente, a variável referente à presença ou ausência de desvio fonológico foi associada à idade de início do tratamento, etiologia do HC, dosagens iniciais de T_4 , T_4 livre e TSH, e porcentagem de T_4 , T_4 livre e TSH alterados até os três primeiros anos de vida. Observa-se que nenhuma das variáveis isoladamente foi preditora do desvio fonológico. O desvio fonológico como variável dependente também foi associado aos resultados dos testes neuropsicológicos realizados aos 12, 24 e 36 meses de idade, aos dados de queixa trazida pelos responsáveis e ao período de início da oralidade da criança. Observa-se que as crianças que apresentaram CLAMS alterado durante os três primeiros anos de vida e aquelas cujos pais referiram queixa de fala tiveram mais chances de apresentar desvio fonológico (OR 13,4 e 10,8, respectivamente).

DISCUSSÃO

A comparação entre GE e GC quanto aos dados epidemiológicos indicou semelhança entre as idades cronológicas e diferença entre os sexos e escolaridade. A coleta por conveniência ao GC teve uma maior frequência de meninos, o que se opôs ao GE, que tem predominância da doença no sexo feminino (BENEVIDES *ET AL.*, 2006). O número de crianças que ainda não frequenta a escola/creche foi superior no GE em relação ao GC. Considerando os dados da literatura que indicam que, mesmo com o tratamento precoce, as crianças com HC possam apresentar discretos déficits neurológicos (ROVET, 2005), a inserção precoce à escolarização pode ser de extrema importância e deve ser sugerida e orientada aos pais pela equipe de saúde.

Durante a anamnese, as dificuldades de fala foram mais frequentes no GE e esta queixa pôde ser confirmada posteriormente pela avaliação fonológica. No que

se refere ao desenvolvimento da linguagem, de forma geral, ainda há controvérsias sobre sua relação com o HC. Alguns estudos referem desenvolvimento adequado quando crianças com HC são comparadas a um grupo controle (Fuggle et al, 1991; Rovet, 1999). Por outro lado, há pesquisas que apontam indícios de déficits fonológicos e/ou atrasos significativos no desenvolvimento da linguagem (Rovet, Ehrlich e Sorbara, 1992; Kooistra, 1994; Bargagna, 2000; Alvarez, 2004). Acredita-se que tais divergências possam ter relação com a grande diversidade metodológica observada nos estudos, tais como seleção de variáveis, tamanho da amostra, tipos de testes/avaliações empregados e forma de análise de dados.

Neste estudo, na comparação quanto à presença de desvio fonológico, não houve diferença estatisticamente significativa entre os grupos GC e GE. Este dado foi baseado nos critérios de normalidade do Teste ABFW (Andrade et al, 2000), que permite que a aquisição fonológica completa aconteça até os sete anos de idade (7:0 anos). Embora a prevalência de desvio fonológico na população geral de crianças seja bastante variável de acordo com a literatura (uma vez que existem muitas formas de avaliação), os estudos epidemiológicos nacionais e internacionais mais robustos do ponto de vista metodológico, indicam valores entre nove e 15% (Gietur, 1998; Longoni, Richardson e Aiello, 2001; Cavalheiro, Brancalioni e Keske-Soares, 2012). Pode-se inferir, portanto, que a frequência de desvio fonológico no GE foi superior à observada na população geral.

Os processos fonológicos apresentados pelas crianças foram categorizados em normais (quando esperados para a idade) ou anormais (quando já deveriam ter sido eliminados), de acordo com os parâmetros do ABFW. Houve diferença entre os grupos apenas para o processo de simplificação de encontros consonantais na prova de imitação, sendo que o GE apresentou maior frequência quando comparado ao GC.

É importante mencionar que a estrutura consoante/consoante/vogal (CCV), envolvendo as líquidas // e /r/, é descrita na literatura como uma das mais complexas, e por este motivo, é a última a alcançar estabilidade dentro do sistema fonológico da criança (Ribas, 2004). Talvez por este motivo, o processo de SEC também é o mais observado entre as crianças com desvio fonológico, juntamente com o processo de SL (Oliveira e Wertzner, 2000).

Vale a pena discutir sobre os critérios de normalidade adotados pelo ABFW, que permite que os processos de simplificação de encontros consonantais e simplificação de consoantes finais ocorram até os sete anos (7:0) de idade. Tais critérios foram estabelecidos a partir do estudo de Wertzner (1995), uma das autoras do instrumento, realizado com crianças de nível socioeconômico baixo, da cidade de São Paulo. A autora justifica que a persistência destes processos até os sete anos de idade pode ter tido relação com o meio linguístico frequentado pelas crianças, considerando suas variações. No referido estudo, quanto à SEC, a substituição mais comum foi a da líquida // pela líquida /r/, como por exemplo: [blusa] por [brusa]; [planta] por [pranta], o que também foi o mais frequente na presente pesquisa. No entanto, mesmo também apresentando nível socioeconômico baixo, a ocorrência do processo de SEC de forma anormal em crianças do GC foi inferior à do GE.

Em relação à diferença estatisticamente significativa na prova de imitação e não na de nomeação, tem-se a hipótese de que, na primeira, o número de processos de SEC envolvendo a líquida // é maior do que na segunda. Assim, se a principal dificuldade das crianças encontra-se na produção da líquida // na estrutura CCV, os resultados podem ser piores na prova de imitação. Um estudo desenvolvido

por Wertzner, Papp e Galea (2006) teve o objetivo de verificar a associação entre os resultados de desempenho fonológico obtidos nas provas de nomeação e imitação do Teste ABFW. Embora os resultados tenham demonstrado concordância entre as provas, observou-se um maior número de processos produtivos na prova de imitação.

Optou-se por analisar a produtividade de cada um dos processos descritos pelo ABFW de acordo com a idade. Na idade de sete anos houve diferença entre os grupos GC e GE na prova de imitação e tendência à diferença na prova de nomeação. Crianças do GE tiveram maior frequência de SEC do que as crianças do GC. Nesta faixa etária, segundo os parâmetros do instrumento, todas as crianças já deveriam apresentar o sistema fonológico completo (Andrade et al., 2000).

Ainda aos sete anos, nota-se que não há a ocorrência da SEC entre as crianças do GC, enquanto no GE ela ocorre em 41,7% na prova de imitação e 25% na prova de nomeação. Além disso, quando é calculada a área abaixo da curva referente à SEC, considerando todas as idades, tem-se valores de 44,6 milímetros quadrados (mm^2) para o GC e 111,5 mm^2 para o GE na prova de nomeação e 73,45 mm^2 para o GC e 175,05 mm^2 para o GE na prova de imitação.

Em estudo sobre a análise dos processos fonológicos em crianças com desenvolvimento fonológico normal, Ferrante, Borsel e Pereira (2009) concluíram que entre 7:0 e 7:11 anos de idade, a SEC ocorre em menos de 0,5% dos casos, o que está de acordo com os resultados do GC deste estudo. Bargagna et al. (1997), realizaram um estudo para comparar o desenvolvimento neuropsicológico entre uma criança com HC e sua irmã gêmea que não apresentava a doença. Uma das avaliações realizadas correspondia ao desenvolvimento fonológico e de linguagem expressiva. Observou que, aos quatro anos, a criança com HC apresentava aquisição fonológica atrasada em relação à irmã sem a doença. No entanto, aos oito anos, a criança com a HC, assim como a irmã, apresentava sistema fonológico completo.

Os resultados da pesquisa supracitada chamam atenção pelo fato de que, no presente estudo, entre os oito anos e nove anos de idade, as crianças com HC também completaram seu sistema e demonstraram se equiparar às crianças do GC no que se refere à aquisição fonológica. O que não se sabe, no entanto, é o quanto este discreto atraso enfrentado pelas crianças do GE até essa idade poderia influenciar negativamente nas habilidades escolares, uma vez que, nessa faixa etária, as crianças já estão em fase de alfabetização.

Embora não tenha sido o foco deste estudo, quando questionados sobre o desempenho escolar das crianças, os responsáveis do GE referiram uma maior frequência de dificuldades quando comparados ao GC. De forma geral, estudos apontam que desvios fonológicos podem gerar dificuldades escolares, uma vez que a consciência fonológica é fundamental para o desenvolvimento das habilidades de leitura e escrita (Salgado e Capellini, 2004, Silva e Ávila, 2013).

Especificamente sobre o HC, há poucos estudos que comparam as habilidades escolares deste grupo às de crianças sem a doença. Uma pesquisa teve o objetivo de descrever o progresso em leitura, matemática, habilidades motoras e comportamento em um grupo de crianças com HC. Participaram 59 crianças com HC (31 com HC mais grave e 28 com HC menos grave do ponto de vista bioquímico) com 10 anos de idade e 59 colegas de classe (GC). Na habilidade de leitura não houve diferença entre os grupos. Por outro lado, crianças com HC mais grave apresentaram mais alterações em matemática, habilidades motoras em

comportamento (*SIMONS ET AL.*, 1997). O estudo não menciona quantas crianças com HC apresentaram desvio fonológico em algum momento do desenvolvimento.

Já o estudo de Bargagna et al. (1999) avaliou o desempenho escolar de 19 crianças com HC tratadas precocemente e as comparou a 298 crianças sem a doença, pareadas por idade e nível escolar. Na idade pré-escolar, as crianças com HC tiveram piores desempenhos nas provas de cópia de símbolos e figuras, repetição de frases e escrita espontânea (prova de reconhecimento de erro ortográfico). Na referida pesquisa, também não houve menção sobre possíveis desvios fonológicos e/ou de consciência fonológica.

Foi localizado um único estudo que encontrou uma relação entre os problemas de aprendizagem e o histórico de distúrbios de fala e(ou) linguagem oral em crianças com HC (*Dinetti et al.*, 1998). Na referida pesquisa, a dificuldade escolar no grupo com HC foi mais frequente do que num grupo controle pareado por série escolar e idade. As dificuldades apresentadas também foram relacionadas a outras variáveis como baixos níveis de QI e um pior nível sociocultural.

Considerando os aspectos supracitados referentes ao desempenho escolar de crianças com HC, sugere-se a realização de novos estudos, preferencialmente longitudinais, que associem as habilidades fonológicas ao desempenho escolar neste grupo. Isso porque, a presente pesquisa identificou tanto um atraso na aquisição fonológica quanto um maior número de queixas escolares quando comparadas às crianças do GC.

Os grupos GC e GE, quando pareados por sexo e idade, foram comparados quanto à variável referente à aquisição completa ou incompleta do sistema fonológico. Quando foram comparadas as faixas etárias de quatro + cinco anos e seis + sete anos, o GC apresentou uma maior frequência de aquisição completa quando comparado ao GE ($p = 0,02$). Observa-se que, até seis anos e onze meses, 100% das crianças do GC já tinham o sistema fonológico completo, contra 50% do GE. Aos sete anos e 11 meses, no GE este valor aumentou para 63,3%, porém só atingiu 100% aos nove anos e 11 meses.

Aos sete anos (7:0), de acordo com o ABFW, o sistema fonológico de todas as crianças já deveria estar completo. Entretanto, como mencionado anteriormente, devido às variáveis envolvidas durante o processo de validação, este instrumento tem critérios mais permissivos quando comparado aos de outros autores. De acordo com McLeod e Bleile (2003), a partir dos seis anos de idade, crianças com desenvolvimento fonológico normal não apresentam mais processos na fala. Este parâmetro é ainda mais rigoroso em outros estudos, que apontam que aos quatro anos de idade a maior parte das crianças já tem o sistema fonológico completo (Vieira, Mota e Keske Soares, 2004; Yavas, Hernandorena e Lamprecht, 2002; Cavalheiro, Brancalioni e Keske-Soares, 2012).

Portanto, considerando-se os parâmetros de Mc Leod e Bleile (2003) e do ABFW (Andrade et al., 2000), somente as crianças do GE apresentaram problemas de ordem fonológica; e considerando os parâmetros de Vieira, Mota e Keske Soares (2004), Yavas, Hernandorena e Lamprecht (2002) e Cavalheiro, Brancalioni e Keske-Soares (2012), ambos os grupos tiveram resultados abaixo do esperado. Deve-se considerar, no entanto, que tanto as crianças do GC quanto as do GE tinham, em geral, nível socioeconômico baixo.

As variáveis referentes à avaliação fonológica também foram comparadas aos dados clínicos das crianças com HC. A presença de desvio fonológico não foi associada à idade de início de tratamento das crianças (mediana de 18 dias). Foi

realizada uma pesquisa cujo objetivo era avaliar inteligência, habilidades motoras e comportamento de 51 crianças com HC e sua relação com idade de início de tratamento (FUGGLE ET AL., 1991). Os autores também não encontraram associação entre estas variáveis. Acredita-se que o desenvolvimento e o aperfeiçoamento dos PTN estejam permitindo diagnósticos cada vez mais precoces, o que homogeneiza o grupo quanto à idade de início da reposição hormonal.

Quanto à gravidade da doença pré-tratamento, também não foram observadas associações com a variável desvio fonológico. Este dado diverge de várias pesquisas da área, que concluem que quanto maiores as alterações hormonais iniciais, pior é o desenvolvimento das crianças com HC nos aspectos de inteligência (KOOISTRA ET AL., 1994), matemática, motores, de comportamento (SIMONS ET AL., 1997) e de linguagem (BARGAGNA, 2000; ALVAREZ, 2004; (Bargagna *et al.*, 2006). É importante frisar que houve uma grande variedade metodológica nos referidos estudos em relação à definição de gravidade, com valores de corte diferentes e isso, portanto, pode explicar a não concordância com os dados deste estudo.

Crianças com agenesia da glândula tireoide apresentaram maior frequência de desvio fonológico. ROVET ET AL. (1992), em trabalho realizado com 108 crianças com HC com idades entre um e cinco anos e 71 irmãos sem a doença, concluíram que crianças com agenesia de tireoide tiveram mais risco a problemas do desenvolvimento neurológico. Na mesma linha de investigação, KOOISTRA ET AL. (1994), concluíram que crianças com agenesia de tireoide apresentam maiores dificuldades relacionadas à fluência verbal quando comparadas às crianças com HC por outras etiologias.

Os resultados mostraram, ainda, associação entre a presença de desvio fonológico e os resultados dos testes neuropsicológicos aplicados às crianças com HC aos 12, 24 e 36 meses. Crianças que tiveram pelo menos um resultado alterado no Teste CLAMS, relacionado à fala e à linguagem, tiveram uma maior frequência de desvio quando comparadas àquelas que tiveram todas as avaliações normais. O mesmo ocorreu em relação ao quociente de cognição CDC. Este dado é de extrema importância à equipe de saúde e permite a inferência de que crianças que falham no CLAMS estão mais suscetíveis a terem atraso na aquisição fonológica e, por este motivo, devem ser acompanhadas com mais rigor. Além disso, se os pais forem orientados quanto às formas de incentivo ao desenvolvimento da fala já nesse momento inicial (aos 12, 24 ou 36 meses), é possível que problemas futuros possam ser prevenidos e(ou) minimizados.

Um estudo teve o objetivo de traçar o perfil de desenvolvimento comunicativo na faixa etária de dois a 36 meses, com 32 crianças com HC tratadas precocemente (GEJÃO E LAMÔNICA, 2008). Foram aplicados dois instrumentos, que avaliavam linguagem, cognição, habilidades motoras, autocuidados e estimulação infantil. No instrumento mais voltado para a avaliação de linguagem, a *Early Language Milestone Scale*, 31,43% das crianças apresentou desempenho alterado, principalmente nas habilidades expressivas (balbucio, palavras isoladas, frases, etc.) e nas de cognição. No referido estudo, portanto, também foi possível identificar dificuldades específicas apresentadas pelas crianças já nos primeiros anos de vida e que poderão se transformar em dificuldades fonológicas nos anos subsequentes.

A análise multivariada tendo o desvio fonológico como variável dependente indicou que crianças cujos responsáveis relataram queixa de fala têm aproximadamente 10 vezes mais chances de apresentarem este problema. Quando

a criança falha em pelo menos uma das avaliações do Teste CLAMS, as chances são ainda maiores, aumentando em 13 vezes a possibilidade de atraso na aquisição fonológica. Tais dados merecem ser analisados com cautela e valorizados pela equipe de saúde, principalmente porque, ainda na análise multivariada, nenhuma das outras variáveis referentes ao acompanhamento médico (etiologia, idade de início de tratamento, gravidade da doença pré-tratamento e qualidade do tratamento) foram isoladamente preditoras de desvio fonológico.

Os dados deste estudo permitem dizer que há um atraso no desenvolvimento fonológico em relação ao GC, que se acentua quando se consideram etiologia da doença, queixas trazidas pelos responsáveis e resultados dos testes neuropsicológicos realizados nos primeiros anos de vida. A relação entre o atraso na aquisição fonológica e as dificuldades escolares merece ser mais bem aprofundada em um novo estudo, que acompanhe longitudinalmente as crianças com HC.

Espera-se que, a partir dos resultados deste estudo, sejam criadas propostas preventivas e(ou) terapêuticas na área da Fonoaudiologia, visando ao desenvolvimento integral da saúde de crianças com HC. Com estas propostas de intervenção, será possível a realização de novos estudos, que elucidem questões sobre: quais seriam os resultados obtidos a partir de um trabalho precoce de desenvolvimento das habilidades fonológicas em crianças com HC que falham nos testes neuropsicológicos nos três primeiros anos de vida; se tais resultados permitiriam que o sistema fonológico dessas crianças estivesse completo na mesma faixa etária apresentada pelas crianças sem a doença; se o trabalho fonológico precoce, principalmente no que se refere ao desenvolvimento da consciência fonológica, permitiria que as crianças com HC tivessem o mesmo desempenho escolar de crianças saudáveis; qual seria a relação entre atraso no desenvolvimento fonológico e dificuldades escolares em crianças com HC.

CONCLUSÕES

A partir da análise dos resultados, pode-se concluir que crianças com hipotireoidismo congênito apresentam um atraso na aquisição fonológica quando as crianças com HC são comparadas às crianças sem a doença, especialmente na faixa etária entre seis e sete anos; A etiologia do HC tem relação com o desenvolvimento fonológico: crianças com agenesia de tireoide estão mais suscetíveis à presença de desvio; Crianças que falham nos testes neuropsicológicos nos três primeiros anos de vida têm 13 vezes mais chances de apresentar desvio fonológico nos anos subsequentes.

REFERÊNCIAS

American Academy of Pediatrics, Rose SR; Section on Endocrinology and Comittee on genetics, American Thyroid Association, Brown RS; Public Health Comittee, Lawson Wilkins Pediatric Endocrine Society. Update of newborn screening and therapy for congenital hypothyroidism. *Pediatrics*. 2006; 117(6):2290-2303.

Bargagna S et al A Neuropsychological development in a child with early-treated congenital hypothyroidism as compared with her unaffected identical twin..*Eur J Endocrinol*. 1997 Jan;136(1):100-4.

Bargagna S, Dinetti D, Pinchera A, Marcheschi M, Montanelli L, Presciuttini S, Chiovato L. School attainments in children with congenital hypothyroidism detected by neonatal screening and treated early in life..*Eur J Endocrinol*. 1999.140(5):407-13.

Bargagna S et al. Neuropsychological Follow-up in Early-Treated Congenital Hypothyroidism: a problem-oriented approach. *Thyroid*. 2000;10(3):243-49.

Brasil. Ministério da Saúde. Portaria SAS n.390, de 10 de junho de 2002. Disponível em <http://dtr2001.saude.gov.br/sas/sas02/sasjun02.htm>

Nesi-frança, S; Rojas-ramos, JCR. hipotireoidismo congênito in: Sociedade Brasileira de Endocrinologia e Metabologia. Pro-Endócrino. Porto Alegre: Artmed, 2009. p.31-76.

Dinetti, D. et al. [Early treated congenital hypothyroidism. Evaluation of school learning]. *Minerva Pediatr*, v. 50, n. 1-2, p. 1-8, 1998.

Ferrante C.; Van Borsel J.; Pereira, MMB. Análise dos processos fonológicos em crianças com desenvolvimento fonológico normal. *Rev. Soc Bras Fonoaudiol*. 2009;14(1):36-40.

Fisher D A. Disorders of the thyroid in the newborn and infant. In: Sperling M A. *Pediatric Endocrinology*. 3.ed. Philadelphia: W.B. Saunders; 2008. p. 198-226.

França, SN, DOMINGOS, Mousseline Torquato. Triagem neonatal do hipotireoidismo congênito: novas conquistas... novos desafios.... *Arq Bras Endocrinol Metab* [online]. 2008, vol.52, n.4, pp. 579-580.

Fuggle PW, Grant DB, Smith I, Murphy G. Intelligence, motor skills and behavior at 5 years in early-treated congenital hypothyroidism. *Eur J Pediatr*. 1991;150(8):570-4.

Gejão MG, Lamônica DAC. Habilidades do desenvolvimento em crianças com hipotireoidismo congênito: enfoque na comunicação. *Pró-Fono Revista de Atualização Científica*. 2008;20(1):25-30.

Kooistra L, Laane C, Vulsma T, Schellekens JM, Van Der Meere JJ, Kalverboer AF Motor and cognitive development in children with congenital hypothyroidism: a long-term evaluation of the effects of neonatal treatment.. *J Pediatr*. 1994;124(6):903-9.

Leger ET AL. Thyroid developmental anomalies in first degree relatives of children with congenital hypothyroidism. *J Clin Endocrinol Metab* 2002;87(2):575-80.

McLeod S, Bleile K. Neurological and developmental foundations of speech acquisition. American Speech Language-Hearing Association Convention. Chicago: ASHA; 2003.

Rovet JF, Ehrlich RM, Sorbara DL. Neurodevelopment in infants and preschool children with congenital hypothyroidism: etiological and treatment factors affecting outcome. *J Pediatr. Psychology*. 1992;17(2):187-213.

Rovet JF. Long-term neuropsychological sequelae of early-treated congenital hypothyroidism: effects in adolescence. *Acta Paediatr Suppl*. 1999; 88(432):88-95.

Setian N. Hipotireoidismo congênito. In: Serian N (org). *Endocrinologia Pediátrica: aspectos físicos e metabólicos do recém-nascido ao adolescente*. São Paulo: Sarveir;2002.p.259.

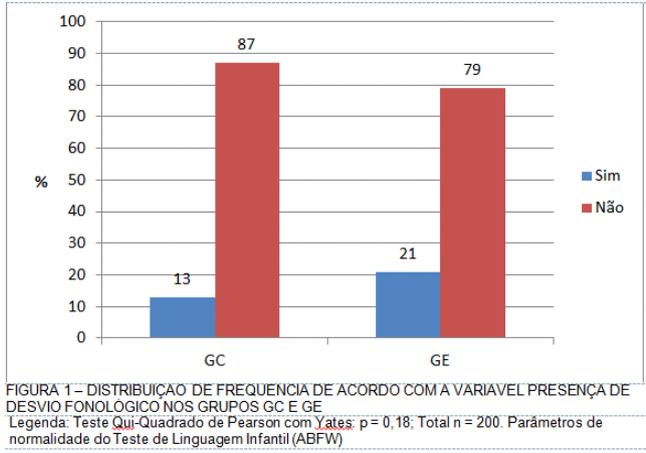
Vieira MG, Mota HB, Keske-Soares M. Relação entre idade, grau de severidade do desvio fonológico e consciência fonológica. *Rev Soc Bras Fonoaudiol*. 2004;9(3):144-50.

Vliet, G., 1999. Neonatal hypothyroidism: treatment and outcome. *Thyroid*, 9: 79-84.

Wertzner, H. F. (1995). Estudo da aquisição do sistema fonológico: o uso de processos fonológicos em crianças de três a sete anos. *Pró-Fono Revista de Atualização Científica*, 7 (1), 21-26.

Wertzner HF. Fonologia: desenvolvimento e alterações. In: Ferreira IP, Befi-lobes DM, Limongi SCO. *Tratado de Fonoaudiologia*. São Paulo Roca; 2004. p.787-814. *Pró-Fono Revista de Atualização Científica*, Barueri (SP), v. 17, n. 2, p. 185-194, maio-ago. 2005.

FIGURAS E TABELAS



PROCESSO FONOLÓGICO	PROVA DE NOMEAÇÃO			PROVA DE IMITAÇÃO		
	GC (n)	GE (n)	p	GC (n)	GE (n)	P
Posteriorização para velar	0	1	1,00	1	0	1,00
Posteriorização para palatal	2	3	1,00	2	3	1,00
Frontalização de palatal	1	2	1,00	1	2	1,00
Frontalização de velar	2	1	1,00	2	1	1,00
Simplificação de líquida	4	10	0,20	5	8	0,60
Simplificação de Encontro Consonantal	1	5	0,20	1	9	0,02
Simplificação de consoante final	0	1	1,00	0	1	1,00
Ensurdimento de plosivas	4	1	0,40	4	1	0,40
Ensurdimento de fricativas	4	0	0,10	4	1	0,10

Legenda: Teste Qui-Quadrado de Pearson com Yates; $n = 200$ (GC=100; GE=100)

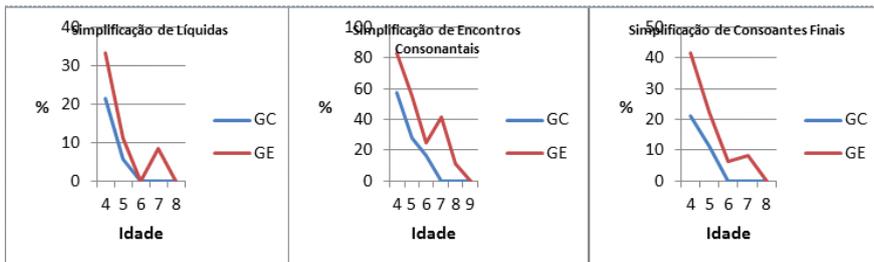
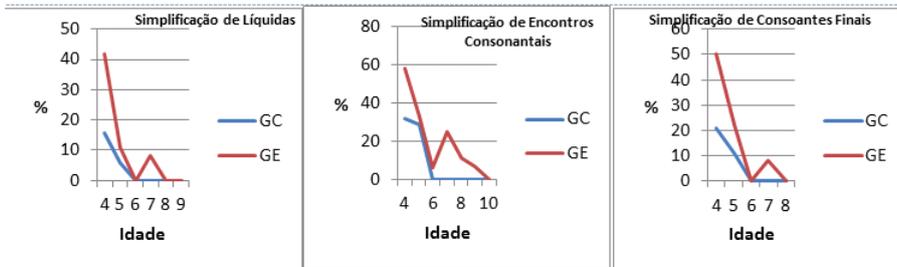


TABELA 2 - COMPARAÇÃO ENTRE GC E GE QUANTO A AQUISIÇÃO COMPLETA OU INCOMPLETA DO SISTEMA FONOLÓGICO DE ACORDO COM A IDADE

Idade	GC				GE				P
	Completo		Incompleto		Completo		Incompleto		
	N	%	N	%	n	%	n	%	
4:0 a 4:11	1	14,3	6	85,7	1	14,3	6	85,7	1
5:0 a 5:11	4	44,4	5	55,6	4	44,4	5	55,6	1
6:0 a 6:11	6	100	0	0	3	50	3	50	0,18
7:0 a 7:11	10	100	0	0	7	63,3	4	36,4	0,09
8:0 a 8:11	8	100	0	0	7	87,5	1	12,5	1
9:0 a 9:11	9	90	1	11,1	10	100	0	0	1
10:0 a 10:11	7	100	0	0	7	100	0	0	

Legenda: Teste Exato de Fisher; 4 anos (n = 14), 5 anos (n = 18), 6 anos (n = 12), 7 anos (n = 22), 8 anos (n = 16), 9 anos (n = 20), 10 anos (n = 14) p = 0,02 na comparação entre as idades 4 e 5 anos X 6 e 7 anos no GC e GE

TABELA 3 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A PRESENÇA DO DESVIO FONOLÓGICO E AS VARIÁVEIS: ETIOLOGIA DO HC E DE RESULTADOS DOS TESTES NEUROPSICOLÓGICOS

Etiologia do HC	Desvio Fonológico				
	Sim		Não		
	N	%	n	%	
Agenesia (n = 9)	5	55,6	4	44,4	
Hipoplasia (n = 12)	1	8,3	11	91,7	
Ectopia (n = 32)	2	6,3	30	93,7	
Disormogênese (n = 37)	10	27	27	73	
Valor de p	0,004				
Teste	Desvio Fonológico NAO		Desvio Fonológico SIM		p
	N	%	n	%	
CAT normal	51	82,3	11	17,7	0,2
CAT alterado	6	60	4	40	
CLAMS normal	52	85,2	9	14,7	0,007
CLAMS alterado	5	45,4	6	54,5	
CDC normal	54	84,4	10	15,6	0,008
CDC alterado	3	37,5	5	62,5	

NOTA: Teste Qui-Quadrado de Pearson.

TABELA 4 - ASSOCIAÇÃO ENTRE A PORCENTAGENS DE RESULTADOS ALTERADOS DE T₄, T₄ LIVRE E TSH E AS VARIÁVEIS DESVIO FONOLÓGICO E SISTEMA FONOLÓGICO

Função tireoidiana até 3 anos	Desvio Fonológico - SIM						Desvio fonológico - NÃO						Valor de p
	N	Média	Mediana	Min.	Max.	DP	n	Média	Mediana	Min.	Max.	DP	
% T ₄ alt até 3 anos	19	27,7	22,2	0	70	20	66	22,8	22,6	0	60	16,3	0,46
% T ₄ l alt até 3 anos	18	33,6	26,1	0	100	26,6	67	26,8	22,2	0	62,5	18,9	0,38
% TSH alt até 3 anos	20	31,3	34,8	0	60	16,3	71	26,2	25	0	57,1	17	0,3

LEGENDA: Teste de Mann-Whitney**.

TABELA 5 - ASSOCIAÇÃO ENTRE AS VARIÁVEIS QUEIXA DE FALA E DESVIO FONOLÓGICO

Queixa de fala	Desvio Fonológico NAO		Desvio Fonológico SIM	
	n	%	n	%
Não	69	87,3	10	12,7
Sim	10	47,6	11	52,4
Valor de p	p<0,001			

LEGENDA: Teste Exato de Fisher; n = 100