

UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
Faculdade de Medicina
Programa de Pós-graduação em Ciências da Saúde da Criança
e do Adolescente

Ana Luiza Carvalho de Bessa

AVALIAÇÃO DO SONO E DA QUALIDADE DE VIDA EM CRIANÇAS
E ADOLESCENTES COM BEXIGA NEUROGÊNICA SECUNDÁRIA À
ESPINHA BÍFIDA.

Belo Horizonte

2025

Ana Luiza Carvalho de Bessa

**AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA E DO SONO EM CRIANÇAS
E ADOLESCENTES COM BEXIGA NEUROGÊNICA SECUNDÁRIA À
ESPINHA BÍFIDA.**

Dissertação apresentada ao Programa de Pós-Graduação da Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Minas Gerais, em Saúde da Criança e do Adolescente, como requisito parcial à obtenção do título de Mestre em Saúde da Criança e do Adolescente.

Área de concentração: Distúrbios dos Rins e do Trato Urinário

Orientadora: Profa. Dra. Ana Cristina Simões e Silva

Belo Horizonte

2025

B557a Bessa, Ana Luiza Carvalho de.
Avaliação da Qualidade de Vida e do Sono em crianças e adolescente com Bexiga Neurogênica Secundária à Espinha Bífida [recurso eletrônico]. / Ana Luiza Carvalho de Bessa. - - Belo Horizonte: 2025.
65f.: il.
Formato: PDF.
Requisitos do Sistema: Adobe Digital Editions.

Orientador (a): Ana Cristina Simões e Silva.
Área de concentração: Medicina Molecular.
Dissertação (mestrado): Universidade Federal de Minas Gerais, Faculdade de Medicina.

1. Transtornos do Sono-Vigília. 2. Bexiga Urinaria Neurogênica. 3. Meningomielocele. 4. Qualidade de Vida. 5. Disrafismo Espinal. 6. Dissertação Acadêmica. I. Silva, Ana Cristina Simões e. II. Universidade Federal de Minas Gerais, Faculdade de Medicina. IV. Título.

NLM: WJ 500

Bibliotecário responsável: Fabian Rodrigo dos Santos CRB-6/2697



UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
FACULDADE DE MEDICINA - CENTRO DE PÓS-GRADUAÇÃO
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM CIÊNCIAS DA SAÚDE
SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE
ATA DE DEFESA DE DISSERTAÇÃO

Às quatorze horas do dia vinte e três de maio de dois mil e vinte e cinco, através de transmissão eletrônica de videoconferência, hospedada na Plataforma LifeSize, na página eletrônica: <https://call.lifesizecloud.com/downloads>, pela Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Minas Gerais, realizou-se a defesa de dissertação da aluna **ANA LUIZA CARVALHO DE BESSA**, número de registro 2023651250, graduada no curso de MEDICINA, como requisito parcial para obtenção do grau de Mestre em CIÊNCIAS DA SAÚDE - SAÚDE DA CRIANÇA E DO ADOLESCENTE, pelo Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde-Saúde da Criança e do Adolescente. A Presidência da sessão coube à Prof.^a Ana Cristina Simões e Silva - Orientadora (UFMG). Inicialmente a Presidente após dar conhecimento aos presentes sobre o teor das Normas Regulamentares do trabalho final de Pós-Graduação, fez a apresentação da Comissão Examinadora, assim, constituída pelos Professores Doutores: Ana Cristina Simões e Silva - Orientadora (UFMG), Antônio Euclides Pereira de Souza Junior (UNOESC) e José Maria Penido Silva (UFMG). Em seguida a Presidente autorizou a aluna a iniciar a apresentação de seu trabalho final intitulado **"AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA E DO SONO EM CRIANÇAS E ADOLESCENTES COM BEXIGA NEUROGÊNICA SECUNDÁRIA À ESPINHA BÍFIDA"**. Seguiu-se à arguição pela comissão Examinadora, com a respectiva defesa da aluna. Logo após a Comissão reuniu-se sem a presença da candidata e do público para julgamento e expedição do resultado da avaliação do trabalho final da aluna e considerou a dissertação **Aprovada**. O resultado final foi comunicado publicamente ao aluno pelo Presidente da Comissão. Nada mais havendo a tratar, o Presidente encerrou a sessão e lavrou a presente ata que, após lida, será assinada eletronicamente por todos os membros da Comissão Examinadora presente através do SEI (Sistema Eletrônico de Informações) do Governo Federal.

Belo Horizonte, 23 de maio de 2025.



Documento assinado eletronicamente por **Ana Cristina Simoes e Silva, Presidente**, em 26/05/2025, às 08:16, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no art. 5º do [Decreto nº 10.543, de 13 de novembro de 2020](#).



Documento assinado eletronicamente por **Jose Maria Penido Silva, Usuário Externo**, em 21/08/2025, às 10:37, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no art. 5º do [Decreto nº 10.543, de 13 de novembro de 2020](#).



Documento assinado eletronicamente por **Antonio Euclides Pereira de Souza Junior, Usuário Externo**, em 25/08/2025, às 14:52, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no art. 5º do [Decreto nº 10.543, de 13 de novembro de 2020](#).



A autenticidade deste documento pode ser conferida no site https://sei.ufmg.br/sei/controlador_externo.php?acao=documento_conferir&id_orgao_acesso_externo=0, informando o código verificador **4235046** e o código CRC **35D29491**.

Agradecimentos

Agradeço a Professora Ana Cristina Simões e Silva pelo trabalho de orientação que vai muito além desta tese, sendo desde os tempos de acadêmica sinônimo de exemplo e acolhimento.

Agradeço também as Professoras Flavia Mrad, Ana Elisa Fernandes e Mônica Vasconcelos por conceberem este estudo e pelas generosas críticas e sugestões durante toda sua confecção.

Agradeço ao meu pai, José de Bessa, por ser o meu maior incentivador e por tornar tudo isso possível. Naturalmente esse está longe de ser o único motivo para agradecer-lhe. A minha mãe Márcia e irmão Otávio, representando toda a extensão da nossa família, pelo amor e ambiente propício para aspirações como essa que me propus.

Enfim, teria sido impossível realizar este projeto sem a companhia intelectualmente estimulante e a disposição de segurar a barra dos meus amigos que, felizmente, são muito numerosos e mal caberiam numa página ainda que enumerasse apenas os bons.

Aos alunos Eduardo Pereira e Amanda Oliveira, pelo enorme empenho e competência durante a formulação deste trabalho.

Agradeço também toda equipe de Nefrologia Pediátrica do HC-UFMG pela construtiva convivência diária e enorme apoio durante todo o processo.

Aos pacientes e seus familiares que confiaram em nós a realização deste estudo e tornaram este trabalho possível.

RESUMO

Introdução: Crianças com mielomeningocele (MMC) tem maior prevalência de distúrbios do sono que a população infantil em geral. Especificamente de distúrbios respiratórios do sono. Entretanto, informações específicas sobre crianças com bexiga neurogênica (BN) e MMC na população brasileira eram desconhecidos, assim como fatores relacionados e seu possível impacto sobre a qualidade de vida desses pacientes. **Objetivos:** O objetivo principal foi determinar a prevalência de distúrbios do sono em crianças com BN secundária à MMC e avaliar sua associação com qualidade de vida, fatores clínicos e demográfico. O objetivo secundário foi realizar uma revisão sistemática para analisar a prevalência de distúrbios do sono em crianças com MMC. **Métodos:** Esse estudo transversal envolveu crianças de 8-17 anos seguidas em ambulatório multidisciplinar no Brasil, referência para seguimento de crianças com espinha bífida, entre Janeiro de 2023 e Agosto de 2024. Distúrbios do sono foram avaliados usando a versão traduzida e validada para o português da Escala de Distúrbios do Sono em Crianças (EDSC). A qualidade de vida foi avaliada pela versão brasileira do QUALAS-C e QUALAS-T. Dados clínicos e demográficos também foram coletados. A análise estatística incluiu teste de Mann-Whitney, teste exato de Fisher e regressão logística binária. **Resultados:** A amostra incluiu 117 pacientes, 62 (53%) meninas; a idade mediana foi de 11,9[9,3-14] anos. Sessenta e seis por cento da nossa população apresentou alguma alteração do sono. As alterações mais frequentes foram distúrbios respiratórios durante o sono (42,24%), hiperidrose do sono (10,34%) e sonolência diurna (1,72%). A comparação dos escores de qualidade de vida entre participantes com e sem distúrbios do sono não encontrou diferenças estatisticamente significativas. As medianas dos escores no domínio bexiga/intestino do QUALAS foram de 65 [IIQ: 50-90] para aqueles com distúrbios do sono e de 67,5 [IIQ: 50-93,75] para aqueles sem distúrbios do sono ($p = 0,465$). Da mesma forma, as medianas dos escores do domínio família/independência do QUALAS foram de 65 [IIQ: 40-83,75] nos casos de distúrbios do sono versus 67,5 [IIQ: 50-93,75] naqueles sem distúrbios do sono ($p = 0,09$). Avaliamos em um modelo de regressão logística a possível associação entre diversas variáveis, incluindo idade, sexo, IMC, mobilidade, nível de lesão, presença de hidrocefalia, realização de cateterismo intermitente e continência urinária e fecal com distúrbios do sono. Apenas a idade apresentou associação significativa após ajustes. (OR = 5.92; 95% CI: 2.52–12.83) **Conclusão:** Distúrbios do sono são altamente prevalentes entre crianças com MMC, particularmente entre as crianças mais jovens. O rastreamento de distúrbios do sono utilizando questionários validados deve fazer parte da rotina de cuidado destes pacientes. O reconhecimento precoce e manejo de tais distúrbios podem reduzir os impactos a longo prazo no neurodesenvolvimento e bem-estar desta população.

Palavras-chave: distúrbio do sono; mielomeningocele; bexiga neurogênica; espinha bífida; qualidade de vida.

ABSTRACT

Introduction: Children with myelomeningocele (MMC) have a higher prevalence of sleep disorders than the general pediatric population, particularly sleep-related breathing disorders. However, specific information about children with neurogenic bladder (NB) and MMC in the Brazilian population was previously unknown, as were related factors and their possible impact on the quality of life of these patients. **Objectives:** The primary objective was to determine the prevalence of sleep disorders in children with NB secondary to MMC and to evaluate its association with quality of life, clinical, and demographic factors. The secondary objective was to conduct a systematic review to analyze the prevalence of sleep disorders in children with MMC. **Methods:** This cross-sectional study involved children aged 8–17 years followed at a multidisciplinary outpatient clinic in Brazil, a reference center for the follow-up of children with spina bifida, between January 2023 and August 2024. Sleep disorders were assessed using the translated and validated Portuguese version of the Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC). Quality of life was assessed using the Brazilian versions of QUALAS-C and QUALAS-T. Clinical and demographic data were also collected. Statistical analysis included the Mann-Whitney test, Fisher’s exact test, and binary logistic regression. **Results:** The sample included 117 patients, 62 (53%) of whom were girls; the median age was 11.9 [9.3–14] years. Sixty-six percent of our population showed some form of sleep disturbance. The most frequent disturbances were sleep-related breathing disorders (42.24%), sleep hyperhidrosis (10.34%), and daytime sleepiness (1.72%). Comparison of quality of life scores between participants with and without sleep disorders revealed no statistically significant differences. The median bladder/bowel domain scores of the QUALAS were 65 [IQR: 50–90] for those with sleep disorders and 67.5 [IQR: 50–93.75] for those without ($p = 0.465$). Similarly, the median scores in the family/independence domain of the QUALAS were 65 [IQR: 40–83.75] in cases with sleep disorders vs. 67.5 [IQR: 50–93.75] in those without ($p = 0.09$). We evaluated a possible association between various variables—including age, sex, BMI, mobility, lesion level, presence of hydrocephalus, use of intermittent catheterization, and urinary and fecal continence—and sleep disorders using a logistic regression model. Only age showed a significant association after adjustments (OR = 5.92; 95% CI: 2.52–12.83). **Conclusion:** Sleep disorders are highly prevalent among children with MMC, particularly in younger children. Screening for sleep disorders using validated questionnaires should be part of the routine care for these patients. Early recognition and management of such disorders may reduce long-term impacts on the neurodevelopment and well-being of this population.

Keywords: sleep disorder; myelomeningocele; neurogenic bladder; spina bífida; quality of life.

LISTA DE FIGURAS

Artigo: **Sleep quality assessment among patients with myelomeningocele: a systematic review**

Figura 1: Diagrama de fluxo PRISMA resumindo o processo de seleção de estudos.....21
Figura 2: Florest plot da prevalência agrupada de DRS.....24

Artigo: **Sleep quality assessment among patients with myelomeningocele: a systematic review**

Figura 1A: Frequência de casos com distúrbios do sono de acordo com a idade em pacientes com mielomeningocele.....42
Figura 1B: Comparação entre os percentuais de distúrbios do sono em pacientes com menos de 13 anos e aqueles com idade entre 13 e 17 anos.....43

LISTA DE TABELAS

Artigo: **Sleep quality assessment among patients with myelomeningocele: a systematic review**

Tabela 1: Resumo dos estudos incluídos.....	22
Tabela 2: Avaliação do risco de viés utilizando a lista de verificação do JBI.....	25
Tabela 3: Resumo das descobertas segundo o GRADE.....	26

Artigo: **Sleep Disorders and Quality of Life in Children with Myelomeningocele : a cross-sectional study.**

Tabela 1: Descrição da Amostra.....	42
Tabela 2: Comparação dos diferentes domínios do QUALAS-C e QUALAS-T entre pacientes com e sem distúrbios do sono.....	43

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

BN: Bexiga neurogênica

CIL: Cateterismo intermitente limpo

DRS: Distúrbios respiratório relacionados ao sono

EDSC: Escala de Distúrbios do Sono em Crianças

EB: Espinha bífida

IMC: Índice de massa corpórea

MMC: Mielomeningocele

QUALAS-C: Quality of life Assessment in Spina Bifida for Children

QUALAS-T: Quality of life Assessment in Spina Bifida for Teenagers

QV: Qualidade de vida

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO	11
2 OBJETIVOS	16
2.1 Objetivo primário	16
2.2 Objetivos secundários.....	16
3 REVISÃO DA LITERATURA	17
3.1 Artigo de Revisão	17
4 MÉTODOS	35
4.1 Desenho do estudo.....	35
4.2.1 Critérios de Inclusão.....	35
4.2.2 Critérios de exclusão	35
4.3 Aspectos éticos	35
4.4 Instrumentos utilizados e protocolo de estudo	36
4.5 Análise estatística	36
5 RESULTADOS E DISCUSSÃO	38
5.1 Artigo Original	38
6 CONCLUSÕES	48
7 APÊNDICES	49
7.1 Apêndice A- PARECER DO COMITÊ DE ÉTICA EM PESQUISA (CEP)	49
7.2 Apêndice B – Termo de Consentimento Livre e Esclarecido	51
7.3 Apêndice C – Termo de Assentimento Livre e Esclarecido.....	55
8 ANEXOS	58
8.1 Anexo 1 – Parecer Departamento de Pediatria.....	58
8.2 Anexo 2 - Escala de Distúrbios do sono	59
8.2 Anexo 2- Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Children (QUALAS-C).....	61
8.3 Anexo 3 - Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Children (QUALAS-T).....	62

1 INTRODUÇÃO

A bexiga neurogênica (BN) em pediatria é definida como uma disfunção da bexiga resultante de condições neurológicas congênitas ou adquiridas que afetam a inervação do trato urinário inferior. A BN tem uma incidência variável, ocorrendo na proporção de 1 para cada 10.000 nascimentos no Alasca a 34 para cada 10.000 nascidos vivos no norte da China, estando presente em até 98% dos casos de espinha bífida. (1-5)

As crianças e adolescentes com BN podem apresentar padrões de dissinergia detrusor-esfincteriana e aumento da pressão intravesical, o que pode levar à incontinência urinária e/ou fecal, infecções do trato urinário, refluxo vesicoureteral e doença renal crônica, impactando negativamente na qualidade de vida de maneira distinta e variável. (1-3) Relata-se que até 60% a 80% dos neonatos com mielomeningocele (MMC) podem desenvolver problemas urológicos nos primeiros anos de vida, e menos de 5% se tornam continentes. (4,5)

O diagnóstico e o acompanhamento dos pacientes com bexiga neurogênica secundária à espinha bífida envolvem uma abordagem multidisciplinar. A MMC e suas complicações secundárias impõem danos físicos, psicológicos e encargos sociais tanto para o paciente quanto para sua família. (6,7) Os objetivos primários no manejo urológico/nefrológico ao longo da vida desses pacientes estão centrados na preservação da função renal como prioridade, aquisição de algum grau de continência urinária e/ou fecal e melhora da qualidade de vida (QV). (8)

Nos últimos anos, houve uma evolução no cuidado dos pacientes com MMC e BN, com melhora nos índices de sobrevida, preservação da função renal e redução das incapacidades. (9) Com o aumento da expectativa de vida e com a melhor compreensão dos cuidados, a melhoria da QV tornou-se uma preocupação crescente e central.

Além das questões já apontadas, pacientes com MMC apresentam maior risco de distúrbios respiratórios do sono (DRS), morte súbita inexplicável e possíveis alterações no cronotipo do sono. (10)

O sono exibe uma interação bidirecional com os sistemas nervoso, cardiovascular, respiratório, endócrino e imunológico. Sono e saúde estão bidirecionalmente associados, ou seja, os problemas do sono podem afetar a condição médica subjacente, da mesma forma que os sintomas relacionados à doença prévia podem contribuir para os distúrbios do sono. (11)

Alguns estudos descreveram distúrbios do sono em crianças e adolescentes com MMC. Anormalidades na medula espinhal, disfunções do tronco cerebral e da manutenção das vias

aéreas superiores estão entre os prováveis mecanismos. Discute-se ainda o papel adicional do cateterismo vesical, especialmente o cateterismo vesical noturno. (12–14)

Os distúrbios do sono são prevalentes na faixa etária pediátrica. Aproximadamente um terço das crianças e adolescentes neurotípicos e sem comorbidades importantes vão apresentar alguma alteração do sono durante a vida. Essa prevalência é ainda mais elevada entre crianças com comprometimento do neurodesenvolvimento. (15,16)

Distúrbios do sono têm impactos significativos no desenvolvimento físico, cognitivo, regulação emocional, atenção, comportamento e afetam diretamente a QV das crianças. (17)

A mais recente edição da Classificação Internacional dos Distúrbios do Sono (International Classification of Sleep Disorders - ICSD-3-TR) divide os distúrbios do sono em 7 categorias: insônia, distúrbios respiratórios relacionados ao sono, distúrbios centrais de hipersonolência, distúrbios do ritmo circadiano de sono e vigília, parassonias, distúrbios do movimento relacionados ao sono e outros distúrbios do sono. (18)

Dentre as diferentes categorias, uma das mais prevalentes é a do distúrbio respiratório relacionado ao sono (DRS), afetando cerca de 7% das crianças. (19,20) Em crianças com MMC, demonstraram uma prevalência ainda mais elevada, variando de 40-50% neste grupo. (21–23)

O DRS, quando diagnosticado e tratado rapidamente, previne distúrbios cognitivos e de desenvolvimento relacionados. (20,24,25) Assim, diante da elevada prevalência e potencial gravidade, já existe em alguns centros a recomendação protocolar de polissonografia para pacientes com MMC. (23) O padrão-ouro para o diagnóstico de DRS é, de fato, a polissonografia, mas a dificuldade de acesso e o elevado custo tornam essa prática pouco viável em nossa realidade. (26) Uma alternativa para avaliação clínica de distúrbios do sono são os questionários; a percepção dos padrões de sono das crianças já demonstrou ser um bom preditor de distúrbios do sono entre crianças. (27,28)

Embora esses aspectos pareçam importantes e emergentes na literatura, são pouco estudados e avaliados, particularmente em nosso meio. Assim, consideramos importante conhecer o padrão de sono desses pacientes e suas particularidades, e, para tal avaliação, aplicamos a Escala de Distúrbios do Sono em Crianças (EDSC), traduzida, adaptada e validada para a população brasileira. (27,28) Este instrumento é amplamente utilizado internacionalmente e é capaz de distinguir seis grupos de distúrbios do sono (os tipos mais comuns) entre crianças e adolescentes: distúrbios do início e manutenção do sono, distúrbio de

respiração do sono, distúrbios do despertar, distúrbios de transição sono-vigília, distúrbios de sonolência excessiva e hiperidrose do sono. (28)

Para investigar, de forma sistemática, a QV das crianças e adolescentes com bexiga neurogênica e traçar possível paralelo, utilizamos um questionário específico para a população, o Quality of Life Assessment in Spina Bifida (QUALAS). (29–31)

O questionário QUALAS é um instrumento curto e muito específico, que passou por adaptação transcultural e validação para a população brasileira, abordando a qualidade de vida, incluindo a questão da incontinência urinária e fecal. (32) Esse instrumento pode ser facilmente preenchido e disponibilizado para pacientes com espinha bífida com idade entre oito e 17 anos. (30,31) O QUALAS possui duas versões: uma infantil, "Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Children" (QUALAS-C) (31), e outra para os adolescentes, "Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Teenagers" (QUALAS-T). (30)

Com base no exposto, este estudo se propôs a analisar a prevalência de distúrbios do sono em pacientes com MMC seguidos em ambulatório especializado de bexiga neurogênica e traçar um paralelo com a QV. Fatores como idade, sexo, índice de massa corporal, nível de lesão funcional da espinha bífida, estado de deambulação, via de cateterismo, presença de shunt ventrículo e presença de continência foram abordados.

Referências

1. Brownrigg N, Lorenzo AJ, Rickard M, Dos Santos J. The urological evaluation and management of neurogenic bladder in children and adolescents—what every pediatric nephrologist needs to know. *Pediatric Nephrology*. 31 de fevereiro de 2024;39(2):409–21.
2. Stein R, Bogaert G, Dogan HS, Hoen L, Kocvara R, Nijman RJM, et al. EAU/ESPU guidelines on the management of neurogenic bladder in children and adolescent part I diagnostics and conservative treatment. *Neurourol Urodyn*. 13 de janeiro de 2020;39(1):45–57.
3. Tekin A, Tiryaki S, Altun Tanıl E, Ulman İ. Long-term Outcome of Infants with Spina Bifida Through Assessment of the Prognostic Value of Hostile Bladder Parameters. *The Journal of Pediatric Research*. 25 de maio de 2021;8(2):110–5.
4. HOPPS C V., KROPP KA. Preservation of Renal Function in Children With Myelomeningocele Managed With Basic Newborn Evaluation And Close Followup. *Journal of Urology*. janeiro de 2003;169(1):305–8.
5. McGuire EJ, Woodside JR, Borden TA. Upper Urinary Tract Deterioration in Patients With myelodysplasia and Detrusor Hypertonia: A Followup Study. *Journal of Urology*. abril de 1983;129(4):823–6.

6. Friedman D, Holmbeck GN, Jandasek B, Zukerman J, Abad M. Parent Functioning in Families of Preadolescents With Spina Bifida: Longitudinal Implications for Child Adjustment. *Journal of Family Psychology*. 2004;18(4):609–19.
7. Greenley RN, Holmbeck GN, zukerman J, Buck CF. Psychological Adjustment and Family Relationships in Children and Adolescents with Spina Bifida. Em: *Neural Tube Defects*. Oxford University Press New York, NY; 2005. p. 307–24.
8. Cardona-Grau D, Chiang G. Evaluation and Lifetime Management of the Urinary Tract in Patients with Myelomeningocele. *Urologic Clinics of North America*. agosto de 2017;44(3):391–401.
9. Bowman RM, Lee JY, Yang J, Kim KH, Wang KC. Myelomeningocele: the evolution of care over the last 50 years. *Child’s Nervous System*. 7 de outubro de 2023;39(10):2829–45.
10. Gunnett M, Rocque B, Nourani A, Beltran-Ale G. Impact of Spina Bifida on Sleep Quality: Current Insights. *Nat Sci Sleep*. novembro de 2023;Volume 15:967–78.
11. Lewandowski AS, Ward TM, Palermo TM. Sleep Problems in Children and Adolescents with Common Medical Conditions. *Pediatr Clin North Am*. junho de 2011;58(3):699–713.
12. VIAENE AM, ROGGEMAN S, VANHAUTE OA, RAES A, COLMAN R, EVERAERT K. Nocturnal bladder emptying and Quality of Life in patients with spinal cord injury. *Eur J Phys Rehabil Med*. junho de 2022;58(3).
13. Davidson Ward SL, Jacobs RA, Gates EP, Hart LD, Keens TG. Abnormal ventialatory patterns during sleep in infants with myelomeningocele. *J Pediatr*. outubro de 1986;109(4):631–4.
14. Kirk VG, Morielli A, Brouillette RT. Sleep-disordered breathing in patients with myelomeningocele: the missed diagnosis. *Dev Med Child Neurol*. janeiro de 1999;41(1):S0012162299000079.
15. Maski K, Owens JA. Insomnia, parasomnias, and narcolepsy in children: clinical features, diagnosis, and management. *Lancet Neurol*. outubro de 2016;15(11):1170–81.
16. Meltzer LJ, Johnson C, Crosette J, Ramos M, Mindell JA. Prevalence of diagnosed sleep disorders in pediatric primary care practices. *Pediatrics*. junho de 2010;125(6):e1410-8.
17. Ophoff D, Slaats MA, Boudewyns A, Glazemakers I, Van Hoorenbeeck K, Verhulst SL. Sleep disorders during childhood: a practical review. *Eur J Pediatr*. 3 de maio de 2018;177(5):641–8.
18. American Academy of Sleep Medicine. International classification of sleep disorders .
19. Archbold KH, Pituch KJ, Panahi P, Chervin RD. Symptoms of sleep disturbances among children at two general pediatric clinics. *J Pediatr*. janeiro de 2002;140(1):97–102.
20. Montgomery-Downs HE, O’Brien LM, Holbrook CR, Gozal D. Snoring and Sleep-Disordered Breathing in Young Children: Subjective and Objective Correlates. *Sleep*. fevereiro de 2004;27(1):87–94.
21. Eisenberg A, Hobart-Porter L, Jambhekar S, Ocal E, Stewart S, Thornton K, et al. Sleep related breathing disorders in the spina bifida population ages 1–20 years: A retrospective study in Arkansas. *J Pediatr Rehabil Med*. 29 de dezembro de 2022;15(4):581–6.
22. Lazzareschi I, Curatola A, Massimi L, Rendeli C, Rollo E, Scala I, et al. Sleep-disordered breathing in patients with Chiari malformation type II: a case-control study and review of the literature. *J Clin Sleep Med*. 1º de setembro de 2022;18(9):2143–54.
23. Rocque BG, Maddox MH, Hopson BD, Shamblin IC, Aban I, Arynchyna AA, et al. Prevalence of Sleep Disordered Breathing in Children With Myelomeningocele. *Neurosurgery*. abril de 2021;88(4):785–90.

24. Bixler EO, Vgontzas AN, Lin HM, Liao D, Calhoun S, Vela-Bueno A, et al. Sleep Disordered Breathing in Children in a General Population Sample: Prevalence and Risk Factors. *Sleep*. junho de 2009;32(6):731–6.
25. Li AM, Zhu Y, Au CT, Lee DLY, Ho C, Wing YK. Natural History of Primary Snoring in School-aged Children. *Chest*. março de 2013;143(3):729–35.
26. Singh J, Yeoh E, Castro C, Uy C, Waters K. Polysomnography in infants with clinical suspicion of sleep-related breathing disorders. *Journal of Clinical Sleep Medicine*. dezembro de 2022;18(12):2803–12.
27. Ferreira VR, Carvalho LBC, Ruotolo F, de Morais JF, Prado LBF, Prado GF. Sleep Disturbance Scale for Children: Translation, cultural adaptation, and validation. *Sleep Med*. abril de 2009;10(4):457–63.
28. BRUNI O, OTTAVIANO S, GUIDETTI V, ROMOLI M, INNOCENZI M, CORTESI F, et al. The Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) Construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. *J Sleep Res*. 23 de dezembro de 1996;5(4):251–61.
29. Sturm RM, Cheng EY. The Management of the Pediatric Neurogenic Bladder. *Curr Bladder Dysfunct Rep*. 2 de setembro de 2016;11(3):225–33.
30. Szymański KM, Misseri R, Whittam B, Casey JT, Yang DY, Raposo SM, et al. Validation of QUALAS-T, a health-related quality of life instrument for teenagers with spina bifida. *Cent European J Urol*. 2017;70(3):306–13.
31. Szymanski KM, Misseri R, Whittam B, Yang DY, Raposo SM, King SJ, et al. Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Children (QUALAS-C): Development and Validation of a Novel Health-related Quality of Life Instrument. *Urology*. janeiro de 2016;87:178–84.
32. Pompermaier J, Andrade MC de, Cruz ML da, Macedo Júnior A. TRANSLATION AND VALIDATION OF THE BRAZILIAN VERSION OF THE “QUALITY OF LIFE ASSESSMENT IN SPINA BIFIDA” QUESTIONNAIRE FOR CHILDREN AND TEENAGERS. *Revista Paulista de Pediatria*. 2021;39.

2 OBJETIVOS

2.1 Objetivo primário

Avaliar a prevalência de distúrbios do sono na população pediátrica com mielomeningocele em ambulatório de referência.

2.2 Objetivos secundários

Investigar a possível influência dos distúrbios do sono na qualidade de vida de crianças com bexiga neurogênica secundária à mielomeningocele, bem como analisar a associação entre a presença desses distúrbios e variáveis clínicas e demográficas, incluindo sexo, índice de massa corpórea (IMC), tipo de cateterismo utilizado, status de mobilidade, presença de shunt ventricular, nível de lesão funcional da espinha bífida, continência fecal (presente ou ausente) e continência urinária (presente ou ausente).

Realizar uma revisão sistemática da literatura sobre a qualidade de sono em pacientes com mielomeningocele.

3 REVISÃO DA LITERATURA

A revisão da literatura será apresentada como uma revisão sistemática e meta-análise de acordo com as diretrizes PRISMA. Foram realizadas buscas abrangentes em cinco bases de dados (MEDLINE, Embase, Cochrane Library, Scopus e Web of Science), desde a sua criação até 14 de abril de 2025. Foram incluídos estudos observacionais que relataram a prevalência de distúrbios respiratórios do sono (DRS) em indivíduos de 0 a 17 anos com mielomeningocele (MMC).

3.1 Artigo de Revisão

Title: Prevalence and Assessment Of Sleep Disordered Breathing Among Patients With Spina Bifida: A Systematic Review and Single-Arm Meta-Analysis

Ana Luiza Carvalho de Bessa¹, Eduardo Maia Martins Pereira², Stella Cardoso Galante², Ana Cristina Simões e Silva^{1,2*}

¹ Unit of Pediatric Nephrology, Hospital das Clínicas, Universidade Federal de Minas Gerais (UFMG), Brazil.

² Department of Pediatrics, Faculty of Medicine, UFMG, Brazil

*Corresponding author:

Ana Cristina Simões e Silva, MD, PhD.

Full Professor, Department of Pediatrics, Faculty of Medicine, UFMG.

Researcher level 1A of CNPq.

Alfredo Balena Avenue, 190, 2nd floor, room # 281, Belo Horizonte, MG, Brazil. Zip code: 30130-100.

Phone: +55-31-34098073

ABSTRACT

Background: Children with myelomeningocele (MMC) are at high risk of developing sleep-disordered breathing (SDB), including central and obstructive apneas, due to neurological and

anatomical abnormalities. However, the prevalence of SDB in this population remains poorly quantified and inconsistently reported. **Objectives:** To estimate the pooled prevalence of SDB in infants, children, and adolescents with MMC and to explore differences across diagnostic methods. **Methods:** We conducted a systematic review and meta-analysis following PRISMA guidelines. Five databases (MEDLINE, Embase, Cochrane Library, Scopus, Web of Science) were searched from inception to April 14, 2025. Observational studies reporting SDB prevalence in individuals aged 0–17 years with MMC were included. Data were pooled using a random-effects model with Freeman-Tukey transformation. Subgroup analyses and publication bias assessment were performed. Risk of bias was assessed using the JBI checklist. **Results:** Fourteen studies were included in the qualitative synthesis, and 11 (n = 852) in the meta-analysis. The pooled prevalence of SDB was 63.2% (95% CI: 51.1%–74.1%), with considerable heterogeneity ($I^2 = 98.4\%$). Prevalence varied by diagnostic method: PSG (58.9%), RPG (61.5%), PCG (78.2%), and actigraphy (27.3%). Publication bias was detected (Egger’s test, $p = 0.048$). The certainty of evidence was rated as moderate. **Conclusions:** SDB is highly prevalent in children with MMC and often underdiagnosed, especially in asymptomatic individuals. Prevalence estimates vary substantially by diagnostic modality. These findings support routine screening for SDB in MMC patients and highlight the need for standardized diagnostic criteria and age-specific protocols.

Keywords: Central sleep apnea, Myelomeningocele, Obstructive sleep apnea, Pediatric sleep apnea, Polysomnography, Sleep-disordered breathing, Spina bifida

Abbreviations

AG- actigraphy

AHI – apnea-hypopnea index

MMC- myelomeningocele

OSA- sleep apnea disorders

PCG- pneumocardiogram

PSG- polysomnography

PSQ- Pediatric Sleep Questionnaire

RPG- respiratory polygraphy

SDB- sleep-disordered breathing

1.INTRODUCTION

Spina Bifida (SB) is a congenital neural tube defect that results in the protrusion of the spinal cord and meninges through an opening in the vertebral column. This condition is often associated with a range of neurological and systemic complications, including lower limb paralysis, hydrocephalus, and bladder and bowel dysfunctions [1–3]. Studies indicate that the prevalence of sleep-disordered breathing (SDB) is high among children with SB compared to the general pediatric population [4, 5].

SDB is an umbrella term commonly used to describe various respiratory abnormalities during sleep. In simplified terms, it refers to interruptions in ventilation or airflow caused by either a loss of respiratory drive or an obstruction of the airways. These alterations result in micro-arousals and/or oxygen desaturations [6]. SDB is classified into obstructive sleep apnea disorders (OSA), central sleep apnea disorders, sleep-related hypoventilation syndromes, and sleep-related hypoxia disorders [7]. If left untreated, these conditions can negatively affect the child's cognitive, emotional, and behavioral development [8].

Early identification and proper management of sleep disorders in children with spina bifida are crucial to minimize negative impacts on development and to improve the quality of life of these patients [9]. The medical literature suggests that screening for SDB can be beneficial in this population due to the high prevalence of sleep apnea and other respiratory problems associated with MMC. However, there is no universally accepted screening protocol, whether through polysomnography (PSG) or specific questionnaires [10, 11].

PSG remains the gold standard for diagnosis, but its availability is limited, and clinical symptoms are often nonspecific or absent, especially in children with complex neurological impairment [12, 13]. As a result, prevalence estimates vary widely depending on diagnostic modality, age group, and inclusion criteria.

Given the lack of consolidated evidence and the potential impact of undiagnosed SDB on child development, this systematic review and meta-analysis aims to synthesize current data on the prevalence of SDB among pediatric patients with SB. Additionally, we explore

how prevalence estimates vary according to diagnostic methods and study characteristics, providing a comprehensive overview to inform clinical practice and future research.

2. MATERIALS AND METHODS

This study was conducted and reported following the Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-analyses (PRISMA) and the Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Intervention guidelines [14, 15]. The protocol was registered in the International Prospective Register of Systematic Reviews (PROSPERO; CRD420251011330).

2.1 ELIGIBILITY CRITERIA

We included original observational studies (cross-sectional, retrospective cohorts, or case series) meeting the following criteria: (1) including neonates, children, or adolescents aged 0–17 years with a confirmed diagnosis of spina bifida; (2) that underwent SDB assessment using objective methods such as PSG, respiratory polygraphy (RPG), pneumocardiogram (PCG), or actigraphy (AG); or (3) assessed the applicability of standardized questionnaires for SDB assessment within this population. Exclusion criteria were studies involving mixed populations (e.g., different comorbidities) unless spina bifida data were reported separately; case reports, editorials, reviews, conference abstracts, articles not published in English, study protocols, abstracts presented at conferences, and studies published in any language other than English.

2.2 OUTCOME DEFINITIONS

The primary outcome was to report the prevalence of SDB in pediatric patients with MMC. Secondary outcomes included: the prevalence of different SDB phenotypes (obstructive, central, or mixed); diagnostic modality-specific prevalence; and use and diagnostic performance of screening tools such as the Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ).

2.3 STUDY SELECTION AND DATA EXTRACTION

Eligible studies were systematically searched on MEDLINE, Embase, and Cochrane. The final search was performed on 30 April 2025, with no restrictions on country of origin or publication year. The full search strategy is available in the Supplementary Material. Two independent reviewers (EMMP and SCG) selected eligible studies based on the inclusion criteria and performed a cross-section. After duplicates removal, all results were pooled, followed by a screening according to title and abstracts. Finally, the remaining articles were read in full to verify eligibility. Disagreements were solved through a discussion with a third reviewer (ALCDB). Summary and data extraction from final studies included were based on the following characteristics: author, publication year, type of study, number of included patients and age range, diagnostic method, and questionnaire for SDB (if available), type/level of spina bifida, SDB definition, and overall SDB prevalence. We also read the references of included studies to assess eligibility ("backward snowballing"). A summary of findings table based on the above characteristics was built to better assess the qualitative results of this systematic review.

2.3 RISK OF BIAS AND CERTAINTY OF THE EVIDENCE

Two reviewers (EMMP and SCG) independently assessed the risk of bias with the Joanna Briggs Institute (JBI) Critical Appraisal Checklist for Studies Reporting Prevalence Data, which consists of 9 domains, such as the study sample, data analyses, and diagnostic methods [16]. Based on previous reviews and the design of included studies, we deemed the JBI as the most appropriate tool for this assessment, and the risk of bias was labeled as low (scores >70%), medium (scores 50-70%), and high (scores <50%) [17, 18]. We assessed the level of certainty of the evidence with the Grading of Recommendations Assessment, Development, and Evaluation (GRADE) system, which included five categories: risk of bias, inconsistency, indirectness, imprecision, and publication bias [19]. The overall analysis was classified as high, moderate, low, or very low. Disagreements were resolved through discussion among the remaining authors. The final figure was created with the GRADEpro software [20].

2.4 STATISTICAL ANALYSIS

In the meta-analysis of proportions (prevalence), the individual study weights and the pooled prevalence estimates were presented to estimate the overall proportion or rate of the binary outcome across all the studies included in the analysis. All proportions were multiplied by 100 and expressed as percentages for clarity of interpretation, with 95% confidence intervals (CI). Since the observed proportions were between 0.2 and 0.8 (i.e., the proportions follow a binomial distribution that is approximately symmetrical), we used the raw (untransformed) proportion ("PRAW"), as proposed by Lipsey and Wilson (2001) and Viechtbauer (2010) [21, 22], to accurately estimate the summary proportion and increase the validity of the associated statistical analyses. Due to anticipated heterogeneity between studies and definitions, we applied the random-effects model for the pooled analysis. Subgroup analyses were performed according to the type of SDB diagnostic method: PSG, PCG, RPG, and AG, with tests for subgroup differences. Using the DerSimonian-Laird method, we assessed heterogeneity based on the Cochran Q and I^2 statistics, categorised as low ($I^2=0\%-40\%$), moderate ($I^2=30\%-60\%$), substantial ($I^2=50\%-90\%$), or considerable ($I^2=75\%-100\%$), as per the Cochrane guidelines [15]. To assess inconsistencies among studies, we qualitatively and quantitatively investigated publication bias by funnel plot and Egger's linear regression test, respectively. Additionally, we performed a sensitivity analysis by omitting each individual study, also under a random-effects model. Statistical significance was set at $p<0.05$. All data analyses were performed with the R software (version 4.3.1) [23], with the following packages: 'meta', 'metafor', 'dmetar', and 'gridextra' [22, 24–26].

3. RESULTS

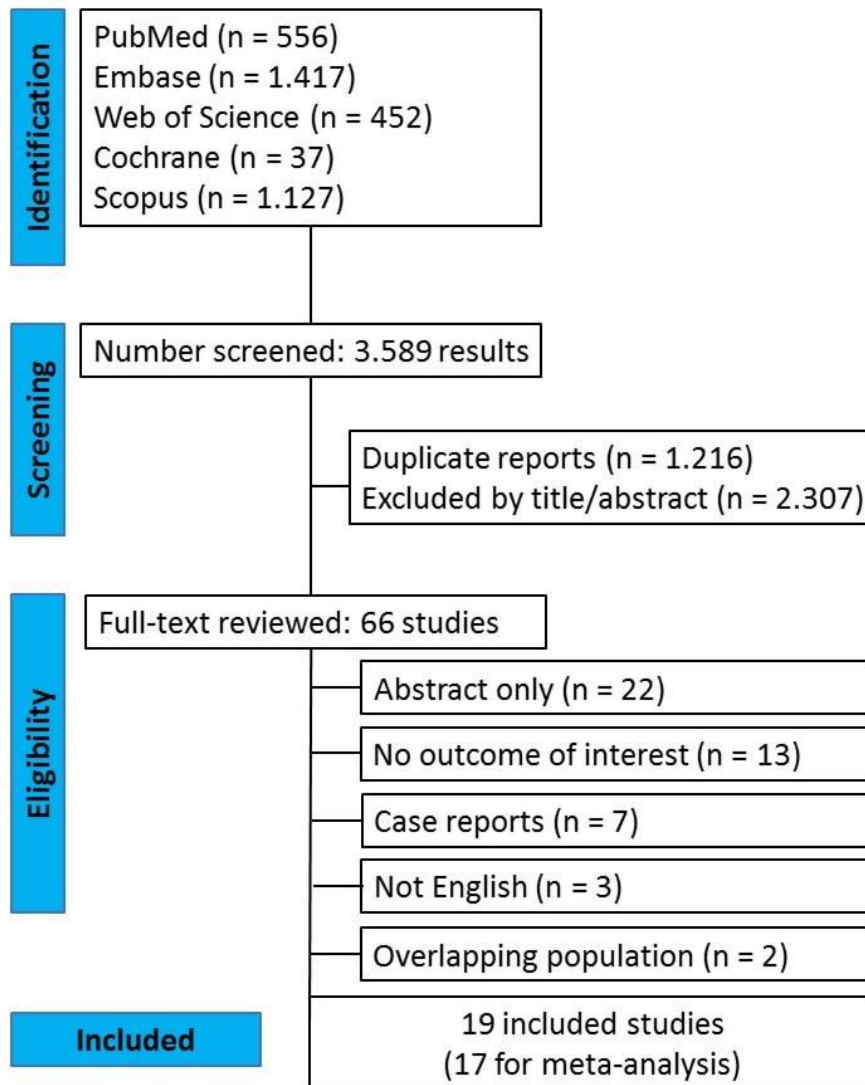
3.1 STUDY SELECTION AND CHARACTERISTICS

A total of 3.589 records were identified through database searches. After removing 1.216 duplicates and 2.307 articles by title and abstract screening, 66 studies underwent full-text review. Finally, 19 studies met the inclusion criteria; of these, 17 provided sufficient data to be included in the meta-analysis [4–6, 11, 13, 27–39].

The included studies were published between 1986 and 2024, spanning North America, Europe, and Asia. Sample sizes ranged from 8 to 13.349 participants, all diagnosed

with SB and aged between 0 and 21 years. Diagnostic methods for SDB varied, including PSG, RPG, PCG, and AG. Further details are provided in Table 1.

Figure 1- PRISMA flow diagram summarizing the study selection process.



The included studies were published between 1986 and 2024, spanning North America, Europe, and Asia. Sample sizes ranged from 8 to 13,349 participants, all diagnosed with SB and aged between 0 and 21 years. Diagnostic methods for SDB varied, including PSG, RPG, PCG, and AG. Further details are provided in Table 1.

Table 1. Summary of included studies.

Study (Author, Year)	Country	Design	Patients (N)	Age	Diagnostic Method	SDB Definition	SDB Prevalence (%)	JBI Risk of Bias
Ward, 1986 [27]	USA	Prospective, observational	18	9.6 ± 1.6 mo *	PCG	Central events	72%	Moderate
Gozal, 1995 [28]	USA	Case-control	10	8 - 20 yo §	PSG	Desaturation index	50%	Moderate
Waters, 1998 [29]	Canada	Cross-sectional	83	8.9 ± 5.6 yo *	PSG	AHI*>1/h	62.6%	Low
Kirk, 1999 [30]	Canada and USA	Cross-sectional	996	NA	PSG	AHI*>5/h	41.96%	Low
Alsaadi, 2012 [31]	Saudi Arabia	Prospective	16	0.8 - 10 yo §	PSG	AHI*>1/h	68%	Moderate
Losurdo, 2013 [13]	Italy	Cross-sectional	53	3 - 18 yo §	PSG	AHI*>1/h	24.5%	Low
Patel, 2015 [5]	USA	Retrospective	52	8.3 ± 0.9 yo *	PSG	AHI*>1/h	80.76%	Low
Murray, 2016 [32]	USA	Longitudinal	68	8 - 19 yo §	NA	Positive questionnaire	NA	Low
Shellhaas, 2018 [33]	USA	Matched cohort	20	6.2 ± 3.7 do *	PSG	AHI*>1/h	100%	Moderate
Murray, 2018 [34]	USA	Case-control	37	12 - 18 yo §	AG	Activity pattern + validated sleep questionnaires	56.75%	Low
Bendel-Stenzel, 2019 [35]	USA	Retrospective	106	NA	PCG	Oxygen saturation <90%	79%	Low
Rocque, 2021 [4]	USA	Cross-sectional	117	1 mo	PSG	Activity pattern + validated	41.88%	Low

				- 21 yo §		sleep question- naires		
Beltran Ale, 2021 [11]	USA	Retrospecti ve	149	1 - 21 yo §	PSG	Positive questio- nnaire	36%	Low
Lazzaresc hi, 2022 [6]	Italy	Case- control	20	11. 1 ± 7.8 yo *	PSG	AHI*>1/h	45%	Low
Eisenberg , 2022 [36]	USA	Retrospecti ve	76	1 - 20 yo §	PSG	AHI*>1/h	49%	Low
Wachsmu th, 2024 [37]	Switzerla nd	Retrospecti ve	48	11. 5 (8.0 , 18. 0) do ¶	RPG	AHI*>1/h	45.8%	Low
Stark, 2024 [38]	USA	Retrospecti ve	46	5.5 ± 0.7 wo *	PSG	AHI*>1/h	97.82%	Low
Vagianou, 2024 [39]	France	Case series	8	1.2 ± 0.8 yo *	PSG	AHI*>1/h	75%	Low

N, number; SDB, Sleep disordered breathing; JBI: Joanna Briggs Institute; *, mean ± SD; §, range; ¶, median (interquartile range); USA, United States of America; yo, years old; mo, months old; do, days old; PSG, polysomnography; RPG, respiratory polygraphy; PCG, pneumocardiogram; AG, actigraphy; NA, not available; AHI, apnea-hypopnea index

3.2 META-ANALYSIS OF PREVALENCE

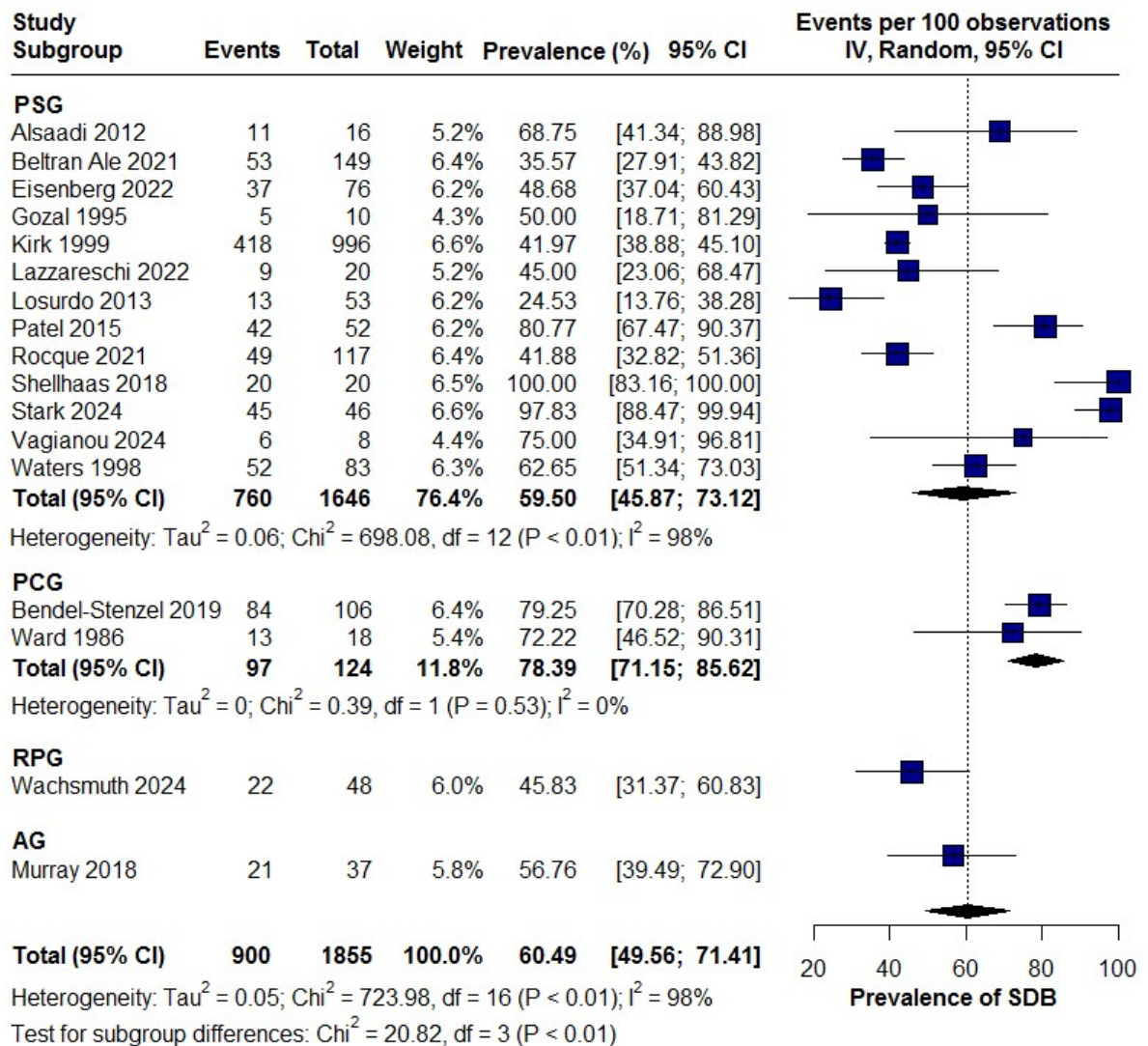
The pooled prevalence of SDB in children and adolescents with SB was 60.49% (95% CI 49.56–71.41), based on 17 studies with a total of 1855 participants. The overall estimate is depicted in Figure 2.

Subgroup analysis by diagnostic modality revealed significant variability in SDB prevalence. SDB varied depending on the diagnostic tool used. PSG identified SDB in about 59.5% of cases (95% CI 45.87–73.12), whereas AG showed a prevalence of 56.76% (95% CI 39.49–72.90). The highest prevalence was seen with PCG reaching 78.39% (95% CI 71.15–85.62). Conversely, RPG reported the lowest prevalence, at just 45.83% (95% CI 31.37–60.83),

despite including only one study.

The test for subgroup differences was statistically significant ($p = 0.02$), despite the PCG, RPG, and AG subgroups comprising less than 3 studies each, which precluded a more granular assessment of the results.

Figure 2. Forest plot of pooled SDB prevalence.



3.3 RISK OF BIAS, CERTAINTY OF THE EVIDENCE, AND HETEROGENEITY

Eisenberg et al. (2022)	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Low
Wachsmuth et al. (2024)	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Low
Stark et al. (2024)	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Low

Q1: Was the sample frame appropriate to address the target population? Q2: Were study participants sampled appropriately? Q3: Was the sample size adequate? Q4: Were the study subjects and the setting described in detail? Q5: Was the data analysis conducted with sufficient coverage of the identified sample? Q6: Were valid methods used for the identification of the condition? Q7: Was the condition measured in a standard, reliable way for all participants? Q8: Was there an appropriate statistical analysis? Q9: Was the response rate adequate, and if not, was the low response rate managed appropriately?

The certainty of evidence was evaluated using the GRADE framework. The overall rating for the primary outcome was moderate, with downgrades for inconsistency and publication bias. The summary of findings is shown in Supplementary Table 2.

The qualitative inspection of funnel plots showed symmetry between results, suggesting a low risk of publication bias (Figure 3). Accordingly, the Egger's regression test was not significant for publication bias ($p=0.7369$, Table 3). The sensitivity analysis indicated stability of the results, with variations within $\pm 4\%$ of the pooled estimate.

Table 3. GRADE Summary of Findings

Outcome	N° of Studies	Certainty	Risk of Bias	Inconsistency	Indirectness	Imprecision	Publication Bias	Summary of Findings
Prevalence of SDB in children with SB	17	⊕⊕⊕○ Moderate	Not serious	Serious	Not serious	Not serious	Serious	Prevalence Estimated 60.49% (95% CI 49.56–71.41)

GRADE: Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation;
SDB: Sleep disordered breathing; SB: Spina bifida; CI: Confidence Interval

4.DISCUSSION

The studies included in this systematic review consistently demonstrate a high prevalence of SDB in individuals with SB, from the neonatal period through adolescence. The interpretation of these findings is complicated by considerable heterogeneity of populations studied and the diagnostic methods employed. The available evidence suggests that SDB is a common, yet often under-recognized, comorbidity in this population, with important variations across developmental stages and clinical settings.

The age differences in the prevalence, type, and severity of SDB were notable. In neonates and infants, particularly those evaluated soon after birth or post-surgical repair, central apneas were predominant. Studies by Wachsmuth et al. and Shellhaas et al. found high rates of central apnea in neonates with SB using RPG and PSG, respectively [33, 37]. These events are attributed to brainstem dysregulation resulting from Chiari II malformation and hydrocephalus, both highly prevalent in SB.

In contrast, older children and adolescents exhibited a broader spectrum of SDB, including obstructive, central, and mixed patterns. Patel et al. reported that 81% of their pediatric SB cohort had SDB, with 31% classified as moderate to severe obstructive sleep apnea (OSA) [5]. Similarly, Rocque et al., using universal PSG screening, identified SDB in 42% of children regardless of symptom presentation [4].

Differences in diagnostic approaches across studies further hinder comparisons. Although PSG is the gold standard for SDB diagnosis, only a subset of studies implemented it systematically. Others, such as those by Ward et al. and Bendel-Stenzel et al., relied on PCG or overnight oximetry [27, 35]. Actigraphy has also been shown to be useful in assessing sleep patterns in home settings, especially in longitudinal and screening studies, although it is not indicated for the direct detection of respiratory events. While these methods are useful for screening, they lack the diagnostic precision of PSG, particularly in distinguishing between central and obstructive apneas.

Symptomatology of SDB can be easily confounded with other common comorbidities in patients with MMC, such as neurological dysfunction and musculoskeletal disorders. According to the literature, symptoms of obstructive sleep apnea, snoring, and witnessed apnea may be absent or less noticeable in the pediatric population [5, 11]. Studies relying on clinical referral for PSG (e.g., Patel et al., Alsaadi et al.) overestimate prevalence due to selection bias,

capturing primarily symptomatic or complex cases [5, 31]. In contrast, studies utilizing universal PSG screening (e.g., Rocque et al., Lazzareschi et al.) have demonstrated that a substantial proportion of patients with SDB are asymptomatic, reinforcing the limitations of symptom-based screening alone [4, 6].

There is also substantial heterogeneity about the definitions and thresholds used to classify SDB. While many studies used the apnea-hypopnea index (AHI) with thresholds of >1 or >5 events per hour [1, 11-15, 18, 20], others included measures such as oxygen desaturation or elevated CO_2 [16,17]. The absence of standardized criteria complicates cross-study comparisons and highlights the need for consensus guidelines tailored to neurologically complex populations like SB children.

Although intrauterine surgery to correct SB is associated with reversal of brainstem herniation, studies have not shown significant differences in the prevalence or severity of SDB between prenatal and postnatal repairs [28, 35, 37]. This suggests that in the pathophysiology of SDB, other aspects besides the anatomical aspects are involved, reinforcing the importance of continuous clinical monitoring of these patients, regardless of the timing and eventual success of the surgery.

Several studies also indicate that the presence of associated malformations, such as Chiari II malformation and hydrocephalus, significantly increases the risk of SDB in patients with SB [6]. These conditions are known to affect the brainstem and upper airway structures, which are critical for the neural modulation of breathing during sleep. Displacement or compression of brainstem respiratory centers and cranial nerves may lead to impaired respiratory drive, particularly during REM sleep when ventilatory control is more vulnerable to central dysfunction [6, 28, 31]. Accordingly, studies have found that children with more rostral neurological lesions (high thoracic and lumbar level) were more likely to develop SDB compared to those with sacral lesions [28].

The limited availability and high cost make PSG a routine application difficult in the population with SB, especially in those with greater vulnerability. Therefore, screening instruments, such as the Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ), have been explored and used both in research and clinical practice. Beltran Ale et al. validated the use of the PSQ in children with MMC, finding a sensitivity of 73.6% and specificity of 20.8% [11]. Eisenberg et al. (2022) found similar data about the concordance between the PSQ and PSG results [36]. Among 43

patients aged 1-20 years who completed both assessments, the PSQ showed a sensitivity of 60% and a specificity of only 42% when compared to PSG findings. These results underscore the limited utility of the PSQ as a standalone screening tool for sleep-disordered breathing in this population; such sensitivity allows its use as a diagnostic screening device, but the low specificity greatly limits its use alone as a diagnostic tool.

No other study has specifically assessed the accuracy of the PSQ in pediatric patients with SB; however, another questionnaire has been employed to evaluate sleep disturbances in this population. The Child Behavior Checklist (CBCL), a widely validated tool for assessing behavioral and emotional problems in children and adolescents. Using the CBCL, Murray et al. conducted a 10-year longitudinal study comparing adolescents with spina bifida (SB) to typically developing peers and found that sleep disturbances were significantly more prevalent and persistent in the SB group, particularly during early adolescence. The CBCL provided a composite sleep score, but it was not validated against objective measures such as polysomnography (PSG), and no other study has applied this instrument to assess sleep disturbances in children with spina bifida [32].

The data evaluation revealed that common interventions are insufficient or inappropriate. Kirk et al. reported that adenotonsillectomy, often effective in typical pediatric OSA, was ineffective in SB, whereas noninvasive ventilation (NIV) and supplemental oxygen were more successful [30]. These findings emphasize the need for individualized, multidisciplinary approaches to SDB management in SB.

The prevalence of SDB is high among SB children, despite variations and considerable heterogeneity of the populations and methodologies. As this condition exposes children to health and neurodevelopment impacts, studies with more robust designs are needed to evaluate this group. Standardized screening guidelines, age-specific diagnostic criteria, and further longitudinal research are essential to improve early detection and targeted treatment strategies in this vulnerable population.

5.CONCLUSION

In conclusion, this review highlights the considerable heterogeneity in both populations and methodologies in studies assessing SDB in SB. Despite variations, the prevalence of SDB

is consistently high. Central apnea predominates in neonates and infants, while mixed and obstructive types become more prominent in older children and adolescents. PSG remains the diagnostic gold standard, with symptom-based and questionnaire-based approaches proving insufficient until the moment. Standardized screening guidelines, age-specific diagnostic criteria, and further longitudinal research are essential to improve early detection and targeted treatment strategies in this population.

6. REFERENCES

1. Pedroso MA, Gomes FC, Faraj De Lima FB, Batistuta de Mesquita F, Costa BS, Dellaretti M. Intrauterine Correction of Fetal Myelomeningocele Through Minihysterotomy. *World Neurosurg.* 2024; 182: 69.
2. Smith GM, Krynska B. Myelomeningocele: How we can improve the assessment of the most severe form of spina bifida. *Brain Res.* 2015; 1619: 84–90.
3. Belfatmi N, Motawei AS, Rezkallah A, Benarous ND, Ahmed AH, Ghozy S, et al. Double Lumbar Localization of Myelomeningocele: Case Report. *Pediatr Neurosurg.* 2023; 58: 97–104.
4. Rocque BG, Maddox MH, Hopson BD, Shamblin IC, Aban I, Arynchyna AA, et al. Prevalence of Sleep Disordered Breathing in Children With Myelomeningocele. *Neurosurgery.* 2021; 88: 785–90.
5. Patel DM, Rocque BG, Hopson B, Arynchyna A, Bishop ER, Lozano D, et al. Sleep-disordered breathing in patients with myelomeningocele. *J Neurosurg Pediatr.* 2015; 16: 30–5.
6. Lazzareschi I, Curatola A, Massimi L, Rendeli C, Rollo E, Scala I, et al. Sleep-disordered breathing in patients with Chiari malformation type II: a case-control study and review of the literature. *Journal of Clinical Sleep Medicine.* 2022; 18: 2143–54.
7. Sateia MJ. *International Classification of Sleep Disorders-Third Edition.* Chest. 2014; 146: 1387–94.
8. Foldvary-Schaefer N. Obstructive sleep apnea: A wake-up call for better outcomes. *Cleve Clin J Med.* 2019; 86: 1..
9. Stewart A, Rau S, Shellhaas RA, Woodward J, Hopson B, Arynchyna-Smith A, et al. Treatment of sleep-disordered breathing among children with myelomeningocele. *J Neurosurg Pediatr.* 2024; 1–5.
10. Nandalike K, Hobart-Porter LJ. Sleep-related breathing disorders in children with spina bifida. *J Pediatr Rehabil Med.* 2024; 17: 414–19.
11. Beltran Ale G, Pascoe J, George A, Woodward J, Hossain MM, Huang G, et al. Validation of pediatric sleep questionnaire in children with Chiari malformation and/or spina bifida with or without myelomeningocele. *Sleep Med.* 2021; 84: 93–7.
12. Gunnnett M, Rocque BG, Nourani A, Beltran-Ale G. Impact of Spina Bifida on Sleep Quality: Current Insights. *Nat Sci Sleep.* 2023; 15: 967–78.
13. Losurdo A, Dittoni S, Testani E, et al. Sleep-disordered breathing in children and adolescents with Chiari I malformation. *J Clin Sleep Med.* 2013; 9: 371–7.

14. Moher D, Liberati A, Tetzlaff J, Altman DG; PRISMA Group. Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: the PRISMA statement. *J Clin Epidemiol* 2009; 62: 1006–12.
15. Cumpston M, Li T, Page MJ, et al. Updated guidance for trusted systematic reviews: a new edition of the Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions. *Cochrane Database Syst Rev* 2019; 10: ED000142.
16. Munn Z, Stone JC, Aromataris E, et al. Assessing the risk of bias of quantitative analytical studies: introducing the vision for critical appraisal within JBI systematic reviews. *JBI Evid Synth.* 2023; 21: 467–71.
17. Borges Migliavaca C, Stein C, Colpani V, et al. How are systematic reviews of prevalence conducted? A methodological study. *BMC Med Res Methodol.* 2020; 20: 96.
18. George PP, DeCastro Molina JA, Heng BH. The methodological quality of systematic reviews comparing intravitreal bevacizumab and alternates for neovascular age related macular degeneration: A systematic review of reviews. *Indian J Ophthalmol.* 2014; 62: 761–7.
19. Atkins D, Best D, Briss PA, et al. Grading quality of evidence and strength of recommendations. *BMJ* 2004; 328: 1490.
20. GRADEpro GDT: GRADEpro Guideline Development Tool [Software]. McMaster University and Evidence Prime; 2022. Available from: grade.pro [accessed 1 January 2024].
21. Wilson DB, Lipsey MW. The role of method in treatment effectiveness research: evidence from meta-analysis. *Psychol Methods.* 2001; 6: 413-429.
22. Viechtbauer W. Conducting Meta-Analyses in R with the metafor Package. *J Stat Softw* 2010; 36: 1–48.
23. R Core Team. R: A language and environment for statistical computing. R Foundation for Statistical Computing; 2022.
24. Schwarzer G. meta: Meta-Analysis with R. 2015 R package version 4.1-0 Available from: <http://CRAN.R-project.org/package=meta>
25. Harrer M, Cuijpers P, Furukawa T, Ebert D. dmetar: Companion R Package For The Guide 'Doing Meta-Analysis in R'. R package version 0.1.0. 2019. Available from: <http://dmetar.protectlab.org/>.
26. Balduzzi S, Rucker G, Schwarzer G. How to perform a meta-analysis with R: a practical tutorial. *Evid Based Ment Health.* 2019;22(4):153-160. doi:10.1136/ebmental-2019-300117
27. Ward SL, Jacobs RA, Gates EP, Hart LD, Keens TG. Abnormal ventilatory patterns during sleep in infants with myelomeningocele. *J Pediatr.* 1986; 109: 631-4.
28. Gozal D, Arens R, Omlin KJ, Jacobs RA, Keens TG. Peripheral chemoreceptor function in children with myelomeningocele and Arnold-Chiari malformation type 2. *Chest.* 1995; 108: 425-31.
29. Waters KA, Forbes P, Morielli A, et al. Sleep-disordered breathing in children with myelomeningocele. *J Pediatr.* 1998; 132: 672-81.
30. Kirk VG, Morielli A, Brouillette RT. Sleep-disordered breathing in patients with myelomeningocele: the missed diagnosis. *Dev Med Child Neurol.* 1999;41(1):40-43.
31. Alsaadi MM, Iqbal SM, Elgamal EA, Gozal D. Sleep-disordered breathing in children with Chiari malformation type II and myelomeningocele. *Pediatr Int.* 2012; 54:623-6

32. Murray CB, Kirsch AC, Palermo TM, et al. Developmental Course and Determinants of Sleep Disturbances in Adolescents With Spina Bifida. *J Pediatr Psychol.* 2016; 41: 631-42.
33. Shellhaas RA, Kenia PV, Hassan F, Barks JDE, Kaciroti N, Chervin RD. Sleep-Disordered Breathing among Newborns with Myelomeningocele. *J Pediatr.* 2018; 194: 244-247.
34. Murray CB, Palermo TM, Holmbeck GN. A Multimethod, Case-Controlled Study of Sleep-Wake Disturbances in Adolescents With Spina Bifida. *J Pediatr Psychol.* 2018;43(6):601-612.
35. Bendel-Stenzel E, Linabery AM, Jorgenson A, Ferrara TB, Spaulding AB. Sleep-disordered breathing: an under-recognized problem in infants with myelomeningocele defects regardless of timing of repair. *J Perinatol.* 2019; 39: 1411-6.
36. Eisenberg A, Hobart-Porter L, Jambhekar S, et al. Sleep related breathing disorders in the spina bifida population ages 1-20 years: A retrospective study in Arkansas. *J Pediatr Rehabil Med.* 2022; 15: 581-6.
37. Wachsmuth L, Bieli C, Grehten P, et al. Sleep-disordered breathing on respiratory polygraphy in neonates with spina bifida. *Pediatr Pulmonol.* 2024; 59: 2829-38.
38. Stark KG, Wang RY, Smith KA, et al. Sleep-related breathing disorders in infants with spina bifida repaired prenatally and postnatally. *J Clin Sleep Med.* 2024; 20: 1579-83.
39. Vagianou F, Khirani S, de Saint Denis T, et al. The utility of poly(somno)graphy in evaluating children with Chiari malformation type II before and after surgical intervention: a case series. *Br J Neurosurg.* 2024; 38: 125-7.

4 MÉTODOS

4.1 Desenho do Estudo: Trata-se de um estudo transversal, observacional, no qual foram consecutivamente avaliados pacientes com idade entre 8 e 17 anos, com diagnóstico de bexiga neurogênica secundária à espinha bífida, acompanhados regularmente no Ambulatório de Disfunção do Trato Urinário Inferior de nossa instituição.

4.2 Critérios de inclusão e de exclusão

4.2.1 Critérios de Inclusão:

Foram incluídos nesse estudo crianças e adolescentes com idade entre 8 e 17 anos diagnosticados com bexiga neurogênica secundária à espinha bífida acompanhados regularmente no Ambulatório de Disfunção do Trato Urinário Inferior de nossa instituição, que aceitaram participar do estudo mediante entendimento e assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE, vide Apêndice B) por parte dos responsáveis legais e do Termo de Assentimento Livre e Esclarecido (TALE, vide Apêndice C) para os adolescentes.

4.2.2 Critérios de exclusão:

Crianças com diagnóstico de bexiga neurogênica secundária à síndrome de regressão caudal ou lesões traumáticas ou neoplásicas da coluna vertebral ou paralisia cerebral ou malformações anorretais.

4.3 Aspectos éticos

O projeto de pesquisa foi aprovado pela Câmara do Departamento de Pediatria em 12 de junho de 2021 (ANEXO 1) e pelo Comitê de Ética em Pesquisa (COEP) da Universidade Federal de Minas Gerais (CAAE-50565021.5.0000.5149) em 11 de setembro de 2021, conforme o parecer número 4.964.668 (Apêndice A). A emenda para a aprovação da aplicação da Escala de Distúrbios do Sono para Crianças (EDSC) foi aprovada conforme o parecer número 5.381.643, em 02 de maio de 2022. Precedendo a avaliação, os pacientes e seus responsáveis legais receberam todos os esclarecimentos sobre o estudo, sendo realizada leitura e entendimento do TCLE (Apêndice B) e do TALE (Apêndice C). Ao concordarem em participar, os responsáveis legais assinaram o TCLE e os escolares e adolescentes assinaram o TALE. O protocolo do estudo não interferiu com a abordagem dos pacientes. A recusa em participar do estudo não acarretou em mudanças na assistência e abordagem dos pacientes.

4.4 Instrumentos utilizados e protocolo do estudo

O questionário escolhido para avaliação do sono foi a Escala de Distúrbios do Sono em Crianças (EDSC) traduzida, adaptada e validada para a população brasileira. Trata-se de um instrumento de 26 itens para avaliar o sono em crianças e adolescentes de 3 a 18 anos. O instrumento diferencia entre condições como distúrbios de iniciar e manter o sono, distúrbios respiratórios do sono, distúrbios de despertar, distúrbios da transição sono-vigília, sonolência excessiva e hiperidrose do sono (ANEXO 2).

O instrumento utilizado para avaliar a qualidade de vida dos pacientes foi a versão brasileira do QUALAS-C e do QUALAS-T, denominada questionário estruturado “Avaliação da Qualidade de Vida em Espinha Bífida em suas versões para crianças de 8 a 12 anos (QUALAS-C) e para adolescentes de 13 a 17 anos (QUALAS-T)” traduzido, adaptado e validado por Pompermaier e colaboradores em 2020.

O questionário QUALAS, tanto na sua versão para crianças de 8 a 12 anos como na outra para adolescentes de 13 a 17 anos, inclui 10 questões divididas em dois domínios, com cinco questões cada. Os domínios para a crianças de 8 a 12 anos abrange autoestima e independência e incontinência urinária e fecal (ANEXO 3) e para os adolescentes de 13 a 17 anos família e independência e incontinência urinária e fecal (ANEXO 4). Cada uma das questões tem de cinco a seis alternativas dispostas em escala *likert*. O escore total de cada domínio varia de 0 a 100, sendo, quanto maior o escore, melhor a QV das crianças e adolescentes (ANEXOS 3 e 4, respectivamente)

A entrevista assistida com aplicação do questionário aos pacientes foi realizada em local privado (consultório médico) pelos próprios pesquisadores.

As variáveis clínicas e demográficas coletadas foram idade, sexo, índice de massa corporal, nível de lesão funcional da espinha bífida, estado de deambulação, via de cateterismo, presença ou não de shunt ventrículo e presença ou não de continência.

4.5 Análise estatística de dados

As variáveis quantitativas, contínuas ou ordinais serão descritas por medidas de tendência central (médias ou medianas) e as respectivas medidas de dispersão (desvios-padrões

ou intervalo interquartil). As variáveis qualitativas ou categóricas por seus valores absolutos ou proporções.

Na comparação das variáveis contínuas, empregamos o teste t de Student e o teste de Mann-Whitney e na comparação dos dados categóricos, o teste do qui-quadrado e suas variantes.

Odds Ratio (OR) ou Razão de Prevalencia (RP) foi empregada como medida de magnitude da associação entre variáveis categóricas e Intervalos de confiança de 95% como medidas de precisão dos resultados.

Testes de Pearson ou Spearman utilizados na avaliação das possíveis correlações entre variáveis contínuas.

Modelos de regressão logística empregados para avaliar o efeito do padrão de sono na qualidade de vida após ajustes para os principais fatores de confusão.

Valores de p inferiores a 0,05 ($p < 0,05$) foram considerados estatisticamente significativos.

Para a análise estatística, foram utilizados os programas computacionais (GraphPad Prism, versão 9.0.4, GraphPad Software, San Diego-CA, USA) e MedCalc® Statistical Software version 20.027 (MedCalc Software Ltd, Ostend, Belgium)

5 RESULTADOS E DISCUSSÃO

Os resultados e a discussão serão apresentados sob forma de artigo original

5.1 Artigo Original

Sleep Disorders and Quality of Life in Children with Myelomeningocele: a cross-sectional study.

Ana Luiza Carvalho de Bessa,¹

Eleonora Moreira Lima,¹

Ana Elisa Ribeiro Fernandes,¹

Amanda Lima Alves Pereira,¹

Mônica Maria de Almeida Vasconcelos,¹

Flávia Cristina de Carvalho Mrad,¹

Ana Cristina Simões e Silva¹

1.Universidade Federal de Minas Gerais (UFMG), Faculty of Medicine- Pediatrics Department, Pediatric Nephrology Unit- Hospital das Clínicas

Sleep Disorders and Quality of Life in Children with Myelomeningocele: a cross-sectional study.

Abstract

Background:

Children with myelomeningocele (MMC) are at increased risk of sleep disturbances, particularly sleep-disordered breathing (SDB), due to neurological and anatomical abnormalities. These disorders may affect physical development, cognitive performance, and emotional regulation, but are still poorly recognized.

Objective:

The purpose of this study is to determine the prevalence of sleep disorders (SD) in children and adolescents with MMC, and to evaluate their associations with quality of life, clinical and demographic factors.

Methods:

This cross-sectional study included children aged 8 to 17 years followed in a multidisciplinary outpatient service specialized in neurogenic bladder between January 2023 and August 2024. Sleep disorders were assessed through the Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC), and quality of life was evaluated by the Brazilian versions of QUALAS-C and QUALAS-T. Statistical analysis included the Mann–Whitney U test, Fisher’s exact test, Spearman’s correlation, and binary logistic regression.

Results:

One hundred seventeen patients were included (53% female; median age 11.3 years). Sleep disturbances were identified in 65.8% of participants, with SDB being the most common (41.9%), followed by sleep hyperhidrosis (10.3%) and disorders of initiating and maintaining sleep (6%). Logistic regression revealed that younger age was significantly associated with sleep disorder (OR = 0.76; 95% CI: 0.63–0.90; $p < 0.001$), and children under 13 years were nearly six times more likely to exhibit SD (OR = 5.92; 95% CI: 2.52–12.83). No significant association was found between sleep disturbances and quality of life scores.

Conclusion:

Sleep disorder is highly prevalent in pediatric patients with MMC, particularly in younger children. Screening for sleep disorders using validated questionnaires should be part of routine clinical care. Early recognition and management may reduce the long-term impact on development and well-being.

Abbreviations

IMC- body mass index

MMC- myelomeningocele

QoL- quality of life (QoL)

QUALAS-C- Quality of life assessment in spina bifida for children

QUALAS-T- Quality of life assessment in spina bifida for teenagers

SBD- sleep-disordered breathing

SD- sleep disorders

SDSC- Sleep Disturbance Scale for Children

Introduction

Myelomeningocele (MMC) is a severe congenital malformation of the neural tube, with an annual incidence of approximately 8 to 10 cases per 10,000 live births in North America (1). MMC is considered the most severe form of spina bifida. Despite advances in care leading to increased survival, about 75% of affected children reach early adulthood (2). Individuals with MMC experience significant physical, psychological, and social burdens (3).

Neurological and medical complications inherent to MMC increase the risk of sleep-related breathing disorders (SBD), sudden unexplained death, and changes in sleep chronotype (4). These outcomes are likely driven by abnormalities in the spinal cord, brainstem dysfunction, and compromised upper airway maintenance (5, 6). Additionally, nocturnal bladder catheterization may further contribute to sleep disruption (7).

In this context, the prevalence of SDB in children with MMC ranges from 40% to 50% (8–10), markedly higher than the 7% observed in the general pediatric population (11, 12). These sleep disorders can negatively affect physical growth, cognitive development, emotional regulation, attention, and behavior, ultimately impairing quality of life (13). However, when identified and treated early, their consequences can be mitigated (11, 14, 15).

Polysomnography is the gold standard for sleep disorder diagnosis, but its limited availability and high cost hinder its use in many clinical settings (16). In contrast, validated screening instruments, such as the Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC), offer a practical and reliable alternative, with satisfactory predictive accuracy for pediatric sleep disorders (17, 18).

Despite the clinical relevance, research on sleep disorders in children with MMC remains limited. Therefore, this study aimed to determine the prevalence of sleep disorders through a screening questionnaire applied to children and adolescents followed in a multidisciplinary outpatient service specialized in neurogenic bladder in Brazil. Additionally, we sought to evaluate the associations of sleep disorders with quality of life, clinical, and demographic variables.

Patients and Methods

Study design:

This is a cross-sectional study conducted between January 2023 and August 2024.

Inclusion and exclusion criteria:

All children and adolescents with MMC aged 8 to 17 years followed in our service from January 2023 until August 2024 were invited to participate in the study, regardless of clinical symptoms.

Patients with neurogenic bladder secondary to caudal regression syndrome, traumatic or neoplastic spinal injuries, cerebral palsy, or anorectal malformations were excluded.

Ethical aspects:

The study was approved by our institution's Research Ethics Committee under the protocol CAAE-50565021.5.0000.5149 (amendment number 5.381.643) and conducted according to the principles of the Declaration of Helsinki. Parents or legal guardians of all children and adolescents signed a written informed consent document. Confidentiality and anonymity were maintained throughout the study.

Study protocol:

Participants and their parents or legal guardians completed the Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC), which was originally developed by Bruni et al. in 1996 (17) and translated, culturally adapted, and validated for the Brazilian population in 2009 (18). SDSC has a sensitivity of 0.89 and a specificity of 0.74 and is designed to detect general sleep problems over the past six months. The instrument includes 26 items that assess six domains: disorders of initiating and maintaining sleep, sleep-breathing disorders, disorders of arousal, sleep-wake transition disorders, excessive somnolence, and sleep hyperhidrosis. These domains encompass the most common types of sleep disturbances in pediatrics (17, 18).

To assess quality of life (QoL), we used QUALAS-C for children aged 8–12 years and QUALAS-T for adolescents aged 13–17 years. Both instruments were translated to Brazilian Portuguese, culturally adapted, and validated in 2021 (19). QUALAS-C and QUALAS-T have 10 questions each to assess the QoL in children and adolescents with spina bifida. These questions are about two domains: family/independence (FI) and bowel/bladder continence (BB). Each domain consists of five questions, with total scores ranging from 0 to 100, in which higher scores indicate better quality of life (19).

Demographic and clinical data were also collected. Demographic variables included sex, age, and body mass index (BMI). Clinical variables related to the spina bifida condition included: (1) spina bifida functional lesion level, (2) presence or not of a ventricular shunt, (3) community ambulation status, (4) fecal continence (present or absent), and (5) urinary continence (present or absent).

Statistical analysis:

Data were summarized using absolute values, frequencies, and medians with interquartile ranges (IQR). The Mann-Whitney test was used to compare continuous variables, and Fisher's exact or chi-square test was used for categorical comparisons. Odds ratios and 95% confidence intervals (CI) were used to describe the magnitude of association between categorical variables. A binary logistic regression analysis was performed to explore further associations between sleep disorders and demographic or clinical factors. All tests were 2-sided, and a p -value < 0.05 was considered statistically significant. The analysis used the

commercially available statistical software GraphPad Prism, version 9.03 for Windows (San Diego, California, USA).

While preparing this manuscript, the authors used ChatGPT (OpenAI, GPT-4) to assist with language refinement and editorial clarity. The AI tool was not involved in the generation or analysis of data. All scientific content, interpretation, and conclusions are the authors' sole responsibility.

Results

A total of 117 patients with MMC were included in the analysis, comprising 55 males (47%) and 62 females (53%). The median age was 11.3 years [interquartile range (IQR): 9.3–13.4]. Detailed demographic and clinical characteristics are presented in Table 1. According to the SDSC, 65.8% of participants ($n = 77$) exhibited at least one sleep disturbance. The most frequent reported domain of sleep disorder was sleep-disordered breathing (SDB) that occur in 41.9% of patients. The other domains were less common and included sleep hyperhidrosis in 10.3%, disorders of initiating and maintaining sleep in 6.0%, and excessive somnolence in 1.7%. Arousal disorders and sleep–wake transition disturbances were not reported.

The comparison of QoL scores between participants with and without sleep disorders and between children and adolescents did not find statistically significant differences. Median scores in the BB-domain of QUALAS were 65 [IQR: 50–90] for those with sleep disturbances and 67.5 [IQR: 50–93.75] for those without ($p = 0.465$). Similarly, median scores of the FI domain of QUALAS were 65 [IQR: 40–83.75] in cases of sleep disorders versus 67.5 [IQR: 50–93.75] in those without ($p = 0.09$). We found no difference when we compared the different domains and children and adolescents. (Table 2)

In the binary logistic regression analysis, age emerged as the only variable significantly associated with sleep disorder. Specifically, each additional year of age was associated with a 24% reduction in the odds of sleep disorder (odds ratio [OR] = 0.76; 95% confidence interval [CI]: 0.63–0.90; $p < 0.001$). When categorized, children under 13 years had significantly higher odds of sleep disorder than older participants (OR = 5.92; 95% CI: 2.52–12.83) (Figure 1A and 1B). No other demographic or clinical variables—including sex, BMI, presence or not of ventricular shunt, lesion level, ambulation ability present or compromised, use or not of intermittent catheterization, or presence or not of urinary and fecal continence—were significantly associated with sleep disorder in this sample.

Discussion

This cross-sectional study identified a high prevalence of sleep disturbances in children and adolescents with MMC followed in a multidisciplinary outpatient service. According to the SDSC, 65.8% of participants exhibited at least one type of sleep disorder, being SDB the most common (41.9%). Logistic regression analysis identified younger age as the only variable significantly associated with sleep disorder. Quality of life, as measured by the QUALAS instruments, was not significantly associated with sleep disturbances.

These findings are consistent with previous studies reporting elevated rates of SDB in individuals with MMC (8–10). The predominance of SDB in this population is thought to result

from neurological and anatomical factors, including Chiari malformation type II, brainstem compression, and reduced respiratory muscle strength (24–26). Although international literature has also suggested an association between sleep-disordered breathing (SDB) and ventricular shunt status or lesion level in spina bifida, children with more rostral lesion levels tend to be more severely affected by the brain abnormalities that are commonly present—though variable in severity—in those with myelomeningocele (MMC) (27, 28), no such associations were observed in our sample. This discrepancy may reflect differences in sample characteristics, lesion severity, or referral patterns. In our sample, most lesions were located at the lumbosacral level (60.7%), followed by the sacral level (18.8%). Only a small proportion of cases presented with thoracolumbar or thoracic lesions. Unclassified cases accounted for 15.4% of the sample. Additionally, we found that only 55 children (47%) had a ventricular shunt, which contrasts with the findings of Rocque et al. (27), who reported that over 90% of their population had a ventricular shunt and only 51% had sacral or lumbosacral level lesions.

Our study also observed that younger children were nearly six times more likely to present with sleep disorder than adolescents. This age-related trend aligns with previous findings that central apnea and periodic breathing are more prevalent in infancy and early childhood, regardless of the timing of surgical repair (29, 30). These data underscore the need for early screening and intervention during the most vulnerable developmental stages.

Despite the high prevalence of sleep disturbances, we found no significant difference in quality-of-life scores between children with and without sleep disorders. One possible explanation is that the QUALAS instruments emphasize functional independence and continence, which may not be directly associated with sleep-related impairments. Alternatively, sleep disturbances may be so common in patients with MMC that they are underreported or even considered normal characteristics by patients and caregivers.

These findings have important clinical implications. Routine screening for sleep disorders, particularly SDB, should be incorporated into the care of children with MMC, especially those under 13 years of age. Early identification and management of sleep problems may improve neurocognitive outcomes, emotional regulation, and daily functioning (31).

This study has several limitations. First, its cross-sectional design precludes causal inference between sleep disturbances and associated factors. Second, using a questionnaire-based assessment, though validated, cannot replace objective diagnostic tools such as polysomnography. Third, QoL was assessed using instruments that may not adequately reflect sleep-related impairments, limiting our ability to establish a relationship between sleep quality and perceived well-being. Finally, the study was conducted at a single specialized clinic, which may limit the generalizability of the findings to broader MMC populations, including those with less access to multidisciplinary care.

Conclusions

Sleep quality is significantly impaired in children and adolescents with myelomeningocele, with sleep-disordered breathing (SDB) emerging as the most frequent and clinically relevant disturbance. In our cohort, 41.9% of participants exhibited SDB, and younger age was strongly associated with increased risk of sleep disorder in general. These findings highlight the need for systematic screening of sleep disorders in this population, especially among children under 13 years of age.

Although sleep disturbances were not directly associated with reduced quality of life scores in this study, early identification and management of sleep disorders may still

substantially benefit physical, cognitive, and emotional development. Screening tools such as the SDSC can serve as accessible and cost-effective strategies in contexts where polysomnography is unavailable.

Future studies should include longitudinal designs and incorporate objective sleep assessments to understand better the long-term impact of sleep disorders on health outcomes in individuals with spina bifida.

Table 1- Sample description

	NUMBER (%) OR MEDIAN [IQR]*
FEMALE GENDER	62 (53%)
FECAL CONTINENCE	55 (45%)
URINARY CONTINENCE	33 (28%)
INTERMITTENT CATHETERIZATION	86 (74%)
AUTONOMOUS LOCOMOTION	75 (64%)
VENTRICULAR SHUNT	55 (47%)
AGE > 13 YEARS	70 (60%)
BMI*	17.6 [15.5-19.9]
SACRAL LEVEL	21 (18,8%)
LUMBOSACRAL LEVEL	71 (60,7%)
THORACOLUMBAR /THORACIC LEVEL	6 (5,1%)
QUALAS -BB DOMAIN *	65.0 [50.0-90.0]
QUALAS -FI DOMAIN*	65.0 [40.0-83.8]

BMI, body mass index; QUALAS-BB, Brazilian version of the quality of life assessment in spina bifida for children/teenagers bowel/bladder domain; QUALAS-FI, Brazilian version of the quality of life assessment in spina bifida for children/teenagers family/independence domain

Figure 1 A – Frequency of cases with sleep disorder according to age in patients with myelomeningocele.

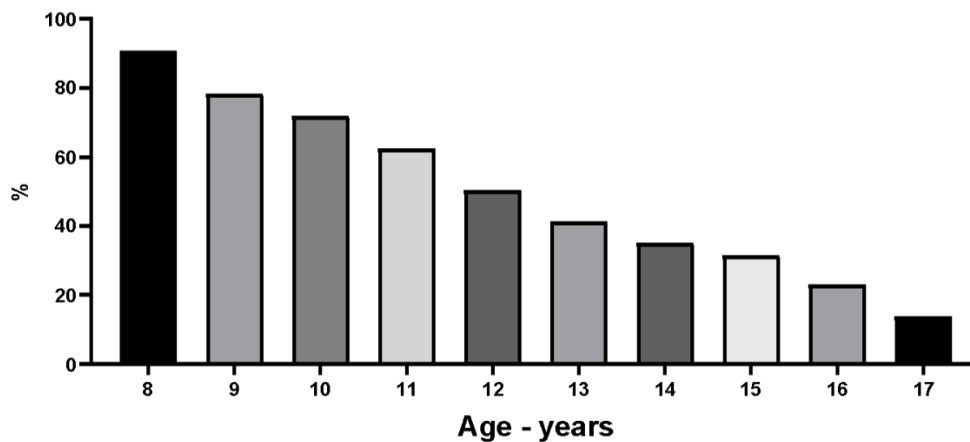


Figure 1 B – Comparison between the percentages of sleep disorder in patients with less than 13 years and those with 13 to 17 years.

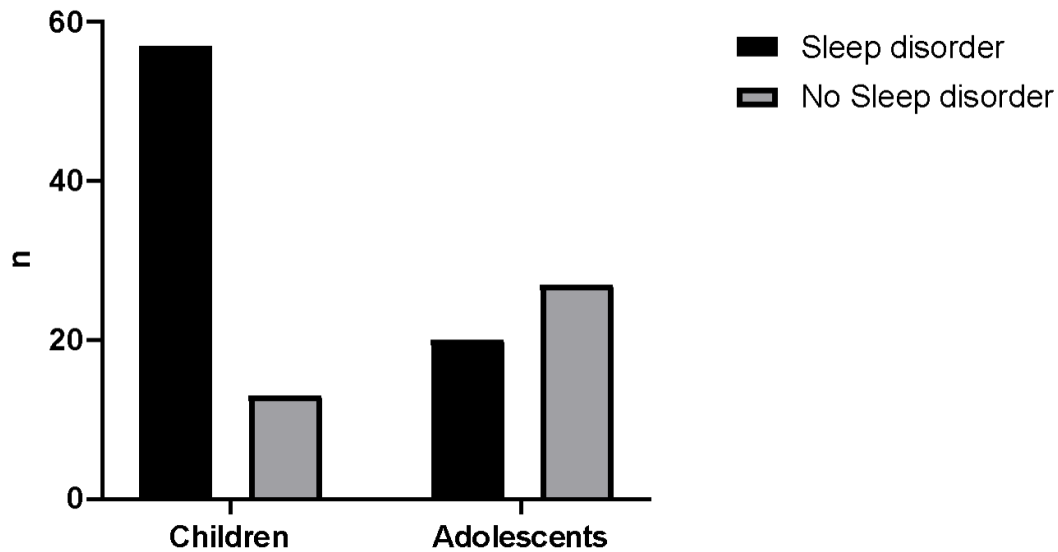


Table 2- Comparison between the different domains of QUALAS-C and QUALAS-T in patients with and without sleep disorders.

	SLEEP DISORDER	NO SLEEP DISORDER	P-VALUE
CHILDREN			
BB DOMAIN*	65.00[35.00-90.00]	65.00[42.50-80.00]	0.981
FI DOMAIN*	65.00[41.25-80.00]	80.00[52.50-95.00]	0.117
ADOLESCENT			
BB DOMAIN*	67.50[51.25-88.75]	77.50[55.00-95.00]	0.589
FI DOMAIN*	60.00[45.00-75.00]	57.50[30.00-78.75]	0.549

BB domains – bladder and bowel domain; FI – family and independence domain

References

1. Rocque BG, Hopson BD, Blount JP. Caring for the Child with Spina Bifida. *Pediatr Clin North Am.* 2021 Aug;68(4):915–27.
2. Bowman RM, McLone DG, Grant JA, Tomita T, Ito JA. Spina Bifida Outcome: A 25-Year Prospective. *Pediatr Neurosurg.* 2001;34(3):114–20.
3. Friedman D, Holmbeck GN, Jandasek B, Zukerman J, Abad M. Parent Functioning in Families of Preadolescents With Spina Bifida: Longitudinal Implications for Child Adjustment. *Journal of Family Psychology.* 2004;18(4):609–19.
4. Gunnnett M, Rocque B, Nourani A, Beltran-Ale G. Impact of Spina Bifida on Sleep Quality: Current Insights. *Nat Sci Sleep.* 2023 Nov;Volume 15:967–78.

5. Kirk VG, Morielli A, Brouillette RT. Sleep-disordered breathing in patients with myelomeningocele: the missed diagnosis. *Dev Med Child Neurol.* 1999 Jan;41(1):S0012162299000079.
6. Davidson Ward SL, Jacobs RA, Gates EP, Hart LD, Keens TG. Abnormal ventilatory patterns during sleep in infants with myelomeningocele. *J Pediatr.* 1986 Oct;109(4):631–4.
7. VIAENE AM, ROGGEMAN S, VANHAUTE OA, RAES A, COLMAN R, EVERAERT K. Nocturnal bladder emptying and Quality of Life in patients with spinal cord injury. *Eur J Phys Rehabil Med.* 2022 Jun;58(3).
8. Lazzareschi I, Curatola A, Massimi L, Rendeli C, Rollo E, Scala I, et al. Sleep-disordered breathing in patients with Chiari malformation type II: a case-control study and review of the literature. *Journal of Clinical Sleep Medicine.* 2022 Sep;18(9):2143–54.
9. Lazzareschi I, Curatola A, Massimi L, Rendeli C, Rollo E, Scala I, et al. Sleep-disordered breathing in patients with Chiari malformation type II: a case-control study and review of the literature. *Journal of Clinical Sleep Medicine.* 2022 Sep;18(9):2143–54.
10. Eisenberg A, Hobart-Porter L, Jambhekar S, Ocal E, Stewart S, Thornton K, et al. Sleep related breathing disorders in the spina bifida population ages 1–20 years: A retrospective study in Arkansas. *J Pediatr Rehabil Med.* 2022 Dec 29;15(4):581–6.
11. Montgomery-Downs HE, O'Brien LM, Holbrook CR, Gozal D. Snoring and Sleep-Disordered Breathing in Young Children: Subjective and Objective Correlates. *Sleep.* 2004 Feb;27(1):87–94.
12. Archbold KH, Pituch KJ, Panahi P, Chervin RD. Symptoms of sleep disturbances among children at two general pediatric clinics. *J Pediatr.* 2002 Jan;140(1):97–102.
13. Ophoff D, Slaats MA, Boudewyns A, Glazemakers I, Van Hoorenbeeck K, Verhulst SL. Sleep disorders during childhood: a practical review. *Eur J Pediatr.* 2018 May 3;177(5):641–8.
14. Ophoff D, Slaats MA, Boudewyns A, Glazemakers I, Van Hoorenbeeck K, Verhulst SL. Sleep disorders during childhood: a practical review. *Eur J Pediatr.* 2018 May 3;177(5):641–8.
15. Bixler EO, Vgontzas AN, Lin HM, Liao D, Calhoun S, Vela-Bueno A, et al. Sleep Disordered Breathing in Children in a General Population Sample: Prevalence and Risk Factors. *Sleep.* 2009 Jun;32(6):731–6.
16. Singh J, Yeoh E, Castro C, Uy C, Waters K. Polysomnography in infants with clinical suspicion of sleep-related breathing disorders. *Journal of Clinical Sleep Medicine.* 2022 Dec;18(12):2803–12.
17. BRUNI O, OTTAVIANO S, GUIDETTI V, ROMOLI M, INNOCENZI M, CORTESI F, et al. The Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) Construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. *J Sleep Res.* 1996 Dec 23;5(4):251–61.
18. Ferreira VR, Carvalho LBC, Ruotolo F, de Moraes JF, Prado LBF, Prado GF. Sleep Disturbance Scale for Children: Translation, cultural adaptation, and validation. *Sleep Med.* 2009 Apr;10(4):457–63.
19. Pompermaier J, Andrade MC de, Cruz ML da, Macedo Júnior A. TRANSLATION AND VALIDATION OF THE BRAZILIAN VERSION OF THE “QUALITY OF LIFE ASSESSMENT IN SPINA BIFIDA” QUESTIONNAIRE FOR CHILDREN AND TEENAGERS. *Revista Paulista de Pediatria.* 2021;39.

20. Pagerols M, Bosch R, Prat R, Pagespetit È, Cilveti R, Chaparro N, et al. The Sleep Disturbance Scale for Children: psychometric properties and prevalence of sleep disorders in Spanish children aged 6–16 years. *J Sleep Res.* 2023 Aug 13;32(4).
21. Huang MM, Qian Z, Wang J, Vaughn MG, Lee YL, Dong GH. Validation of the Sleep Disturbance Scale for Children and prevalence of parent-reported sleep disorder symptoms in Chinese children. *Sleep Med.* 2014 Aug;15(8):923–8.
22. So HK, Li AM, Au CT, Zhang J, Lau J, Fok TF, et al. Night sweats in children: prevalence and associated factors. *Arch Dis Child.* 2012 May;97(5):470–3.
23. Fricke-Oerkermann L, Plück J, Schredl M, Heinz K, Mitschke A, Wiater A, et al. Prevalence and Course of Sleep Problems in Childhood. *Sleep.* 2007 Oct;30(10):1371–7.
24. Alsaadi MM, Iqbal SM, Elgamal EA, Gozal D. Sleep-disordered breathing in children with Chiari malformation type II and myelomeningocele. *Pediatrics International.* 2012 Oct 19;54(5):623–6.
25. Waters KA, Forbes P, Morielli A, Hum C, O’Gorman AM, Vernet O, et al. Sleep-disordered breathing in children with myelomeningocele. *J Pediatr.* 1998 Apr;132(4):672–81.
26. Ronchi CF, Antunes LC de O, Fioretto JR. Respiratory Muscular Strength Decrease in Children With Myelomeningocele. *Spine (Phila Pa 1976).* 2008 Feb;33(3):E73–5.
27. Rocque BG, Maddox MH, Hopson BD, Shamblin IC, Aban I, Arynchyna AA, et al. Prevalence of Sleep Disordered Breathing in Children With Myelomeningocele. *Neurosurgery.* 2021 Apr;88(4):785–90.
28. Patel DM, Rocque BG, Hopson B, Arynchyna A, Bishop ER, Lozano D, et al. Sleep-disordered breathing in patients with myelomeningocele. *J Neurosurg Pediatr.* 2015 Jul;16(1):30–5.
29. Bendel-Stenzel E, Linabery AM, Jorgenson A, Ferrara TB, Spaulding AB. Sleep-disordered breathing: an under-recognized problem in infants with myelomeningocele defects regardless of timing of repair. *Journal of Perinatology.* 2019 Oct 18;39(10):1411–6.
30. Shellhaas RA, Kenia P V., Hassan F, Barks JDE, Kaciroti N, Chervin RD. Sleep-Disordered Breathing among Newborns with Myelomeningocele. *J Pediatr.* 2018 Mar;194:244-247.e1.
31. Menzies B, Teng A, Burns M, Lah S. Neurocognitive outcomes of children with sleep disordered breathing: A systematic review with meta-analysis. *Sleep Med Rev.* 2022 Ju

6 CONCLUSÕES

A importância de estudar os distúrbios do sono em pacientes com MMC é multifacetada e está bem documentada na literatura médica. Pacientes com MMC frequentemente apresentam distúrbios respiratórios durante o sono, como apneia obstrutiva e apneia central, devido a anomalias neurológicas associadas, como a malformação de Chiari tipo II e hidrocefalia. Esses distúrbios podem ter implicações significativas na saúde geral e no desenvolvimento neurocognitivo desses pacientes.

O estudo dos distúrbios do sono em pacientes com MMC oferece várias perspectivas futuras promissoras, conforme evidenciado pela literatura médica atual e corroborado pelo nosso estudo. A elevada prevalência desses distúrbios sugere a necessidade de triagem rotineira para distúrbios respiratórios do sono nesta população, o que pode levar a intervenções precoces e, potencialmente, melhorar os resultados a longo prazo.

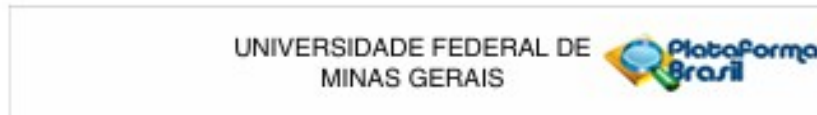
A realização de polissonografia de forma rotineira em pacientes com MMC já está indicada em alguns centros devido à importância das avaliações precoces para facilitar o tratamento. Estudos mostram que tratamentos padrão, como oxigenoterapia suplementar e pressão positiva contínua nas vias aéreas, podem melhorar os parâmetros de polissonografia. No entanto, o impacto a longo prazo desses distúrbios no desenvolvimento neurocognitivo ainda não é totalmente compreendido, o que sugere uma área importante para futuras investigações.

Em resumo, o futuro do estudo dos distúrbios do sono em pacientes com MMC envolve a implementação de triagens sistemáticas, a avaliação do impacto a longo prazo dos distúrbios respiratórios ligados ao sono no desenvolvimento, a otimização das estratégias de tratamento e a investigação das interações entre intervenções neurocirúrgicas e a qualidade do sono.

O serviço de nefrologia pediátrica do Hospital das Clínicas da UFMG é e continua sendo referência para o nascimento e seguimento de pacientes com MMC. Atualmente, a realidade da polissonografia de rotina ainda é distante. No entanto, comprometemo-nos a registrar os dados dos nossos pacientes após a autorização de seus familiares, com o intuito de apresentar uma casuística maior, seguir nossos pacientes por mais tempo, ampliar nossas capacidades diagnósticas e terapêuticas e, assim, abordar de forma mais eficiente as possíveis complicações.

7 APÊNDICES

7.1 Apêndice A- PARECER DO COMITÊ DE ÉTICA EM PESQUISA (CEP)



PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

DADOS DO PROJETO DE PESQUISA

Título da Pesquisa: Avaliação da qualidade de vida em crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária à espinha bífida.

Pesquisador: Flávia Cristina de Carvalho Mrad

Área Temática:

Versão: 1

CAAE: 50566021.5.0000.5149

Instituição Proponente: UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 4.964.668

Apresentação do Projeto:

A espinha bífida é a principal causa de bexiga neurogênica em criança e adolescentes. Esta corresponde às anormalidades no enchimento e/ou esvaziamento da bexiga de etiologia neurológica. Na infância e na adolescência a bexiga neurogênica secundária à espinha bífida constitui a anomalia congênita mais comum do sistema nervoso central, com uma incidência de 1 a 6 casos para cada 1000 nascidos vivos. Os objetivos primários no manejo ao longo da vida de pacientes com bexiga neurogênica secundária a espinha bífida estão centrados na preservação renal como prioridade, alcance de algum grau de continência e otimização da qualidade de vida (QV). Portanto, é importante a aplicação de um questionário específico e validado no Brasil para as crianças e adolescentes com bexiga neurogênica com espinha bífida que inclua aspectos relevantes, como a influência da incontinência urinária e fecal na QV com objetivo de melhorar o plano de cuidado desses pacientes.

Com este estudo, a versão Brasileira do QUALAS-C7e do QUALAS-T8 denominada "Avaliação da Qualidade de Vida em Espinha Bífida em suas versões para crianças de 8 a 12 anos (QUALAS-C) e para adolescentes de 13 a 17 anos (QUALAS-T)" será testado pela primeira vez.

Será desenvolvido um estudo transversal observacional, no qual serão entrevistados 81 pacientes com idade entre 8 e 17 anos, com diagnóstico de bexiga neurogênica secundária a espinha bífida que são acompanhados regularmente no Ambulatório de Distúrbio do Trato Urinário Inferior localizado no Ambulatório São Vicente do Hospital das Clínicas da UFMG.

Endereço: Av. Presidente Antonio Carlos, 6627 - 2º. Andar - Sala 2005 - Campus Pampulha
Bairro: Unidade Administrativa II **CEP:** 31.270-901
UF: MG **Município:** BELO HORIZONTE
Telefone: (31)3409-4592 **E-mail:** cosp@prpq.ufmg.br

UNIVERSIDADE FEDERAL DE
MINAS GERAIS



Continuação do Parecer: 4.884.688

Investigador	Projeto_ANEXOÁ.pdf	16/07/2021 11:47:14	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito
Outros	PARECERGEP.pdf	16/07/2021 11:29:54	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito
Declaração de Instituição e Infraestrutura	Infraestrutura.pdf	16/07/2021 11:21:48	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito
TCLE / Termos de Assentimento / Justificativa de Ausência	Termo_de_Consentimento.pdf	16/07/2021 11:08:51	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito
TCLE / Termos de Assentimento / Justificativa de Ausência	Termo_assentimento.pdf	16/07/2021 11:08:42	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito
Projeto Detalhado / Brochura Investigador	Projeto_detalhado.docx	16/07/2021 11:04:23	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito
Folha de Rosto	Folha_de_Rosto.pdf	16/07/2021 10:59:59	Flavia Cristina de Carvalho Mad	Aceito

Situação do Parecer:

Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:

Não

BELO HORIZONTE, 11 de Setembro de 2021

Assinado por:

Crissia Carem Paiva Fontainha
(Coordenador(a))

Endereço: Av. Presidente Antonio Carlos, 6627 2º Andar Sala 2005 Campus Pampulha
Bairro: Unidade Administrativa II CEP: 31.270-901
UF: MG Município: BELO HORIZONTE
Telefone: (31)3409-4592 E-mail: coep@prpq.ufmg.br

7.2 Apêndice B – Termo de Consentimento Livre e Esclarecido

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

O Sr. (a) está sendo convidado (a) como voluntário (a) a participar da pesquisa “Avaliação da qualidade de vida e do sono de crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária à espinha bífida.”

Neste estudo, pretendemos avaliar a qualidade de vida do seu (a) filho (a) através da aplicação de um questionário elaborado para crianças e adolescentes com bexiga neurogênica devido à espinha bífida. Usaremos também um questionário para compreender melhor o sono do seu (a) filho (a). Buscaremos assim um melhor entendimento de como seu (a) filho (a) faz as suas atividades de vida diária e como eles se sentem em relação a elas, incluindo os cuidados com a bexiga e a coluna. Assim, diante desse conhecimento poderemos elaborar um plano de cuidado interdisciplinar melhor, buscando a melhoria na qualidade de vida do seu filho (a).

Como riscos da pesquisa, reconhecemos a possibilidade de constrangimento, estresse, e cansaço durante a aplicação dele. Como medidas de prevenção faremos a aplicação dos questionários em local privado, com agendamento prévio para ocorrer pouca espera e asseguramos a interrupção imediata caso seja identificado qualquer situação que impossibilite a continuação da entrevista.

Para participar deste estudo o Sr. (a) não terá nenhum custo e nem receberá qualquer vantagem financeira. Apesar disso, caso sejam identificados e comprovados danos provenientes desta pesquisa, o Sr.(a) tem assegurado o direito à indenização. O Sr. (a) terá o esclarecimento sobre o estudo em qualquer aspecto que desejar e estará livre para participar ou recusar-se a participar e a qualquer tempo e sem quaisquer prejuízos, valendo a desistência a partir da data de formalização desta. A sua participação é voluntária, e a recusa em participar não acarretará qualquer penalidade ou modificação na forma em que o Sr. (a) é atendido (a) pelo pesquisador, que tratará a sua identidade com padrões profissionais de sigilo. Os resultados obtidos pela pesquisa estarão à sua disposição quando finalizada. Seu nome ou qualquer outro item que indique sua participação não serão liberados sem a sua permissão. O (A) Sr. (a) não será identificado (a) em nenhuma publicação que possa resultar.

Este termo de consentimento encontra-se impresso em duas vias originais, sendo que uma será arquivada pelo pesquisador responsável no **Hospital das Clínicas da Universidade Federal de Minas Gerais** e a outra será fornecida ao Sr. (a). Os dados e instrumentos utilizados na pesquisa ficarão arquivados com o pesquisador responsável por um período de 5 (cinco) anos na sala 267 da Faculdade Medicina da UFMG e após esse tempo serão armazenados na nuvem. Os pesquisadores trataram a sua identidade com padrões profissionais de sigilo, atendendo a legislação brasileira (Resolução Nº 466/12; 441/11 e a Portaria 2.201 do Conselho Nacional de Saúde e suas complementares), utilizando as informações somente para fins acadêmicos e científicos.

Eu, _____, portador do documento de Identidade _____ fui informado (a) dos objetivos, métodos, riscos e benefícios da pesquisa **“Avaliação da qualidade de vida em crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária espinha bífida.”** de maneira clara e detalhada e esclareci minhas dúvidas. Sei que a qualquer momento poderei solicitar novas informações e modificar minha decisão de participar se assim o desejar.

Rubrica do pesquisador: _____

Rubrica do participante: _____

Declaro que concordo em participar desta pesquisa. Recebi uma via original deste termo de consentimento livre e esclarecido assinado por mim e pelo pesquisador, que me deu a oportunidade de ler e esclarecer todas as minhas dúvidas.

Nome completo do responsável legal pelo participante

Data

Assinatura do responsável legal pelo participante

Pesquisador Coordenador da Pesquisa: Flávia Cristina de Carvalho Mrad

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador responsável

Data

Pesquisador principal: Paula Grego da Gama Ferreira

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772/ (31) 3307-9445

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador responsável

Data

Pesquisador Participante: Mônica Maria de Almeida Vasconcelos

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772/ (31) 3307-9445

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador participante

Data

Pesquisador Participante: Ana Elisa Ribeiro Fernandes

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772/ (31) 3307-9445

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador participante

Data

Em caso de dúvidas, com respeito aos aspectos éticos desta pesquisa, você poderá consultar:

COEP-UFMG - Comissão de Ética em Pesquisa da UFMG

Av. Antônio Carlos, 6627. Unidade Administrativa II - 2º andar - Sala 2005.

Campus Pampulha. Belo Horizonte, MG – Brasil. CEP: 31270-901.

E-mail: coep@prpq.ufmg.br. Tel: 34094592.

7.3 Apêndice C – Termo de Assentimento Livre e Esclarecido

TERMO DE ASSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

Você está sendo convidado (a), como voluntário (a), a participar da pesquisa “Avaliação da qualidade de vida em crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária à espinha bífida.” Seus pais permitiram que você participasse. Neste estudo iremos entender um pouco mais como você faz todas as suas atividades diárias, incluindo as voltadas para os cuidados com a bexiga e com a sua locomoção ou coluna e como se sente em relação a isso. Também gostaríamos de saber um pouco sobre o seu sono. Assim, entendendo melhor como estão sendo suas atividades e o seu sono, buscaremos melhorar o nosso atendimento e nossas condutas para que possa realizá-las com mais tranquilidade. Participarão dessa pesquisa, crianças e adolescentes de 8 a 17 anos.

Para isso, gostaríamos de saber se você poderia preencher dois questionários sobre as atividades durante o seu dia e como você se sente em relação a elas e sobre o seu sono. Não haverá nenhum novo exame ou medicação. Você somente precisará responder e preencher o questionário. Vamos gastar uns 20 minutos para fazer as perguntas para você. Você pode se cansar ou se estressar durante a aplicação do questionário e para que isso não aconteça vamos marcar um horário para você não precisar ficar esperando, em um local tranquilo e privado para que seja garantida que somente você e o pesquisador estejam presentes, sem pessoas estranhas. Assim, ninguém saberá que você está participando da pesquisa, não falaremos para outras pessoas, nem daremos para estranhos as informações que você nos der. Mesmo assim, a qualquer momento você pode interromper a aplicação do questionário se quiser.

Você não precisa participar da pesquisa se não quiser, é um direito seu e não terá problema nenhum se desistir. Ninguém ficará triste ou chateado com você. Se você aceitar participar, não terá nenhum custo e você também não ganhará nenhum prêmio. Seus pais não gastarão e nem receberão dinheiro para que você participe desse estudo. Caso você sinta que foi prejudicado de alguma forma por causa dessa pesquisa, seus pais e você terão direito a uma indenização. E você pode falar que não quer mais participar a qualquer momento. Ninguém ficará triste ou chateado com você. Os resultados da pesquisa vão ser publicados, mas sem identificar as crianças e adolescentes que participaram da pesquisa. Quando terminarmos a pesquisa, divulgaremos os resultados. Se você tiver alguma dúvida, você pode nos perguntar.

Quando terminarmos a pesquisa divulgaremos os resultados. Os dados e instrumentos utilizados na pesquisa ficarão arquivados com o pesquisador responsável por um período de 5 (cinco) anos, na sala da unidade de nefrologia pediátrica no sexto andar do Hospital das Clínicas, e após esse tempo serão

armazenados em nuvem (armazenamento virtual). Se você tiver alguma dúvida, você pode nos perguntar. Nós escrevemos os telefones na parte final desse texto.

Eu, _____, aceito participar da pesquisa “Avaliação da qualidade de vida em crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária à espinha bífida.” Entendi as coisas ruins e as coisas boas que podem acontecer. Entendi que posso dizer “sim” e participar, mas que, a qualquer momento, posso dizer “não” e desistir que ninguém vai ficar chateado. Os pesquisadores tiraram minhas dúvidas e conversaram com os meus pais ou responsáveis. Recebi uma cópia deste termo de assentimento e li e concordo em participar da pesquisa.

Nome completo do participante
Data

Assinatura do participante

Pesquisador Coordenador da Pesquisa: Flávia Cristina de Carvalho Mrad

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador responsável
Data

Pesquisador principal: Paula Grego da Gama Ferreira

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772/ (31) 3307-9445

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador responsável
Data

Pesquisador Participante: Ana Elisa Ribeiro Fernandes

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772/ (31) 3307-9445

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador participante

Data

Pesquisador Participante: Mônica Maria de Almeida Vasconcelos

Endereço: Av. Professor Alfredo Balena número 190- Bairro Santa Efigênia

CEP: 30130-100 / Belo Horizonte – MG

Telefones: (31) 3409-9772/ (31) 3307-9445

E-mail: pedfm@medicina.ufmg.br

Assinatura do pesquisador participante

Data

8 ANEXOS

8.1 Anexo 1 – Parecer Departamento de Pediatria



14/07/2021 SEI/UFMG - 0030823 - Parecer

UNIVERSIDADE FEDERAL DE MINAS GERAIS
FACULDADE DE MEDICINA
Departamento de Pediatria

PARECER Nº 111/2021

PROCESSO Nº 23072.226144/2021-89

ASSUNTO: PARECER FUNDAMENTADO DA CÂMARA DO DEPARTAMENTO DE PEDIATRIA

PROJETO: 905 2021

PROJETO DE PESQUISA:

AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA EM CRIANÇAS E ADOLESCENTES COM BEXIGA NEUROGÊNICA SECUNDÁRIA À ESPINHA BÍFIDA.

Interessada: Profa. Flavia Cristina de Carvalho Mrad

Histórico:

Trata-se de projeto de pesquisa que irá avaliar a qualidade de vida, utilizando questionários padronizados e validados para população brasileira em crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária à espinha bifida. Os pesquisadores irão utilizar a versão Brasileira do QUALAS-C7e do QUALAS-T8 denominada "Avaliação da Qualidade de Vida em Espinha Bífida em suas versões para crianças de 8 a 12 anos (QUALAS C) e para adolescentes de 13 a 17 anos (QUALAS-T)".

O objetivo dos pesquisadores é avaliar a influência da incontinência urinária e alterações do hábito intestinal na qualidade de vida com objetivo de melhorar o plano de cuidado para esses pacientes. Também são objetivos da pesquisa comparar a qualidade de vida entre crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária a espinha bifida; entre aqueles que realizam cateterismo intermitente livre (CIL) e aquelas que não realizam; entre os pacientes que usam cateterismo vesical intermitente limpo através do meato uretral e aqueles que o fazem através do conduto cutâneo cateterizável; entre aqueles com necessidade de cuidadores para as atividades de vida diária e específicas da própria patologia e sem essa necessidade; entre os pacientes que apresentam incontinência urinária e aquelas que não apresentam esse sintoma e também irão avaliar se há influência do sexo na qualidade de vida das crianças e adolescentes com bexiga neurogênica secundária espinha bifida.

Mérito:

Trata-se de um estudo transversal observacional, no qual serão entrevistados 81 pacientes com idade entre 8 e 17 anos, com diagnóstico de bexiga neurogênica secundária a espinha bifida que são acompanhados regularmente no Ambulatório de Disfunção do Trato Urinário Inferior localizado no Ambulatório São Vicente do Hospital das Clínicas da UFMG.

Conclusão:

Pela relevância da pesquisa e possibilidade de melhorar o plano de cuidado dos pacientes com bexiga neurogênica secundária à espinha bifida, somes pela aprovação deste projeto.

Belo Horizonte, 12 de julho de 2021.

Profa. Laura Maria de Lima Belizario Facury Lasmar
Chefe do Departamento de Pediatria - FM - UFMG

Documento assinado eletronicamente por **Laura Maria de Lima Belizario Facury Lasmar, Chefe de departamento**, em 13/07/2021, às 17:07, conforme horário oficial de Brasília, com fundamento no

8.2 Anexo 2- Escala de distúrbios de sono em crianças (EDSC)

ESCALA DE DISTÚRBIOS DE SONO EM CRIANÇAS

Nome da criança: _____ Sexo: _____

Data de nascimento: ___/___/___ Idade: _____ Data: ___/___/___

Instruções: Este questionário permitirá compreender melhor o ritmo sono-vigília de sua criança e avaliar se existem problemas relativos a isto. Procure responder todas as perguntas. Ao responder, considere cada pergunta em relação aos últimos 6 meses de vida da criança. Preencha ou faça um “X” na alternativa (resposta) mais adequada. Para responder às questões abaixo, sobre sua criança, leve em conta a seguinte escala:

1. Quantas horas a criança dorme durante a noite?	① 9-11 horas	② 8-9 horas	③ 7-8 horas	④ 5-7 horas	⑤ Menos de 5 horas
2. Quanto tempo a criança dorme de hora para adormecer?	① Menos de 15 minutos	② 15-30 minutos	③ 30-45 minutos	④ 45-60 minutos	⑤ Mais de 50 minutos

	Nunca	Ocasionalmente (1-2 vezes por mês)	Algumas vezes (1-2 vezes por semana)	Quase sempre (3-5 vezes por semana)	Sempre (todos os dias)
3. A criança não quer ir para a cama para dormir enquanto dorme	① ()	② ()			
4. A criança tem dificuldade para adormecer	① ()	② ()			
5. Antes de adormecer a criança está agitada, nervosa ou sente medo	① ()	② ()			
6. A criança apresenta “movimentos bruscos”, repuxões ou tremores ao adormecer	① ()	② ()			
7. Durante a noite a criança faz movimentos rítmicos com a cabeça e corpo	① ()	② ()			
8. A criança diz que está vendo “coisas estranhas” um pouco antes de adormecer	① ()	② ()			
9. A criança transpira muito ao adormecer	① ()	② ()			
10. A criança acorda mais de duas vezes durante a noite	① ()	② ()			
11. A criança acorda durante a noite e tem dificuldade em adormecer novamente	① ()	② ()			
12. A criança mexe-se continuamente durante o sono	① ()	② ()			
13. A criança não respira bem durante o sono	① ()	② ()			
14. A criança para de respirar por alguns instantes durante o sono	① ()	② ()			
15. A criança ronca	① ()	② ()			
16. A criança transpira muito durante a noite	① ()	② ()			

17. A criança levanta-se e senta-se na cama ou anda ① () ② ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

③ ()

④ ()

⑤ ()

18. A criança fala durante o sono	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
19. A criança range os dentes durante o sono	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
20. Durante o sono a criança fica angustiada, sem conseguir acordar	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
21. A criança tem pesadelos que não lembra no dia seguinte	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
22. A criança tem dificuldade em acordar pela manhã	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
23. A criança acorda cansada pela manhã	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
24. Ao acordar a criança não consegue movimentar-se ou fica como se estivesse paralisada por alguns minutos	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
25. A criança sente-se sonolenta durante o dia	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()
26. Durante o dia a criança adormece em situações inesperadas sem avisar	① ()	② ()	③ ()	④ ()	⑤ ()

ESCALA DE DISTÚRBIOS DE SONO PARA CRIANÇAS

Escores

Distúrbios de Início e Manutenção do Sono (somatória dos itens 1,2,3,4,5,10 e 11)	Aceitável até 21	
Distúrbios Respiratórios do Sono (somatória dos itens 13,14 e 15)	Aceitável até 06	
Distúrbios do Despertar (somatória dos itens 17,20 e 21)	Aceitável até 11	
Distúrbios da Transição Sono-Vigília (somatória dos itens 6,7,8,12,18 e 19)	Aceitável até 23	
Sonolência Excessiva Diurna (somatória dos itens 22,23,24,25 e 26)	Aceitável até 19	
Hiperhidrose do Sono (somatória dos itens 9 e 16)	Aceitável até 07	
Score Total (somar os 6 escores parciais)		

8.4 Anexo 4- Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Children (QUALAS-C)

QUALAS-C QUALITY of Life Assessment in Spina bifida for Children (8-12 anos de idade)



Como vai você? Como você se sente?

Nós gostaríamos de saber suas respostas para estas questões e aprender sobre o jeito que você vive com espinha bifida. Por favor, leia cada pergunta com atenção. Faça o melhor para responder honestamente. Não há respostas certas ou erradas. Isto não é um teste. Algumas perguntas são pessoais. Você não deve mostrar as suas respostas para ninguém. Ninguém que você conheça verá suas respostas. Você não precisa responder as perguntas que não quiser.

Instruções: Preencha os quadrados para responder a cada questão. Antes de escolher sua resposta, tente se lembrar das últimas 4 semanas. Por favor, entregue seu questionário para nós assim que terminar.

Auto-estima e independência

Pensando nas últimas 4 semanas...

	nunca	quase nunca	às vezes	quase sempre	sempre	
1. Você se sentiu envergonhado da sua aparência?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	
2. Você teve problemas de saúde que o deixaram chateado?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive problemas de saúde
3. Você se incomodou em ter que realizar cateterismo (sondagem) para retirada da urina?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não realizei cateterismo
4. Você se incomodou que pessoas de sua família precisaram ajudá-lo?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não precisei de ajuda
5. Você se incomodou que seus amigos ou pessoas de fora da sua família precisaram ajudá-lo?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não precisei de ajuda

Bexiga e intestino

Pensando nas últimas 4 semanas...

	nunca	quase nunca	às vezes	quase sempre	sempre	
6. Problemas urinários fizeram você se sentir triste ou preocupado?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive problemas urinários
7. Seus problemas urinários (do xixi) impediram você de se divertir?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive problemas urinários
8. Incomodou você escapar fezes (perder cocô)?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não perdi
9. Seus problemas intestinais (do cocô) impediram você de se divertir?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive problemas intestinais
10. Você se incomodou em ter que esperar para conseguir evacuar (fazer cocô)?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive que esperar

Obrigado!

8.3 Anexo 3 - Quality of Life Assessment in Spina Bifida for Children (QUALAS-T)

QUALAS-T QUALity of Life Assessment in Spina bifida for Teenagers (13-17 anos de idade)



Como vai você? Como você sente?

Nós gostaríamos de saber suas respostas para estas questões e aprender sobre o jeito que você vive com espinha bifida. Por favor, leia cada pergunta com atenção. Faça o melhor para responder honestamente. Não há respostas certas ou erradas. Isto não é um teste. Algumas perguntas são pessoais. Você não deve mostrar as suas respostas para ninguém. Ninguém que você conheça verá suas respostas. Você não precisa responder as perguntas que não quiser.

Instruções: Preencha os quadradinhos para responder a cada questão. Antes de escolher sua resposta, tente se lembrar das últimas 4 semanas. Por favor, entregue seu questionário para nós assim que terminar.

Família e Independência

Pensando nas últimas 4 semanas...

	nunca	quase nunca	às vezes	quase sempre	sempre	
1. Você se incomodou que pessoas da sua família precisaram ajudá-lo?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não precisei de ajuda
2. Você se incomodou que seus amigos ou pessoas de fora da sua família precisaram ajudá-lo?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não precisei de ajuda
3. Você se irritou por não conseguir fazer o que outros adolescentes fazem?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu posso fazer o que os outros adolescentes fazem
4. Você se preocupou em encontrar um namorado ou namorada / marido ou esposa?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu já tenho um/uma
5. Você se preocupou em ter filhos no futuro? (mesmo que você já tenha um)	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	

Bexiga e Intestino

Pensando nas últimas 4 semanas...

	nunca	quase nunca	às vezes	quase sempre	sempre	
6. Você se preocupou por alguém ter notado seus absorventes, fraldas ou roupas íntimas?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não uso nenhum
7. Perder urina (perder xixi) incomodou você?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não perdi
8. Seus problemas urinários (do xixi) impediram você de se divertir?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive problemas urinários
9. Incomodou você perder/escapar fezes (cocô)?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não perdi
10. Você se incomodou em ter que esperar para conseguir evacuar (fazer cocô)?	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/> Eu não tive que esperar

Obrigado!