

**Universidade Federal de Minas Gerais**  
**Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde: Saúde da Criança e do**  
**Adolescente**

**Correlação entre morfologia craniofacial de pais e a**  
**presença de apneia obstrutiva do sono em seus**  
**filhos**

**Luciana Menezes Nogueira Martins**

**Belo Horizonte**  
**2021**

**Universidade Federal de Minas Gerais**  
**Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde: Saúde da Criança e do**  
**Adolescente**

**Correlação entre morfologia craniofacial de pais e a**  
**presença de apneia obstrutiva do sono**  
**em seus filhos**

**Belo Horizonte**  
**2021**

**Luciana Menezes Nogueira Martins**

**Correlação entre morfologia craniofacial de pais e a presença de apneia obstrutiva do sono em seus filhos**

Tese apresentada ao Programa de Pós-graduação em Ciências da Saúde da Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Minas Gerais, área de concentração em Saúde da Criança e do Adolescente, como requisito parcial para obtenção do título de doutora.

Orientador: Prof. Dr. Paulo Augusto Moreira Camargos

Co-orientador: Prof. Dr. Gustavo Antônio Moreira

**Faculdade de Medicina**

**2021**

## **Universidade Federal de Minas Gerais**

Reitora: Prof.<sup>a</sup> Sandra Regina Goulart Almeida

Vice-Reitor: Prof. Alessandro Fernandes Moreira

Pró-Reitor de Pós-Graduação: Prof. Fabio Alves da Silva Junior

Pró-Reitor de Pesquisa: Prof. Mário Fernando Montenegro Campos

### **Faculdade de Medicina**

Diretor: Prof. Humberto José Alves

Vice-Diretora: Prof.<sup>a</sup> Alamanda Kfoury Pereira

Coordenador do Centro de Pós-Graduação: Prof. Tarcizo Afonso Nunes

Subcoordenadora do Centro de Pós-Graduação: Prof.<sup>a</sup> Eli Iola Gurgel Andrade

Chefe do Departamento de Pediatria: Prof.<sup>a</sup> Laura Maria de Lima Belizário Facury  
Lasmar

### **Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde – Saúde da Criança e do Adolescente**

Coordenadora: Prof.<sup>a</sup> Roberta Maia de Castro Romanelli

Subcoordenadora: Prof.<sup>a</sup> Débora Marques de Miranda

### **Colegiado**

Prof.<sup>a</sup> Ana Cristina Simões e Silva – Titular

Prof. Eduardo Araújo de Oliveira – Suplente

Prof.<sup>a</sup> Débora Marque de Miranda – Titular

Prof. Leandro Fernandes Malloy Diniz – Suplente

Prof.<sup>a</sup> Cláudia Regina Lindgren Alves – titular

Prof.<sup>a</sup> Zilma Silveira Nogueira Reis – Suplente

Prof.<sup>a</sup> Juliana Gurgel Giannetti -Titular

Prof.<sup>a</sup> Ivani Novato Silva – Suplente

Prof.<sup>a</sup> Lêni Márcia Anchieta – Titular

Prof.<sup>a</sup> Maria Cândida Ferrarez Bouzada Viana – Suplente

Roberta Maia de Castro Romanelli – Titular

Luana Caroline dos Santos – Suplente

Sérgio Veloso Brant Pinheiro – Titular

Cássio da Cunha Ibiapina – Suplente

Laura Rangel Drumond de Menezes – Titular

Martins, Luciana Menezes Nogueira.  
M386c Correlação entre morfologia craniofacial de pais e a presença de apneia obstrutiva do sono em seus filhos [manuscrito]. / Luciana Menezes Nogueira Martins. -- Belo Horizonte: 2021.  
122f.: il.  
Orientador (a): Paulo Augusto Moreira Camargos.  
Coorientador (a): Gustavo Augusto Moreira.  
Área de concentração: Saúde da Criança e do Adolescente.  
Tese (doutorado): Universidade Federal de Minas Gerais, Faculdade de Medicina.

1. Apneia Obstrutiva do Sono. 2. Anormalidades Craniofaciais. 3. Criança. 4. Fotografia. 5. Pais. 6. Dissertação Acadêmica. I. Camargos, Paulo Augusto Moreira. II. Moreira, Gustavo Augusto. III. Universidade Federal de Minas Gerais, Faculdade de Medicina. IV. Título.

NLM: WF 143

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

# Aprovação da tese pela banca examinadora



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

## FOLHA DE APROVAÇÃO

### CORRELAÇÃO ENTRE A MORFOLOGIA CRANIOFACIAL DOS PAIS E A PRESENÇA DE APNEIA OBSTRUTIVA DO SONO EM SEUS FILHOS

LUCIANA MENEZES NOGUEIRA MARTINS

[Tese defendida em 04 de outubro de 2021 como requisito parcial para obtenção do grau de Doutor em CIÊNCIAS DA SAÚDE, pelo Programa de Pós-Graduação em Ciências da Saúde - Saúde da Criança e do Adolescente e aprovada pela Comissão Examinadora designada pelo Colegiado do Programa de Pós-Graduação supramencionado da Universidade Federal de Minas Gerais, constituída pelos seguintes Professores Doutores: Paulo Augusto Moreira Camargos – Orientador (UFMG), Lia Rita Azeredo Bittencourt (UNIFESP), José Dirceu Ribeiro (UNICAMP), Cláudia Ribeiro de Andrade (UFMG), Helena Maria Gonçalves Becker (UFMG) e Gustavo Antônio Moreira - Coordenador (UNIFESP).

Belo Horizonte, 04 de outubro de 2021.



Documento assinado eletronicamente por **Lia Rita Azeredo Bittencourt, Usuário Externo**, em 04/10/2021, às 17:59, 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 **Claudia Ribeiro de Andrade, Professora do Magistério Superior**, em 04/10/2021, às 18:39, 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 **Gustavo Antonio Moreira, Usuário Externo**, em 04/10/2021, às 19:30, 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 **Paulo Augusto Moreira Camargos, Presidente**, em 05/10/2021, às 10:16, 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 Dirceu Ribeiro, Usuário Externo**, em 13/10/2021, às 14:30, 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 **Helena Maria Goncalves Becker, Professora do Magistério Superior**, em 13/10/2021, às 21:42, 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\\_externo=0](https://sei.ufmg.br/sei/controlador_externo.php?acao=documento_conferir&id_orgao_externo=0), informando o código verificador **1002106** e o código CRC **602E9DA9**.

## **AGRADECIMENTOS**

Meus sinceros agradecimentos àqueles que, direta ou indiretamente, contribuíram para a construção deste trabalho:

À Deus, Força que nos move em todos os momentos.

À minha mãe, símbolo de amor à família e resiliência.

Ao meu pai pelo exemplo na dedicação à Medicina e aos pacientes.

Ao Professor Paulo Camargos por sua dedicação à pesquisa e pelos ensinamentos que muito contribuíram para meu crescimento profissional.

Ao Professor Gustavo Moreira por sua excelente contribuição na elaboração deste trabalho.

Aos membros da banca examinadora, Professores: Helena Maria Gonçalves Becker, Cláudia Ribeiro de Andrade, José Dirceu Ribeiro, Lia Rita Bittencourt pela valorosa contribuição ao texto final deste trabalho.

Ao grupo de trabalho, especialmente João Marcel de Oliveira e Luciana Oliveira, pelas análises da fotografia facial e da estatística.

Ao meu esposo Giovane, pelo amor, compreensão e apoio nas minhas jornadas na vida acadêmica.

Aos meus filhos, pelo amor e ajuda em todos os momentos.

*O sonho encheu a noite  
Extravasou pro meu dia  
Encheu minha vida  
E é dele que eu vou viver  
Porque sonho não morre*

*Adélia Prado*

# RESUMO

Correlação entre a morfologia craniofacial dos pais e a presença de apneia obstrutiva do sono em seus filhos

Objetivos - Detectar quais os padrões de morfologia craniofacial dos pais influenciam na presença de apneia obstrutiva do sono (AOS) nos filhos, utilizando a fotografia facial como método de avaliação. A hipótese do estudo é que existem alterações da morfologia craniofacial dos pais, ligados à AOS que são associadas ao diagnóstico de AOS nos filhos e sua gravidade.

Métodos - Quarenta e sete crianças e seus pais realizaram exame clínico com dados de tamanho de tonsilas, índice de Mallampati e mensuração de peso e altura; polissonografia; videonasolaringoscopia e fotografia facial. A caracterização da população estudada foi feita por análises descritivas. Para avaliar as correlações das variáveis independentes dos pais com o índice de apneia e hipopneia (IAH) dos filhos utilizou-se a regressão linear múltipla.

Resultados - As medidas craniofaciais das mães, a saber, índice de Mallampati ( $p=0,03$ ), e inversamente, a altura do terço médio da face ( $p= 0,00$ ) e dos pais, proporção labial ( $p=0,05$ ) e ângulo cervicomentar ( $p=0,04$ ) foram correlacionadas linearmente com o aumento do IAH dos filhos. O coeficiente de determinação na avaliação das mães foi 0,27 e na avaliação dos pais foi 0,20.

Conclusão - Os resultados sugerem que as medidas faciais dos pais apresentaram uma correlação linear com a gravidade da AOS nos filhos, demonstrando a importância da herdabilidade da morfologia craniofacial na constituição do fenótipo da AOS.

Portanto, a avaliação da morfologia craniofacial dos pais das crianças com suspeita de distúrbios respiratórios do sono pode ajudar na detecção de alterações craniofaciais associados à AOS nos filhos. A intervenção e tratamento precoces dos fatores causais pode impedir que a criança se torne um adulto apneico, com todas as implicações da doença na qualidade de vida.

Palavras-chave: Apneia Obstrutiva do Sono, Criança, Pais, Fotografia, Anormalidades craniofaciais.

### **Correlation between parental craniofacial morphology and presence of obstructive sleep apnea in their children**

**Objective:** To detect which patterns of craniofacial morphology of parents influence the presence of obstructive sleep apnea (OSA) in children, using facial photography as an evaluation method. The study hypothesis is that there are changes in the craniofacial morphology of parents linked to OSA, which are associated with OSA diagnosis in children and its severity.

**Methods:** Forty-seven children and their parents underwent clinical examination with data on tonsil size, Mallampati index and measurement of weight and height; polysomnography; videonasolaryngoscopy and facial photography. Descriptive analyses performed the characterization of the studied population. Multiple linear regression was used to evaluate the parents' independent variables with the apnea-hypopnea index (AHI) of the children.

**Results:** The craniofacial measurements of the mothers, namely, Mallampati index ( $p=0.03$ ), and conversely, the height of the middle third of the face ( $p=0.00$ ) and the fathers, labial proportion ( $p=0, 05$ ) and cervicomental angle ( $p=0.04$ ) were linearly

correlated with the increase in the children's AHI. The coefficient of determination in the mothers' evaluation was 0.27, and in the evaluation of the fathers, it was 0.20.

**Conclusion:** The results suggest that the facial measurements of the parents showed a linear correlation with the severity of OSA in their children, demonstrating the importance of the heritability of the craniofacial morphology in the constitution of the OSA phenotype.

Therefore, assessing the craniofacial morphology of the parents of children with suspected sleep-disordered breathing may help to detect craniofacial alterations associated with OSA in their children. Early intervention and treatment of causal factors can prevent the child from becoming an apneic adult, with all the implications of the disease on quality of life.

Key words: Obstructive sleep apnea, Children, Parents, Photography, Craniofacial abnormalities

## LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

AC	Ângulo da Convexidade da Face
ACM	Ângulo Cervicomenta
AF	Altura Facial
ANL	Angulo Nasolabial
AOS	Apneia Obstrutiva do Sono
ATI	Altura Do Terço Inferior
ATM	Altura do Terço Médio
ATS	Altura do Terço Superior
B	Coeficiente beta
Cer	Cervical
CHAT	Childhood adenotonsillectomy
CLI	Comprimento Labial Inferior
CLS	Comprimento Labial Superior
CSHQ	Questionário de Hábitos de Sono na Criança
DRS	Distúrbios Respiratórios do Sono
FASP	Triagem Apneia Obstrutiva em Crianças
G	Glabela
Gn	Gonion
Gn	Gnathion
HPA	Hipotalâmico-pituitário–adrenocortical
IAH	Índice de Apneia e Hipopneia
IMC	Índice de Massa Corporal
LF	Largura Facial
Me	Mento
N	Nasion
NP	Pescoço
PL	Proporção Labial
R <sup>2</sup>	Coeficiente de determinação
RNM	Ressonância Nuclear Magnética

SED	Sonolência Diurna Excessiva
SML	Sulco Mentolabial
SN	Subnasal
St	Estomion
T	Ponta nasal
TDAH	Transtorno de Deficit de Atenção e Hiperatividade)
Tr	Trichion
Tra	Tragus
VAS	Vias Aéreas Superiores
Zy	Zygion

# SUMÁRIO

<b>1. INTRODUÇÃO.....</b>	<b>15</b>
<b>2. REVISÃO DA LITERATURA.....</b>	<b>19</b>
2.1 Artigo de revisão - A fotografia facial como método de avaliação da morfologia craniofacial na apneia obstrutiva do sono.....	20
2.2 Artigo de revisão - Abordagem precoce da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono (SAOS) pelo pediatra e a interação com o especialista em Medicina do Sono.....	33
<b>3. OBJETIVO.....</b>	<b>59</b>
3.1 Objetivo geral.....	59
3.2 Objetivos específicos.....	59
<b>4. MÉTODOS.....</b>	<b>60</b>
<b>5. RESULTADOS E DISCUSSÃO.....</b>	<b>68</b>
5.1 Artigo original - Correlação entre morfologia craniofacial dos pais e presença de apneia obstrutiva do sono em seus filhos.....	69
<b>6. CONCLUSÃO.....</b>	<b>94</b>
<b>ANEXO I - Submissão de artigo ao periódico Jornal de Pediatria.....</b>	<b>95</b>
<b>ANEXO II - Capítulo do livro “Tenho um aluno com transtorno do sono: e agora?” - Roncos e apneia obstrutiva do sono: quais as consequências nas crianças, quando suspeitar e como diagnosticar?.....</b>	<b>96</b>
<b>ANEXO III - Capítulo do livro “Tenho um aluno com transtorno do sono: e agora?” - Qualidade de sono e associação com desempenho escolar.....</b>	<b>105</b>
<b>ANEXO IV – Capa e catalogação do livro “Tenho um aluno com transtorno do sono: e agora?”.....</b>	<b>115</b>
<b>Material Suplementar I - Questionário aplicado na pesquisa.....</b>	<b>116</b>
<b>Material Suplementar II – Termo de Ciência e Consentimento.....</b>	<b>119</b>
<b>Material Suplementar III – Termo de Assentimento.....</b>	<b>121</b>

# 1. INTRODUÇÃO

A apneia obstrutiva do sono (AOS) é uma desordem identificada pela redução ou ausência do fluxo aéreo secundária à obstrução parcial ou total das vias aéreas superiores durante o sono. Apesar da manutenção dos esforços respiratórios, geralmente resulta em dessaturação de oxi-hemoglobina e despertares noturnos frequentes, com sonolência excessiva diurna.<sup>1,2</sup>

A prevalência da AOS é cerca de 24% em homens e 9% em mulheres de meia idade chegando em alguns estudos a 70% dos homens e 56% de mulheres idosos.<sup>3,4</sup>

A AOS na criança apresenta características específicas, com critérios diagnósticos diferentes dos adultos. Na população infantil a prevalência de ronco frequente é de 10% a 12%.<sup>5</sup> Estima-se que 20% das crianças que roncam frequentemente apresentam AOS. A prevalência da AOS na criança é reportada entre 1 e 5%, com pico de prevalência entre 2-8 anos de idade, com predomínio no sexo masculino.<sup>5</sup>

A AOS é uma doença grave e resulta em morbidades neurocognitivas, ambientais, cardiovasculares e metabólicas, tanto em crianças quanto em adultos.

Existem inúmeros fenótipos de AOS e a avaliação das vias aéreas superiores e do esqueleto facial é fundamental para caracterização destes e conseqüente tratamento individualizado. Há interação contínua durante a infância entre funções oronasal e crescimento orofacial. O crescimento orofacial é maior entre o nascimento e os dois anos de idade e permanece muito ativo até seis anos. Nesta idade, 60% da face adulta já está formada.<sup>6,7</sup> O comprometimento do crescimento orofacial sempre leva ao aumento do risco de colapso das vias aéreas superiores durante o sono.<sup>8</sup> Na literatura existem estudos que demonstram tanto uma agregação familiar da AOS quanto hereditariedade das estruturas craniofaciais porém, apenas em adultos.<sup>9,10,11,12,13</sup>

Desta forma, é importante avaliar os fatores de morfologia craniofacial e de composição corporal paternos que possam ser correlacionados com a gravidade da AOS nos filhos e assim intervir precocemente com uma monitorização constante do

crescimento facial na criança e tratamento de fatores causais de anormalidades, evitando que estas crianças se tornem futuros adultos apneicos com todas as implicações na qualidade de vida associadas à AOS.

A Pediatria é especialidade médica que clássica e historicamente se caracteriza pela atuação preventiva, promovendo e protegendo a saúde da criança através de uma atenção integral. Além de avaliar e estimular o pleno desenvolvimento, considera também o olhar para a família e o seu entorno, analisando o conjunto biopsicossociocultural. É na consulta ao pediatra, onde a família geralmente está presente, que se pode analisar os aspectos físico-constitucionais parentais dos distúrbios do sono presentes nos adultos e, havendo características herdáveis, atuar preventivamente na criança.

É também de fundamental importância a avaliação das características físico-constitucionais em amostras de pacientes na população brasileira, visto que a morfologia craniofacial sofre grande influência da etnia. Não foi encontrada na revisão bibliográfica estudos brasileiros sobre influência de fatores parentais nas alterações craniofaciais em crianças.

Na revisão bibliográfica realizada nas bases PUBMED e LILACS nos últimos 10 anos, não foram encontrados artigos em que a análise da morfologia craniofacial tenha sido realizada concomitantemente em amostras de pais e filhos, fato que, pelo menos até o momento, confere originalidade à presente Tese.

Portanto, o objetivo deste estudo é detectar quais os padrões de morfologia craniofacial e de composição corporal dos pais influenciam na AOS dos filhos, utilizando a fotografia facial como método de avaliação. A hipótese do estudo é que existem alterações da morfologia craniofacial dos pais, ligados à AOS, que são associados ao diagnóstico de AOS nos filhos e sua gravidade.

Conforme regulamentação do Colegiado do Programa de Pós-graduação em Ciências da Saúde, Saúde da Criança e do Adolescente da Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Minas Gerais (UFMG), nessa tese serão apresentados artigos científicos originais, para a apresentação da revisão da literatura, bem como para a divulgação dos resultados da pesquisa e discussão. Dessa forma, constam nessa tese os artigos de revisão “A fotografia facial como método de avaliação da morfologia craniofacial na apneia obstrutiva do sono” e “Abordagem precoce da

síndrome da apneia obstrutiva do sono pelo pediatra e a interação com o especialista em medicina do sono” e o artigo original “Correlação entre morfologia craniofacial dos pais e presença de apneia do sono em seus filhos”.

## REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Gokdemir Y, Ersu R. Sleep disordered breathing in childhood. *Eur Respir Rev.* 2016;25(139):48-53. doi:10.1183/16000617.0081-2015
2. Gozal D, Tan H-L, Kheirandish-Gozal L. Obstructive sleep apnea in children: a critical update. *Nat Sci Sleep.* Published online 2013:109. doi:10.2147/nss.s51907
3. Mukherjee S, Patel SR, Kales SN, et al. An official American Thoracic Society statement: The importance of healthy sleep: Recommendations and future priorities. *Am J Respir Crit Care Med.* 2015;191(12):1450-1458. doi:10.1164/rccm.201504-0767ST
4. Tufik S, Santos-Silva R, Taddei JA, Bittencourt LRA. Obstructive Sleep Apnea Syndrome in the Sao Paulo Epidemiologic Sleep Study. *Sleep Med.* 2010;11(5):441-446. doi:10.1016/j.sleep.2009.10.005
5. Dehlink E. Update on paediatric obstructive sleep apnoea. *J Thorac Dis.* 2016;8(2):224-235. doi:10.3978/j.issn.2072-1439.2015.12.04
6. Juliano ML, Machado MAC, Carvalho LBC de, et al. Obstructive sleep apnea prevents the expected difference in craniofacial growth of boys and girls. *Arq Neuropsiquiatr.* 2013;71(1):18-24. doi:10.1590/s0004-282x2013000100005
7. Chambi-Rocha A, Cabrera-Domínguez ME, Domínguez-Reyes A. Breathing mode influence on craniofacial development and head posture. *J Pediatr (Rio J).* 2018;94(2):123-130. doi:10.1016/j.jped.2017.05.007
8. Guilleminault C, Huang YS. From oral facial dysfunction to dysmorphism and the onset of pediatric OSA. *Sleep Med Rev.* 2018;40:203-214. doi:10.1016/j.smr.2017.06.008

9. Mathur R DN. . Family studies in patients with the sleep apnea- hypopnea syndrome. 1995;122:174–8. *Ann Intern Med.* 1995;122:174-178.
10. Chi L, Comyn F-L, Keenan BT, et al. Heritability of Craniofacial Structures in Normal Subjects and Patients with Sleep Apnea. *Sleep.* 2014;37(10):1689-1698. doi:10.5665/sleep.4082
11. Schwab RJ, Pasirstein M, Kaplan L, et al. Family aggregation of upper airway soft tissue structures in normal subjects and patients with sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2006;173(4):453-463. doi:10.1164/rccm.200412-1736OC
12. Schwab RJ. Genetic determinants of upper airway structures that predispose to obstructive sleep apnea. *Respir Physiol Neurobiol.* 2005;147(2-3 SPEC. ISS.):289-298. doi:10.1016/j.resp.2005.06.006
13. Szily M, Tarnoki AD, Tarnoki DL, et al. Genetic influences on the onset of obstructive sleep apnoea and daytime sleepiness: A twin study. *Respir Res.* 2019;20(1):4-9. doi:10.1186/s12931-019-1095-x

## 2. REVISÃO DA LITERATURA

A revisão bibliográfica será apresentada em formato de dois artigos de revisão a saber, 2.1 A fotografia facial como método de avaliação da morfologia craniofacial na apneia obstrutiva do sono e 2.2 Abordagem precoce da síndrome da apneia obstrutiva do sono pelo pediatra e a interação com o especialista em medicina do sono.

## **2.1 – Artigo de revisão 1 - A fotografia facial como método de avaliação da morfologia craniofacial na apneia obstrutiva do sono**

O primeiro artigo de revisão apresenta uma revisão da literatura sobre o método de fotografia facial para análise da morfologia craniofacial em pacientes com apneia obstrutiva do sono (AOS) e está escrito no modelo orientado para o periódico Brazilian Journal of Otorhinolaryngology.

### **A fotografia facial como método de avaliação da morfologia craniofacial na apneia obstrutiva do sono**

#### **Resumo**

**Objetivos** Revisar a literatura sobre o método de fotografia facial para análise da morfologia craniofacial em pacientes com apneia obstrutiva do sono (AOS). **Métodos** Realizada pesquisa abrangente para identificar estudos potencialmente relevantes explorando as bases eletrônicas MEDLINE e LILACS entre os anos 2005 a 2020, com descritores específicos e seus sinônimos, de acordo com os termos do Medical Subject Headings (MeSH) e Emtree (Embase Subject Headings), a saber, “Obstrutive Sleep Apnea”; “Facial Photography”, “Craniofacial Morphology”, “Facial Growth”. Foram relacionados 93 artigos e selecionados 18 destes para compor este artigo. **Resultados** As alterações da morfologia craniofacial são fatores importantes relacionados à AOS pois anomalias do crescimento facial podem levar a estreitamento das vias aéreas e portanto, maior chance de colapso durante o sono. O crescimento craniofacial é impulsionado pela genética e influenciado por fatores ambientais. O paciente com AOS apresenta várias alterações de medidas craniofaciais que podem ser detectadas através da fotografia facial. As medidas de aumento do ângulo cervicomental e da razão de altura da face inferior para superior

foram verificadas em crianças com AOS. Já nos adultos apneicos, os estudos detectam aumento das seguintes medidas: ângulo comprimento-largura da mandíbula, ângulo de profundidade da largura média da face, ângulo cervicomental e largura da face. **Conclusão** O fenótipo facial fotográfico reflete as anormalidades do esqueleto craniofacial associado à AOS, portanto, a fotografia facial mostrou ser eficiente, de baixo custo e de fácil realização para avaliação da morfologia craniofacial.

## **Introdução**

As alterações da morfologia craniofacial são fatores importantes relacionados à apneia obstrutiva do sono (AOS) pois variações do crescimento e desenvolvimento facial podem levar a um estreitamento das vias aéreas e portanto, maior chance de colapso durante o sono.<sup>1</sup> Durante os três primeiros anos de vida, o cérebro atinge aproximadamente 90% de seu crescimento e a face atinge quase 65% do tamanho adulto. O crescimento facial permanece altamente ativo até seis anos de idade. O desenvolvimento facial apresenta um segundo pico de crescimento durante a adolescência.<sup>2,3</sup> Portanto, a detecção precoce de alterações craniofaciais relacionadas à AOS é fundamental para a intervenção numa etapa do crescimento em que os tecidos da face ainda estão em processo de maturação e são moldáveis, podendo ser remodelados e redirecionados com o objetivo de manter um padrão de face normal, com vias aéreas pervias, evitando as complicações da AOS.

O objetivo deste artigo é revisar a literatura sobre o método de fotografia facial para análise da morfologia craniofacial em pacientes com AOS.

## **Métodos**

Realizada pesquisa abrangente para identificar estudos potencialmente relevantes explorando as bases eletrônicas MEDLINE e LILACS entre os anos 2005 a 2020, com descritores específicos e seus sinônimos, de acordo com os termos do Medical Subject Headings (MeSH) e Emtree (Embase Subject Headings), a saber, “Obstrutive Sleep Apnea”; “Facial Photography”, “Craniofacial Morphology”, “Facial Growth” e suas variações.

Foram relacionados 93 artigos e selecionados 18 destes para compor este artigo. A seleção dos estudos foi feita por dois avaliadores independentes. Em caso de discrepâncias, um terceiro avaliador foi consultado para obter uma decisão final. Na primeira etapa, após a busca nas bases de dados, foram removidos artigos duplicados; em seguida, os títulos e resumos foram selecionados e, finalmente, os outros artigos foram lidos na íntegra. Foram feitas buscas manuais sobre as referências dos estudos incluídos no processo de revisão final.

#### Critérios para inclusão e exclusão de artigos

Foram excluídos artigos publicados em outro idioma diferente do inglês e que não foram publicados em formato de artigo completo. Esta categoria refere-se a resumos, comentários, reuniões ou apresentações científicas, atas de simpósios, seminários, mesas redondas, postescritos, cartas aos editores, dissertações ou teses, capítulos de livros.

## Resultados

### Crescimento craniofacial e AOS

O crescimento craniofacial é determinado pela genética e influenciado por fatores ambientais. <sup>4</sup>

Em relação à genética, a agregação familiar da morfologia craniofacial em pacientes com apneia do sono foi demonstrada em alguns estudos, todos em pacientes adultos. Em estudo com 51 parentes adultos de primeiro grau de pacientes com AOS e 51 controles, utilizando polissonografia, cefalometria e reflexo acústico, os autores demonstraram que número maior de parentes de pacientes com AOS relataram ronco (24 parentes em comparação com 7 controles,  $P < 0,001$ ) e sonolência diurna (28 parentes em comparação com 16 controles,  $P = 0,01$ ). Os parentes de pacientes com AOS também apresentaram mais apneias e hipopnéias por hora, mediana de 13/h (IC95%-3 a 82/hora) em comparação com controles, mediana de 4/h (IC 0 a 53/h),  $p < 0,001$ ; mais despertares do sono - 30/h (IC 11 a 87/h) que parentes de controles - 17/h (IC 4 a 59/h),  $p < 0,001$ ; pior qualidade do sono e mais desaturações de oxigênio.

Parentes de pacientes com AOS também apresentaram vias aéreas superiores mais estreitas com maxilas retroposicionadas e mandíbulas e palato mole mais longos com úvula mais larga, sugerindo agregação familiar dessas estruturas craniofaciais. Os autores concluíram que a AOS apresenta importante componente familiar e esta tendência familiar pode ser causada por diferenças constitucionais na estrutura facial.<sup>5</sup>

A morfologia craniofacial também foi avaliada utilizando ressonância magnética. Em amostra de 55 pacientes com apneia do sono (índice de apneia-hipopneia (IAH) =  $43,2 \pm 26,3$  eventos/h), 55 irmãos de pacientes (IAH =  $11,8 \pm 16,6$  eventos/h), 55 controles sem apneia (IAH =  $2,1 \pm 1,7$  eventos/h) e 55 irmãos de controles (IAH =  $4,2 \pm 4,0$  eventos/h) os autores verificaram que o volume das paredes faríngeas laterais (herdabilidade ( $h^2$ ) = 36,8%;  $p = 0,001$ ), língua ( $h^2 = 36,5\%$ ;  $p = 0,0001$ ) e tecido mole total ( $h^2 = 37,5\%$ ;  $p = 0,0001$ ) demonstraram níveis significativos de herdabilidade após ajuste para sexo, etnia, idade, gordura visceral do pescoço e dimensões craniofaciais. Os dados também indicaram que a hereditariedade das estruturas de tecidos moles das vias aéreas superiores é encontrada tanto em indivíduos normais quanto em apneicos. Assim, não é simplesmente uma consequência da prevalência de apneia.<sup>6</sup>

A herdabilidade de estruturas faciais novamente foi encontrada em outra avaliação de 55 pares de adultos com AOS e seus irmãos e controles sem AOS e seus irmãos. Os autores utilizaram ressonância magnética e cefalometria e encontraram herdabilidade do ângulo sela-nasion-subespinal (38%,  $p = 0,002$ ), comprimento mandibular (24%,  $p = 0,02$ ), altura facial (33%,  $p = 0,006$ ), largura mandibular (30%,  $p = 0,005$ ), largura maxilar (47%,  $p < 0,001$ ) e tamanho do espaço da orofaringe (31%,  $P = 0,004$ ).<sup>7</sup> Os autores também demonstraram que o volume dos tecidos moles das vias aéreas superiores (língua, paredes laterais e tecido mole total) têm hereditariedade na ordem de 35% a 40% e que o volume dos tecidos da via aérea alta é maior em pacientes com AOS do que nos controles.<sup>7</sup>

Além do fator genético, fatores ambientais influenciam fortemente o crescimento da face. O crescimento orofacial após nascimento ocorre principalmente em dois centros de crescimento ativos: a sincondrose intermaxilar e o ligamento alveolodental. A estimulação desses dois centros é importante para a continuação do crescimento

orofacial na vida pós-natal e para o desenvolvimento de suportes ósseos para as vias aéreas superiores. Esses centros de crescimento têm-se mostrado estimulados por comportamentos específicos que ocorrem imediatamente após o nascimento: sucção e deglutição estimulam a cartilagem intermaxilar, assim como a respiração nasal e expressões faciais.<sup>4</sup>

Desta forma, os fatores ambientais como ausência de sucção adequada associada à amamentação nos primeiros meses de vida e mais tardiamente a obstrução mecânica das vias aéreas por tonsilas aumentadas, desvio de septo e outros fatores como rinite alérgica levam a um padrão de respiração oral, posição anormal da língua na boca culminando em crescimento orofacial inadequado que se perpetua na vida adulta. O remodelamento ósseo e muscular ocorre como mudanças compensatórias dos tecidos para adaptar-se às funções e geram mudanças do crescimento orofacial que perpetuam a redução da permeabilidade das vias aéreas.<sup>2,4</sup>

As alterações craniofaciais mais frequentemente associadas à AOS na infância incluem aumento do tamanho da mandíbula anteroposterior, aumento da inclinação mandibular, aumento da altura da face e aumento na angulação craniocervical.<sup>8</sup>

Estas características indicam um padrão vertical do crescimento facial devido à respiração oral, refletindo uma posição que poderia ser adotada para manter a permeabilidade das vias aéreas. Não se sabe se estas alterações são causa ou efeito da respiração oral, mas tais características podem ser marcadores da gravidade de distúrbios respiratórios do sono nas crianças.<sup>1</sup> Em estudo recente com 78 crianças, duas variáveis fotográficas mostraram evidências de correlação através da regressão linear múltipla com o IAH a saber, ângulo cervicomentar ( $p=0,001$ ) e relação de altura superior a inferior da face ( $p=0,006$ ).<sup>9</sup> Da mesma forma, ângulo subespinal, nasion e supramental (ANB) é uma variável cefalométrica útil para medir a discrepância maxilomandibular nas direções vertical e sagital e encontra-se alterado em pacientes com AOS. Na direção sagital, um aumento do ângulo ANB descreve uma maloclusão dentária de classe II (nesta classe existe relação “distal” da mandíbula em relação à maxila que pode ser por prognatismo maxilar ou retrognatismo mandibular ou ambos) e na direção vertical mostra uma rotação mandibular no sentido horário. Portanto, pode-se supor que a maior gravidade da doença levaria ao aumento do padrão de

respiração bucal que, por sua vez, afeta fortemente o crescimento esquelético com maloclusão dentária classe II. <sup>10</sup>

Durante a infância há, portanto, contínua interação entre funções oronasais alteradas e o comprometimento do crescimento orofacial, que, por sua vez, leva ao aumento do risco de colapso das vias aéreas superiores durante o sono.<sup>1</sup> As alterações nas crianças, se não tratadas precocemente se perpetuam na vida adulta. Nos adultos uma recente meta-análise demonstrou que as medidas mais alteradas são aumento na largura de mandíbula, deficiência maxilar, aumento na altura mandibular, posição inferiorizada do osso hióide, altura facial inferior aumentada, além de aumento de circunferência cervical. <sup>11</sup>

Em suma, o crescimento orofacial anormal pode ter etiologias genética ou ambientalmente induzidas, mas o reconhecimento dos fatores que conduzem às disfunções orofaciais e seu tratamento precoce é fundamental e pode diminuir a frequência da AOS tanto na população pediátrica quanto na idade adulta. O manejo destas alterações craniofaciais requer uma colaboração entre vários especialistas: otorrinolaringologistas, ortodontistas e fonoaudiólogos.

### **Avaliação da morfologia craniofacial pela fotografia facial**

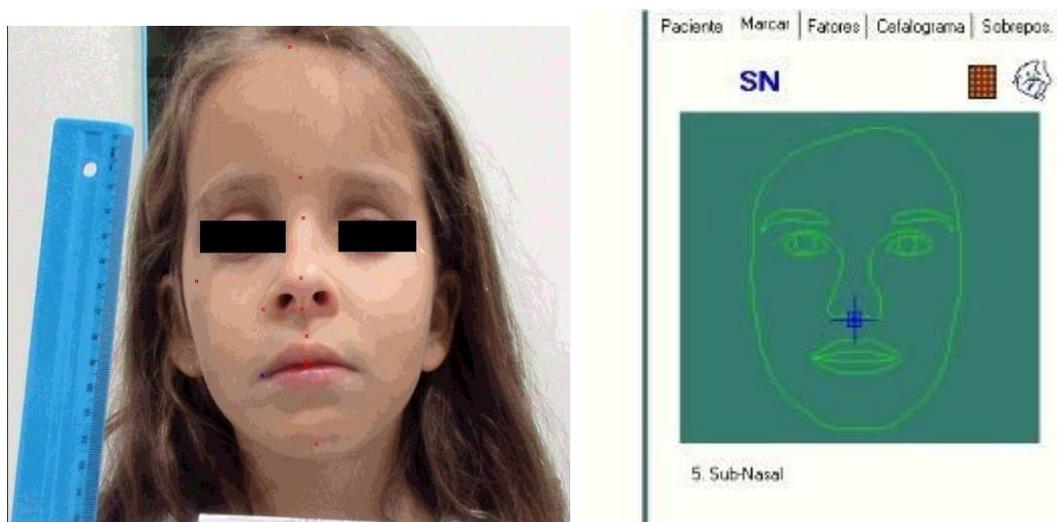
A maioria dos estudos para avaliação da morfologia craniofacial é realizada utilizando cefalometria ou ressonância magnética, sendo estes exames dificilmente acessíveis na prática clínica em países de baixa ou média renda além do inconveniente de emissão radioativa.

Com o objetivo de buscar método mais acessível, Lee e colaboradores, em 2009, idealizaram o uso da fotografia facial como ferramenta de avaliação da morfologia craniofacial. Utilizando-se de regressão logística, estes autores criaram um modelo com quatro medidas fotográficas, a saber, largura da face, largura dos olhos, ângulo cervicomentar e comprimento mandibular que classificou corretamente 76,1% dos indivíduos adultos com e sem OSA (sensibilidade 86,0%, especificidade 59,1%).<sup>12</sup>

A análise fotográfica facial é realizada utilizando fotos padronizadas da face de frente e perfil. Posteriormente são marcados pontos de referências anatômicas para avaliação das medidas através de um “software”. Os pontos anatômicos de referência

utilizados para as medidas são o trichion (tr; ponto médio da linha capilar anterior), nasion (n; ponto médio da sutura nasofrontal), ponta (t: a junção da margem inferior da crista nasal e a columela), subnasale (sn; o ponto médio da borda inferior da columela nasal), gnathion (gn; no meio da linha, o ponto mais baixo na borda inferior do queixo), o estomion (st: o ponto mediano da fenda oral quando os lábios estão fechados), tragion (tra: a margem superior do tragus da orelha), me (mento), np (pescoço), cer (cervical), zy (zygion - zigomático). A figura 1 representa uma marcação de pontos faciais através do software Studio 3<sup>®</sup> (Radiomemory, Brasil).

Figura1: Pontos marcados via software Studio 3<sup>®</sup>



Fotos do arquivo pessoal da autora

Existe variação nos ângulos e medidas analisadas pelos diversos autores. Estas medidas podem chegar a mais de setenta tipos e representam as dimensões e relações das várias regiões craniofaciais, incluindo o rosto, mandíbula, maxila, olhos, nariz, cabeça e pescoço nas dimensões sagital e vertical. A figura 2 demonstra algumas das medidas analisadas

Figura 2 – Medidas faciais



Fotos do arquivo pessoal da autora

1. Altura terço superior, 2. Altura terço médio, 3. Altura terço inferior, 4. Ângulo nasolabial, 5. Sulco mentolabial, 6. Ângulo da convexidade da face, 7. Ângulo cervicomenta

Posteriormente outros estudos também demonstraram associação entre alterações das medidas da face e AOS. Na avaliação de 114 pacientes adultos com AOS e 66 controles, os autores encontraram as medidas comprimento mandibular ( $p < 0.0001$ ), ângulo nasion-mandibular ( $p = 0.006$ ) e área do espaço anterior do pescoço ( $p = 0.01$ ) menores no grupo com AOS. As medidas do ângulo comprimento-largura da mandíbula ( $P = 0.005$ ), ângulo da largura do terço médio da face ( $p = 0.01$ ) foram maiores no grupo AOS.<sup>13</sup>

Sutherland e colaboradores verificaram em estudo com cento e quarenta pacientes com AOS (IAH  $45.4 \pm 19.7$  h), média de idade  $56.1 \pm 10.4$  anos, índice de massa corporal (IMC)  $33.5 \pm 5.05$  kg/m<sup>2</sup>, correlação positiva entre fotografia facial e ressonância magnética nas medidas relação maxilo-mandibular ( $r = 0,8$ ;  $p < 0,0001$ ), altura da face inferior ( $r = 0,76$ ;  $p < 0,0001$ ), comprimento mandibular ( $r = 0,67$ ;  $p <$

0,0001) e volume de língua ( $r = 0,52$ ;  $p = 0,01$ ) e concluíram que o fenótipo facial fotográfico reflete as anormalidades do esqueleto craniofacial associado à AOS.<sup>14</sup>

As medidas faciais analisadas por fotografia facial também foram consideradas fatores preditores de AOS em população de pacientes chineses. Neste estudo com duzentos pacientes, verificou-se através da regressão logística que as medidas ângulo cervicomentar (OR 1,06/grau, IC 95%: 1,03-1,09,  $p < 0,001$ ) e largura da face (OR 1,7/ cm, IC 95%: 1,1-2,7,  $p = 0,02$ ) foram preditores de AOS.<sup>15</sup> Outra pesquisa com 252 pacientes caucasianos (média de 40,6 anos) também demonstrou que pacientes com tipo II de face (braquicefálico – face curta) apresentavam maiores IAH em relação ao tipo III (dolicocefálico- face longa) ou tipo I (face normal)  $p = 0,04$ .<sup>16</sup> A fotografia facial pode ser usada também para estudo de morfologia facial em pacientes obesos. As medidas de ângulos faciais e altura não são influenciadas por mudanças no peso de pacientes, já a largura facial ( $r = 0,3$ ,  $p < 0,001$ ), largura mandibular ( $r = 0,4$ ,  $p < 0,001$ ) e o ângulo cervicomentar ( $r = 0,3$ ,  $p = 0,001$ ) sofrem influência.<sup>17</sup>

A análise fotográfica facial pode ser utilizada para a definição de fenótipos extremos em AOS. Utilizando 81.338 pacientes do Sleep Apnea Global Interdisciplinary Consortium, casos extremos foram definidos como os indivíduos com IAH maior que 30 eventos/hora, mas baixa probabilidade de AOS com base na idade, sexo e IMC. Da mesma forma, os controles extremos eram indivíduos com um IAH menor que 5 eventos/hora, mas alta probabilidade de AOS. Verificaram que os casos extremos eram pessoas mais jovens (43,1 anos), com sobrepeso (28,6 kg/m<sup>2</sup>) e predomínio do sexo feminino (71,1%). Os controles extremos eram mais velhos (53,8 anos), obesos (34,0 kg/m<sup>2</sup>) e predominantemente homens (65,8%). A análise fotográfica dos grupos

sugeriu que um ângulo mental maior eleva o risco para AOS na ausência de fatores de risco clínicos, e larguras faciais menores são protetoras na presença de fatores de risco clínicos.<sup>18</sup>

Existem poucos estudos sobre a morfologia cranifacial em crianças utilizando como método de análise a fotografia facial. Koca e colaboradores avaliaram a relação das medidas faciais e o tamanho das tonsilas faríngeas em amostra de noventa e sete crianças que apresentavam tonsilas faríngeas entre 25 e 100% de obstrução do cávum (4-12 anos) e 90 controles que apresentavam entre 0 e 25% de obstrução (4-12 anos). Os resultados mostraram aumento significativo na altura da face anterior e mandíbula retroposicionada e com rotação posterior no grupo de tonsilas faríngeas aumentadas.<sup>19</sup> Existe apenas um artigo utilizando a fotografia facial para análise da morfologia craniofacial em crianças com AOS, média de idade  $7.2 \pm 3.4$  anos, e os autores verificaram que algumas medidas faciais são relacionadas à severidade dos distúrbios respiratórios do sono (DRS), especificamente o aumento do ângulo cervicomentar ( $p=0,001$ ) e o aumento da razão de altura da face inferior para superior ( $p=0,006$ ).<sup>9</sup>

## **Discussão**

O paciente com AOS apresenta várias alterações de medidas craniofaciais que podem ser detectadas através da fotografia facial. Os estudos com análise fotográfica verificaram aumento do ângulo cervicomentar e da razão de altura da face inferior para superior nas crianças apneicas. Já nos adultos, os estudos mostraram aumento das seguintes medidas: ângulo comprimento-largura da mandíbula, ângulo de profundidade da largura média da face, ângulo cervicomentar e largura da face.

Estas alterações das medidas faciais são associadas com fatores de risco anatômicos para AOS. O ângulo comprimento-altura da mandíbula e o ângulo de profundidade da largura média da face capturam a obesidade regional facial e deficiência mandibular.<sup>12</sup> A largura da face aumentada também reflete obesidade regional. O aumento do ângulo cervicomentar é associado à deposição de gordura na região anterior do pescoço e posição inferiorizada do osso hióide.<sup>9,13</sup>

Observa-se nos artigos a variação das medidas faciais analisadas por cada autor, bem como formas variadas de padronização da fotografia, o que dificulta a avaliação conjunta dos dados dos artigos. Seria interessante a padronização do método para melhor análise das variáveis em diferentes populações. Um ponto positivo da fotografia facial, encontrado pela maioria dos autores, é que o método apresenta boa reprodutibilidade em medições repetidas por diferentes examinadores ou pelo mesmo examinador em tempos diferentes, demonstrado pelo alto coeficiente de correlação intraclassa (0,89-0,99), o que o torna confiável para as análises.<sup>14,18,9,15</sup>

Existem poucos trabalhos na literatura utilizando a fotografia facial em crianças e devido às características do método de ausência de irradiação e custo reduzido recomenda-se sua utilização em novos estudos de morfologia craniofacial nesta faixa etária.

## **Considerações finais**

A detecção de alterações na morfologia craniofacial, especialmente em crianças, onde os tecidos ainda podem sofrer remodelação, é parte fundamental para o tratamento precoce.

A fotografia facial identifica as anormalidades do esqueleto craniofacial associado à AOS e por ser eficiente e de custo reduzido pode ser inserida na prática clínica na avaliação de pacientes com distúrbios respiratórios do sono.

## Referências

1. Guilleminault C, Huang YS. From oral facial dysfunction to dysmorphism and the onset of pediatric OSA. *Sleep Med Rev.* 2018;40:203-214. doi:10.1016/j.smr.2017.06.008
2. Manlove AE, Romeo G, Venugopalan SR. Craniofacial Growth: Current Theories and Influence on Management. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 2020;32(2):167-175. doi:10.1016/j.coms.2020.01.007
3. Trosman I, Trosman SJ. Cognitive and Behavioral Consequences of Sleep Disordered Breathing in Children. *Med Sci.* 2017;5(4):30. doi:10.3390/medsci5040030
4. Guilleminault C, Sullivan SS, Huang Y shu. Sleep-Disordered Breathing, Orofacial Growth, and Prevention of Obstructive Sleep Apnea. *Sleep Med Clin.* 2019;14(1):13-20. doi:10.1016/j.jsmc.2018.11.002
5. Mathur R DN. Family studies in patients with the sleep apnea- hypopnea syndrome. *Ann Intern Med.* 1995;122:174-178.
6. Schwab RJ, Pasirstein M, Kaplan L, et al. Family aggregation of upper airway soft tissue structures in normal subjects and patients with sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med.* 2006;173(4):453-463. doi:10.1164/rccm.200412-1736OC
7. Chi L, Comyn F-L, Keenan BT, et al. Heritability of Craniofacial Structures in Normal Subjects and Patients with Sleep Apnea. *Sleep.* 2014;37(10):1689-1698. doi:10.5665/sleep.4082
8. Katyal V, Pamula Y, Martin AJ, Daynes CN, Kennedy JD, Sampson WJ. Craniofacial and upper airway morphology in pediatric sleep-disordered breathing: Systematic review and meta-analysis. *Am J Orthod Dentofac Orthop.* 2013;143(1):20-30.e3. doi:10.1016/j.ajodo.2012.08.021
9. Sutherland K, Weichard AJ, Davey MJ, Horne RS, Cistulli PA, Nixon GM. Craniofacial photography and association with sleep-disordered breathing

- severity in children. *Sleep Breath.* 2020;Sep;24(3):1173-1179. doi:10.1007/s11325-019-01928-x
10. Galeotti A, Festa P, Viarani V, et al. Correlation between cephalometric variables and obstructive sleep apnoea severity in children. *Eur J Paediatr Dent.* 2019;20(1):43-47. doi:10.23804/ejpd.2019.20.01.09
  11. Agha B, Johal A. Facial phenotype in obstructive sleep apnea–hypopnea syndrome: a systematic review and meta-analysis. *J Sleep Res.* 2017;26(2):122-131. doi:10.1111/jsr.12485
  12. Lee RWW, Petocz P, Prvan T, Chan ASL, Grunstein RR, Cistulli PA. Prediction of Obstructive Sleep Apnea with Craniofacial Photographic Analysis. *Sleep.* 2009;32(1):46-52. doi:10.5665/sleep/32.1.46
  13. Lee RWW, Chan ASL, Grunstein RR, Cistulli PA. Craniofacial Phenotyping in Obstructive Sleep Apnea – A Novel Quantitative Photographic Approach. *Sleep.* 2009;32(1):37-45.
  14. Sutherland K, Schwab RJ, Maislin G, et al. Facial Phenotyping by Quantitative Photography Reflects Craniofacial Morphology Measured on Magnetic Resonance Imaging in Icelandic Sleep Apnea Patients. *Sleep.* 2014;37(5):959-968. doi:10.5665/sleep.3670
  15. Sutherland K, Lee RWW, Petocz P, et al. Craniofacial phenotyping for prediction of obstructive sleep apnoea in a Chinese population. *Respirology.* 2016;21(6):1118-1125. doi:10.1111/resp.12792
  16. Capistrano A, Cordeiro A, Filho LC, et al. Facial morphology and obstructive sleep apnea. *Dental Press J Orthod.* 2015;20(6):60-67. doi:10.1590/2177-6709.20.6.060-067.oar
  17. Sutherland K, Chapman JL, Cayanan EA, et al. Parsing the craniofacial phenotype: effect of weight change in an obstructive sleep apnoea population. doi:10.1007/s11325-019-01826-2/Published
  18. Rizzatti FG, Mazzotti DR, Mindel J, et al. Defining Extreme Phenotypes of OSA Across International Sleep Centers. *Chest.* 2020;158(3):1187-1197. doi:10.1016/j.chest.2020.03.055
  19. Koca CF, Erdem T, Bayındır T. The effect of adenoid hypertrophy on maxillofacial development: An objective photographic analysis. *J Otolaryngol - Head Neck Surg.* 2016;45(1):1-8. doi:10.1186/s40463-016-0161-3

## **2.2 Artigo de revisão 2 - Abordagem precoce da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono (SAOS) pelo pediatra e a interação com o especialista em Medicina do Sono**

Este segundo artigo de revisão apresenta uma revisão sobre a SAOS na infância e a importância do Pediatra na detecção precoce da SAOS. Este artigo foi submetido ao periódico *Jornal de Pediatria* em 14/06/2021 e encontra-se em análise. A declaração de submissão encontra-se no Anexo I.

### **Early management of obstructive sleep apnea syndrome by pediatricians and interactions with sleep medicine specialists**

#### **ABSTRACT**

**Objective:** The objective of this study is to provide pediatricians with key-points for the recognition of children at risk for obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) and information on diagnosis and treatment through a collaboration with otorhinolaryngologists and/or sleep medicine specialists.

**Sources:** A search was performed for articles published between 2010 and 2020 and available in the MEDLINE and LILACS databases, using specific keywords, based on Medical Subject Headings (MeSH) and Embase Subject Headings (Emtree): “child”, “pediatrics”, “obstructive sleep apnea”, “obesity”, “adenotonsillar hypertrophy”, “craniofacial abnormalities”, “allergic rhinitis”, and their variations. A total of 225 articles in English, Spanish and/or Portuguese were considered, of which 45 were selected for inclusion in this study.

**Conclusions:** Obstructive sleep apnea syndrome is a condition with multifactorial etiology. The study of each risk factor and associated comorbidities, as well as continuous patient monitoring, are therefore critical for therapeutic planning. Pediatricians have a fundamental role in the early diagnosis and treatment of OSAS

due to their proximity to families and routine assessments since an early age. The interactions among pediatricians, otorhinolaryngologists, orthodontists and sleep medicine specialists effectively contribute to the adequate management of childhood OSAS.

Key words: obstructive sleep apnea, child, treatment

## **Introduction**

Obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) is a disorder characterized by reduction or absence of airflow secondary to partial (hypopnea) or total (apnea) upper airways obstruction during sleep. It usually results in oxyhemoglobin desaturation, frequent nocturnal awakenings, and excessive daytime sleepiness.<sup>1,2</sup>

Habitual snoring, defined as frequent snoring occurring more than 3 nights per week, is a common in children with OSAS, and its prevalence in the pediatric population is 10% to 12%.<sup>1</sup> It is estimated that 20% of children who frequently snore have OSAS, and the prevalence in children is reported to be between 1% and 5%, with a peak between 2-8 years of age and a predominance in males.<sup>1</sup>

OSAS has significant morbidity, with great potential for a negative impact on long-term cognitive and behavioral development, as well as cardiovascular and metabolic consequences.

Given its high prevalence and numerous repercussions, early suspicion, definitive diagnosis and early treatment of OSAS are essential. Sleep medicine is a new field of activity in low- and middle-income countries, including Brazil, where it was established only in 2016. According to Brazilian Sleep Society a recent survey, there are approximately only 400 physicians working in this field in the country, the majority concentrated in capitals or large cities. As the number of active pediatricians is much higher and these are the professionals with greater access to children and their families since the first years of life, they can play a strategic role in the suspicion and even prompt identification of OSAS. Pediatrics is a medical specialty that is traditionally and historically characterized by preventive action, promoting and protecting the health of the child through comprehensive care. In addition to evaluating and stimulating full development, it also considers the family and the environment,

analyzing the biopsychosociocultural factors affecting the child. Family members are typically present during pediatric consultations, and thus during it the physical-constitutional aspects of sleep disorders present in parents and relatives, can be investigated, analyzed and, if there are inheritable characteristics, preventive action can be taken.

Pediatricians should be able to detect sleep disorders early. Two studies conducted in the United States and Italy with primary care pediatricians evaluated screening practices for sleep problems.<sup>2,3</sup> Although both studies showed that pediatricians regularly inquired about sleep problems, it was also notable that most professionals interviewed used only a single question about sleep concerns. The questions most frequently used varied with the age of the child, and, unfortunately, snoring assessment was not common, as only 27% of pediatricians asked about it.<sup>4</sup> In addition, pediatricians focused on spontaneous parental reporting of sleep, and only one-third of pediatricians directly inquired about the sleep of children and adolescents.<sup>3</sup>

The American Thoracic Society recommends the establishment of educational campaigns aimed at the public and physicians in general on the importance of clinical suspicion and even early identification of children and adults at high risk of OSAS due to the profound implications of untreated OSAS on individual and public health.<sup>5</sup> Teaching sleep medicine is seldom in most of medical schools; therefore, medical training in this field is still lacking. In the United States, medical schools spend a total of 187 curricular minutes addressing sleep disorders, with only 15% of these focused on their manifestations in the pediatric population.<sup>46</sup> The most recent study, conducted in 400 medical schools from twelve different countries, found that the average time spent on teaching sleep medicine was only 146 minutes, with an average of only 5% of this time dedicated to pediatrics. Less than half (44%) of these programs reported including the topic of sleep disorders in children in the curriculum. Although minimal, further education on sleep disorders is taught during pediatric residency, with reports of an average of 4.4 hours internationally and between 2.7 and 4.8 hours in the United States.<sup>6</sup> However, 23% of international programs and 46% of US programs did not report covering sleep in children and adolescents.<sup>7</sup>

The objective of this narrative review is to provide pediatricians with key-points for the recognition of children at risk for OSAS, and information on diagnosis and treatment looking at a proactive partnership with otorhinolaryngologists/sleep medicine specialists.

## **Methods**

A search for articles published between 2010 and 2020 and available in the MEDLINE and LILACS databases was performed using specific keywords and their synonyms, according to the Medical Subject Headings (MeSH) and Embase Subject Headings (Emtree) terms: “child”, “pediatrics”, “obstructive sleep apnea”, “obesity”, “adenotonsillar hypertrophy”, “craniofacial abnormalities”, and “allergic rhinitis”.

A total of 225 articles were found, of which 46 were selected for inclusion in this study. Articles considered pivotal, even if published more than 10 years ago, were included in this review. The selection of studies was made by two independent evaluators, according to the pre-established criteria. In case of discrepancies, a third evaluator was consulted to obtain a final decision. In the first stage, after searching the databases, duplicate articles were removed; then the titles and abstracts were selected and, finally, the other articles were read in full. Manual searches were made about the references of the studies included in the final review process. Because the purpose of this narrative review was to critically review the available literature and provide the clinicians a practical summary of SAOS in children, the search was expanded to include prospective and retrospective studies, randomized controlled trials (RCT), reviews, and editorials.

### *Criteria for inclusion and exclusion of articles*

We included exclusively those articles whose studied population comprised children and adolescents under 18 years of age addressing issues on etiology, diagnosis and management of obstructive sleep apnea, while papers published in a language other than English, and which were not published in full paper format were excluded. This category refers to abstracts, comments, meetings or scientific presentations, minutes

of symposia, seminars, round tables, postscripts, letters to editors, dissertations or theses, book chapters.

### *When to suspect OSAS in children?*

OSAS can manifest with different symptoms. Wu et al. identified three OSAS clusters. Cluster 1 was named the "nocturnal snoring and daytime sleepiness group". The individuals who were included in this cluster had the highest probability of heavy snoring and daytime sleepiness. The children manifested loud snoring (86.7%), loud breathing (97.8%), and snoring for more than half of the sleep time (84.4%). Other symptoms, such as difficulty waking up (78%), feeling sleepy upon waking up (80.0%) and morning fatigue (67.8%), were also prominent.

Cluster 2 was called "hyperactivity group". The members of this group showed behavioral problems such as excessive movements during sleep (74.0%), frequent fidgeting with hands or feet or habit of squirming in seat (90.4%), excessive limb movements (86.5%), talkativeness (79.5%), short temper (62.2%), nuisance behavior (82.7%), and absent-mindedness (71.2%).

Cluster 3 was named "minimally symptomatic group".

The apnea-hypopnea index (AHI) revealed by polysomnography alone is not adequate to characterize these three clinical phenotypes.<sup>8</sup> Therefore, OSAS in the pediatric population has variable symptomatology, and the combination of these symptoms with predisposing factors identified by clinical examination and anamnesis is important to advance its diagnosis.

### *Pathophysiology*

Combined anatomical and functional factors determine the narrowing and collapse of the pharynx, the main site of obstruction of upper airways (UA). Two fundamental components are considered: the volumetric and spatial relationships of the UA and the neuromuscular changes. Reduced nasal and oropharyngeal air space resulting from increased soft tissues (tonsil and adenoid hypertrophy, increased peripharyngeal adipose tissue) or bone disproportions (ogival palate and micrognathia), in addition to

nasal obstruction (deviated septum). The later cause increased airflow resistance in the UA and, consequently, increase the negative intrathoracic pressure without ensuring the entry of a normal tidal volume. Such an increase in negative intraluminal pressure aggravates the narrowing of the pharynx, which due to vacuum, results in its collapse. Structural changes in pharyngeal muscle fibers are additional factors for the occurrence of OSAS<sup>9</sup>

### *Predisposing factors*

#### *Adenotonsillar hypertrophy*

Adenotonsillar hypertrophy is the most common cause of OSAS in children. It contributes to the narrowing of the retropalatal area, which is the smallest transverse area in the UA and, therefore, is the most frequent site of obstruction. The lymphoid tissue of Waldeyer's ring is more developed between three and six years of age, coinciding with the peak incidence of OSAS.<sup>9,10</sup>

#### *Obesity*

Obesity is one of the most important risk factors for childhood OSAS and predisposes children to it through two main mechanisms. First, the presence of fat adjacent to the pharyngeal soft tissue reduces the caliber of the pharyngeal lumen and favors airway collapse. Second, the increase in fat in the chest and abdominal walls significantly restricts the respiratory function in these patients, caused by decreased lung volume and consequent reduction in tracheal traction. Evidence suggests that each increase in body mass index (BMI) above the 50th percentile is associated with an approximately 10% increase in the risk of OSAS.<sup>10</sup>

#### *Allergic rhinitis*

Allergic rhinitis can also affect sleep in several ways. The most common symptom of allergic rhinitis is nasal obstruction, followed by serous rhinorrhea, and nasal and ocular pruritus. Nasal congestion caused by mucosal inflammation leads to mouth breathing, fragmented sleep and daytime fatigue. Allergic rhinitis reduces the duration of the REM sleep phase, which is related to memory consolidation and learning.<sup>11</sup> A meta-analysis that evaluated the association between allergic rhinitis and obstructive

sleep apnea included 44 studies and 6,086 participants and found that the incidence of allergic rhinitis was 2.12 times higher in patients with sleep-disordered breathing.<sup>12</sup>

### *Changes in orofacial growth*

Changes in facial growth may lead to airway narrowing and therefore a greater chance of airway collapse during sleep. Down, Prader-Willi and Beckwith-Wiedemann syndromes are strongly associated with OSAS.

Facial growth is closely associated with the nasal breathing pattern. From birth, nasal breathing is not the only function with a very important role in orofacial development. Coordination between nasal breathing and sucking develops very early in life. Both play an important role in stimulating the structures involved in maxillary growth. At approximately six months of age, chewing is an additional stimulus, with the development of active swallowing and apraxia involving the tongue and swallowing. Changes in these functions increase the risk of abnormal development of the bone structures that support the upper airways. Such abnormalities have a stronger impact during early childhood, since the majority of the growth of the human face occurs between birth and six years of age, with a second peak during puberty. Abnormal orofacial growth induced by chewing and sucking dysfunction and an oral breathing pattern leads to the development of a volumetrically smaller UA, with increased risk of collapse during sleep. In addition, there is a progressive worsening of dysmorphia and with it a slow worsening of disordered breathing during sleep over time.<sup>13</sup>

A greater OSAS severity leads to increased oral breathing, which in turn markedly affects skeletal growth, with a greater tendency for vertical facial growth. A significant correlation was found between a smaller upper nasopharyngeal width and vertical maxillomandibular skeletal discrepancy. These results corroborate the existence of a correlation between OSAS and craniofacial characteristics, even though the cause-effect relationship is not yet clearly established in the literature.<sup>14</sup>

During childhood, therefore, there is a continuous interaction between altered oronasal functions and impaired orofacial growth, which, in turn, leads to an increased risk of UA collapse during sleep.

In summary, abnormal orofacial growth may have genetic or environmental etiologies, but recognition of the factors that lead to orofacial dysfunctions and their early treatment in life may decrease the frequency of OSAS in the pediatric population.

### *Genetic factors*

The significant variation in the degree of morbidity and symptomatology in patients with the same OSAS severity highlights the importance of the interaction between genetic and anatomical factors in determining the OSAS phenotype.

The relative uniformity and familial aggregation of craniofacial morphology in patients with sleep apnea has been demonstrated in several studies. No studies on heritability in children were found in our literature search; therefore, only studies conducted with adults will be addressed.

In a study with 51 adult first-degree relatives of patients with OSAS and 51 unrelated controls, using polysomnography, cephalometry and acoustic reflectometry, Mathur et al. showed that adult relatives of patients with OSAS had worse sleep quality and higher AHI, arousals, and oxyhemoglobin desaturations compared to controls. First-degree relatives of patients with sleep-disordered breathing also had cephalometric changes (narrower UA, retroposed maxilla and mandible and longer soft palate), suggesting familial aggregation of these craniofacial structures. The authors concluded that OSAS has an important familial component, and this trend may be caused by constitutional similarities in the facial structure.<sup>15</sup> Chi et al. conducted a study with 55 adult patients with OSAS, 55 siblings of patients with OSAS, 55 controls and 55 control siblings. Through analysis of craniofacial structures by magnetic resonance imaging and cephalometry, they found heritability of several facial structures: sella-nasion-subspinal angle (38%,  $P = 0.002$ ), mandibular length (24%,  $P = 0.02$ ), facial height (33%,  $P = 0.006$ ), mandibular width (30%,  $P = 0.005$ ), maxillary width (47%,  $P < 0.001$ ) and oropharyngeal area (31%,  $P = 0.004$ ).<sup>16</sup> In this same sample, the authors also demonstrated that the volume of the UA soft tissues (tongue, lateral walls and total soft tissue) has a heritability of 35% to 40% and that the volume of the UA tissues is higher in patients with OSAS than in controls.<sup>17</sup>

The familial aggregation of OSAS is recognized, and its genetic influence varies from 21 to 84% in two studies with American adult patients.<sup>18</sup> Among the studies that

included controls, the odds ratio (OR), corresponding to the probable existence of an individual with OSAS in a family with affected relatives relative to the likelihood of someone without affected relatives, ranged from 2.0 to 46.0. In the Cleveland study, 561 adult members from 91 families were studied. Of all 91 families, 32 (35%) had two or more members with sleep-disordered breathing, 30 others (33%) had one affected member, and the remaining 29 had no affected member. Sleep-disordered breathing was more prevalent among relatives (21%) than controls (12%) ( $p = 0.02$ ).<sup>18</sup> In another study with 71 adult twins, the heritability of the AHI ranged from 69% to 83%, while OSAS defined by an AHI  $\geq 5$  events/h, was 73% hereditary.<sup>19</sup>

In Brazil, only one study on OSAS heritability has been conducted so far. The authors studied 587 participants (399 women) from 91 families, with a median of 4 (2-8) participants per family. The mean age was 44 years (IQR, 29-55). OSAS was diagnosed in 18.6% of participants. The heritability of AHI in this population with low levels of obesity was 25%; that is, the chance of a family member having OSAS if another family member has the disease is 25%.<sup>20</sup>

Therefore, it is reasonable to presume that children with morphological characteristics similar to those of parents and relatives with OSAS would present with the same disease or, if there are no changes in the inherited patterns, would become apneic in the future. This hypothesis needs to be investigated in future studies.

*What are the main consequences of OSAS in children?*

*Behavioral and cognitive disorders and school performance*

Regarding behavioral disorders, a systematic review that included 16 studies revealed that children with OSAS have a higher frequency of hyperactivity, depression, mood disorders and inattention.<sup>21,22</sup> Currently, it is still unclear whether sleep disorders are intrinsic to attention deficit hyperactivity disorder (ADHD), whether they are secondary to a comorbid sleep disorder, or whether sleep disorders cause symptoms similar to ADHD and, therefore, result in a misdiagnosis.

A meta-analysis of 18 studies was conducted to assess the relationship between symptoms of OSAS and ADHD and the extent of change in ADHD symptoms before

and after adenotonsillectomy. The findings of this study suggested that ADHD symptoms were related to OSAS and improved after adenotonsillectomy. However, a recent study called the Childhood Adenotonsillectomy Trial (CHAT) showed no statistically significant improvement in attention or executive function in children with non-severe OSAS after adenotonsillectomy, as measured by neuropsychological tests<sup>23</sup>

The school performance between groups with OSAS and controls is significantly different. This was demonstrated in a study with 256 Chilean children, where the group with OSAS had worse school performance in math (OR: 3.1), science (OR: 4.2), language and arts (OR: 4.2).<sup>24</sup> In turn, Hunter et al. evaluated 1010 children aged 5-7 years and found a positive correlation between higher AHI and worse cognitive functions. In that study, children were subdivided into four severity groups based on the AHI, followed by comparisons of cognitive function, with a special focus on standardized subtests of intellectual, language, attention, memory, and executive function. Scales of verbal ( $P < 0.001$ ) and nonverbal ( $P = 0.002$ ) performance, as well as the global conceptual ability (IQ) scores ( $P < 0.001$ ), differed significantly among groups, with individuals with higher AHI presenting worse performance. In addition, a neuropsychological evaluation of development called specific NEPSY, focused on attention and executive skills, differed among the groups, indicating differences in the levels of engagement and problem-solving. Children with AHI  $> 5$  events/h were significantly more impaired than all three lower AHI groups, indicating a dose-response impact of OSAS.<sup>25</sup>

In another study with 1205 children with a mean age of 8 years, the prevalence of OSAS was 17.5%. This prevalence was higher among children with academic difficulties classified 'below'/'well below' the expected progress for reading, writing and math (24.0%, 31.0% and 27.5%), with increased odds for poor progress of 1.9, 1.8 and 2.4, respectively.<sup>26</sup>

There are few studies on the pathophysiology of OSAS and behavioral disorders. Beebe and Gozal proposed a causal model to explain the negative behavioral outcomes for children with untreated OSAS, based on studies in humans and animals related to the consequences of sleep disruption, intermittent hypoxia and hypercapnia. The authors believe that these characteristics of OSAS impact cellular and chemical

processes, which can then interrupt prefrontal cortical function. The authors suggest that prefrontal cortex dysfunction impacts the executive domain, which, in turn, leads to daytime deficit in the behavioral, cognitive and academic domains.<sup>27</sup>

### *Cardiovascular and metabolic changes*

Children with OSAS exhibit sudden increases in systemic blood pressure and heart rate immediately after obstructive respiratory events that occur during sleep. Moreover, the relationship between OSAS and obesity, insulin resistance, dyslipidemia and arterial hypertension reinforces the role that OSAS may play in the development of metabolic syndrome. The mechanisms of metabolic disturbance due to OSAS include increase in serum cortisol production and in sympathetic activity secondary to the activation of the stress response system, including the hypothalamic-pituitary-adrenocortical (HPA) axis. OSAS can also aggravate obesity. Fragmented sleep and decreased amount of sleep result in daytime sleepiness, which may limit physical activity. It can also alter the dynamics of hormones that control hunger and satiety, including leptin and ghrelin, which play an important role in regulating body weight.<sup>22</sup>

### *Diagnosis*

The diagnosis of pediatric OSAS includes a detailed clinical history, neurobehavioral assessment, occurrence of daytime and nighttime symptoms, presence of comorbidities, and application of specific questionnaires. A general physical examination focusing on the nose and throat is essential for the diagnosis of anatomical changes. The study of behavioral and performance changes in school period described above helps to compose the presumptive diagnosis of OSAS. Whenever possible, the patient's teacher should be contacted by the family and/or pediatrician to obtain a more detailed diagnosis of the child's behavior and to monitor the effectiveness of treatment during school activities.

### *Questionnaires*

There are questionnaires that can be used in clinical practice to help assess both OSAS and sleep quality in children. These include the Pediatric Obstructive Sleep

Apnea Screening Tool (PosaST) and the Children's Sleep Habits Questionnaire (CSHQ), both validated in Portuguese. The questionnaires aim to standardize the management of children with suspected OSAS, and because they have already been validated in Portuguese, they facilitate communication between pediatricians and family members.

The PosaST is a simple questionnaire that contains six questions to be answered by parents about the day-to-day sleep of the child. The original questionnaire was translated and validated for the Portuguese language and contains six questions addressed to parents and score on a Likert scale as "never" (score 0), "rarely" (once a week; 1 point), "occasionally" (twice a week; 2 points), "frequently" (three to four times a week; 3 points) and "almost always" (more than 4 times a week; 4 points). In turn, the sixth question that considers snoring intensity is scored as follows: mildly/quiet: 0 points; medium loud: 1 point; loud: 2 points; very loud: 3 points; and extremely loud: 4 points.<sup>28</sup> The result is given by the cumulative score, represented by the mean of all six questions according to the following formula:  $A = (Q1 + Q2)/2$ ;  $B = (A + Q3)/2$ ;  $C = (B + Q4)/2$ ;  $D = (C + Q5)/2$  and the cumulative score =  $(D + Q6)/2$ , where Q1 corresponds to question 1, Q2 corresponds to question 2, and so on.<sup>28</sup> The result is obtained with a cumulative score  $\geq 2.72$  indicative of a high risk for moderate or severe OSAS. The validation of the PosaST in Brazil was performed in comparison with polysomnography, the gold standard test for OSAS; its internal consistency evaluated by Cronbach's  $\alpha$  was 0.84 (95% CI 0.78 - 0.90).<sup>28</sup>

The CSHQ was developed by American researchers to evaluate the sleep behavior of school-age children and has been validated in Brazil. The questions were selected to include the presentations of the most common symptoms of childhood sleep disorders, according to the International Classification of Sleep Disorders. Of the 45 initial items, 33 were conceptually grouped into eight subscales, reflecting the following sleep domains: bedtime resistance; sleep onset delay; sleep duration; sleep anxiety; night wakings; parasomnias (night terrors, sleepwalking, sleeptalking); sleep-disordered breathing; and daytime sleepiness.<sup>29,30</sup> The higher the score, the greater the chance of sleep disorders.

*What should be evaluated in the clinical examination in suspected OSAS?*

During the initial clinical evaluation of the patient with a diagnosis or suspicion of OSAS, the pediatrician should take general anthropometric measurements, such as BMI body mass index and neck and abdominal circumferences.

The physical exam and complementary exams will be illustrated by a brief clinical case report. This is the case of D.L.S.D, boy, six years old. The mother reports frequent, high-intensity night snores and nocturnal mouth breathing. She says that the child has restless sleep and that she realizes occasional respiratory pauses. During the daytime he has irritability and resistance to the fulfillment of requests and orders.

Adenotonsillar hypertrophy is the main cause of childhood OSAS, so it is important to classify the size of the tonsils. Adenoids are best evaluated by videolaryngoscopy. Palatine tonsils are classified according to Brodsky's criteria as follows: grade I - tonsils located slightly beyond the tonsillar fossa, occupying less than 25% of the area between the pillars of the tonsillar fossa; grade II - tonsils readily visible, occupying 25% to 50% of the area between the pillars; grade III - tonsils occupying 50% to 75% of the area between the pillars; and grade IV - tonsils occupying more than 75% of the area between the pillars.<sup>31</sup>



Fig. 1 - Adenotonsillar hypertrophy: Brodsky score II

The modified Mallampati index (mMI) evaluates the relationship between pharyngeal space and tongue size. A high mMI is associated with a higher risk of OSAS. The index was proposed by Friedmann and classified into four classes: in class I, the entire

oropharynx is visible, including the lower pole of the palatine tonsils; in class II, the soft palate, upper part of the tonsils and the uvula are visible; in class III, only the soft palate and the base of the uvula are visible; and in class IV, only the hard palate and part of the soft palate are visible, not the posterior oropharyngeal wall nor the insertion of the uvula.<sup>32</sup>



Fig.2 – Mallampati's score III

Angle's classification evaluates the anteroposterior maxillomandibular relationship. In class I or neutroclusion, there is a normal relationship between the mandible and maxilla in the anteroposterior direction and the skull base. In class II or distoclusion, there is a distal relationship between the mandible and the maxilla and maxillary prognathism or mandibular retrognathism or both may occur. In class III or mesiocclusion, there is a mesial relationship of the mandible relative to the maxilla, with mandibular prognathism, maxillary retrognathism or both.<sup>33</sup>



Fig.3 – Angle's class I

### *Complementary exams*

#### *Video nasolaryngoscopy*

It is performed using a flexible fiber-optic nasolaryngoscope. It is a quick examination performed with topical anesthesia in the office by an otorhinolaryngologist.

This exam evaluates the obstruction of the cavum by the pharyngeal tonsils, in addition to evaluating nasal obstruction due to a deviated septum or other changes, such as nasal polyps, large palatine tonsils, tongue base hyperplasia or laryngeal malformations.



Fig. 4 - Videonasopharyngoscopy showing adenoids occupying 90% of the cavum

#### *Facial photography*

Facial photography is a method for diagnosing facial growth changes related to airway reduction. It can substitute cephalometry, which is a radiological examination, thus requiring irradiation of the patient. Facial photography showed a significant association in craniofacial measurements with magnetic resonance imaging. The method has the advantages of being simple, not needing specialized equipment and is quick to perform and analyze, in addition to having reduced cost. The facial photographic phenotype reflects underlying craniofacial skeleton abnormalities associated with OSAS. Craniofacial skeletal changes associated with OSAS also include an increased anteroposterior mandible relationship, increased mandibular inclination and increased

facial height. These characteristics indicate a vertical pattern of facial growth due to mouth breathing and increased craniocervical angulation, reflecting a position that may be adopted to maintain airway permeability. It is not yet known whether these changes are a cause or effect of mouth breathing, but such characteristics could be markers of the severity of sleep-disordered breathing in children. Facial skeletal changes can be diagnosed through facial photography, and the patient can be referred for treatment typically by an orthodontist.<sup>34,35,36,37</sup>



Fig. 5 e 6 - Facial photography showing markings for facial measurements

### *Polysomnography*

Polysomnography is the gold standard test for the diagnosis of sleep-disordered breathing in children. It consists of simultaneous monitoring of electroencephalogram, left and right electrooculogram, leg and submental electromyogram, electrocardiogram, recording of thoracic and abdominal respiratory movements (inductive plethysmography), airflow through nasal cannula and thermistor, pulse oximeter, snoring sensor (microphone), and body position in bed.<sup>21</sup>

It can be performed in specialized clinics or even at home. The home test is a viable alternative to the test performed in clinics for the diagnosis of moderate to severe OSAS. In a study comparing in-laboratory and home polysomnography in 33 children aged 2-17 years, the AHI measurement by the portable monitor was significantly different from that obtained by the polysomnogram (PSG) ( $P = 0.033$ ). However, the comparison of AHI and lowest oxygen saturation measurements from the home sleep test in children aged 6 years or older did not differ significantly from the PSG. The portable device had a comparable performance with the PSG for the diagnosis of OSAS in older children, with a sensitivity of 83% and specificity of 80%.<sup>38</sup> In another study, 50 children with a mean age of  $5.3 \pm 2.5$  years underwent home polysomnography, and it was determined that at a cutoff for diagnosis of AHI  $>3$ , the sensitivity is 90.9% and specificity is 94.1%.<sup>39</sup> A recent review of portable devices showed that home testing has been considered an alternative because it is potentially more cost-effective, convenient and accessible. Overall, the evidence in children is limited so far. Feasibility studies have shown good results overall, with several reports of 90% of home recordings meeting predetermined quality criteria regarding signal artifact and minimum recording time. The limited data comparing home studies with in-laboratory PSG showed no difference in respiratory parameters.<sup>40</sup>

The diagnostic criteria of OSAS on polysomnography follow the recommendations of the American Academy of Sleep Medicine.<sup>41</sup> The presence of OSA is defined as an AHI greater than 1 event, including obstructive apneas, mixed apneas, obstructive hypopneas, per hour of total sleep time. OSAS is classified as mild (AHI  $>1$  and  $<5$  events/h), moderate OSA (AHI  $>5$  and  $<10$  events/h) and severe (AHI  $>10$  events/h).

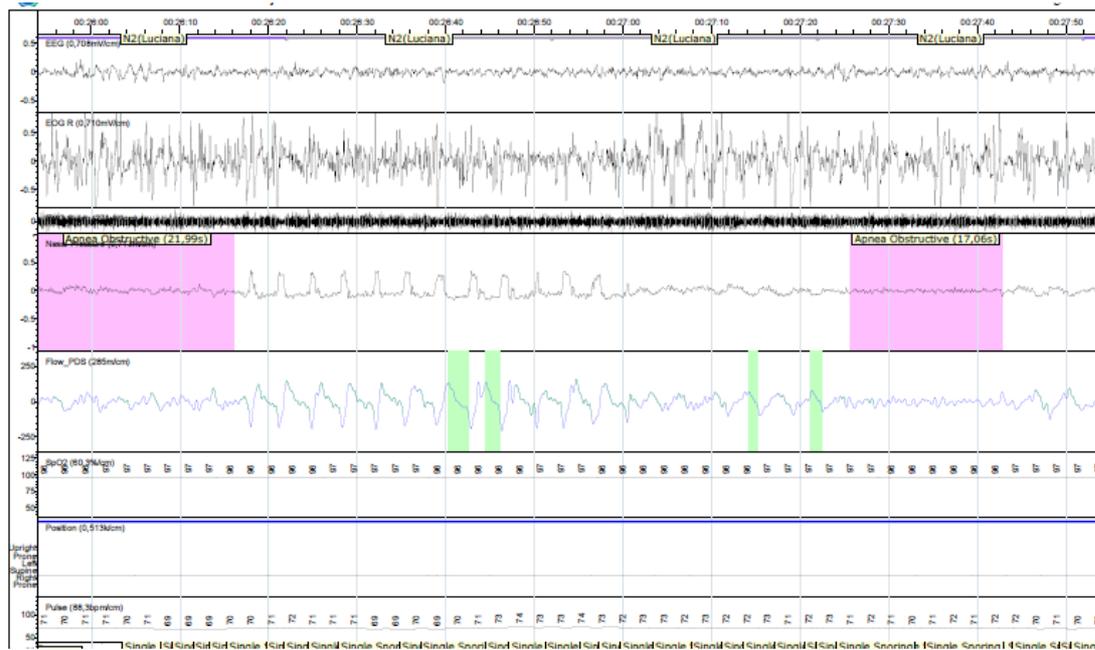


Fig. 7 - Polysomnography study showing one period of apnea (see marking in pink)

### *What is the treatment for patients with OSAS?*

OSAS is a multifactorial disease; therefore, treatment should be directed toward the cause.

Adenotonsillectomy remains the first-line therapy for pediatric patients with OSAS who have no contraindication to surgery.<sup>42</sup> For children with residual OSAS after adenotonsillectomy (approximately 30% in obese children) or those for whom surgery is contraindicated, continuous positive airway pressure (CPAP) is effective but rarely tolerated by children. CPAP therapy in children has an undesirable side effect, namely, mid-face hypoplasia.<sup>43</sup> For children who are unable to tolerate CPAP, for small children who have persistent OSAS after adenotonsillectomy, or for infants with OSAS, endoscopy with induced sleep and craniofacial magnetic resonance imaging are used to help determine whether any obstructive lesions are susceptible to surgical correction. The treatment of obesity in children with residual OSAS after surgery is also essential.<sup>1</sup>

In cases where obesity is the main comorbidity, weight loss management may be the key to treatment. Andersen et al. conducted a prospective study with a population of

62 children and adolescents with OSAS treated in a multidisciplinary clinic for overweight and obesity. They observed a normalization of AHI in 38% of patients after six months of obesity treatment and in 44% after one year of weight loss. These results indicate that weight loss should be considered a first-line therapy for children with high BMI,<sup>44</sup> which can be performed by pediatricians.

As previously discussed, craniofacial changes such as ogival or narrow palate are predisposing factors for OSAS. Rapid maxillary expansion is a technique in which orthodontic appliances are used to expand the bone structure of the palate and consequently increase the nasal and retropalatal areas. A recent meta-analysis showed an improvement in AHI from  $8.9 \pm 7.0/h$  to  $2.7 \pm 3.3/h$  with the use of rapid maxillary expansion in children.<sup>45</sup>

Anti-inflammatory therapy with intranasal steroids or leukotriene receptor antagonists are commonly used for the treatment of mild and moderate OSAS. Kheirandish-Gozal et al. reported that the treatment of mild OSAS in children aged 2 to 14 years with concomitant use of both medicines for 12 weeks led to an overall success rate of 80%. The most recent clinical practice guideline of the American Academy of Pediatrics states that physicians can prescribe nasal steroids for children with mild OSAS in which adenotonsillectomy is contraindicated or for children with mild residual disease after surgery.<sup>12</sup> Care should be made when prescribing leukotriene antagonist, as it can cause behavior problems<sup>46</sup>

## **Final remarks**

Obstructive sleep apnea in children is a condition with multifactorial etiology. The study of each risk factor and associated comorbidities, as well as the continuous monitoring of patients, are therefore critical for therapeutic planning.

The pediatrician has a fundamental role in the early diagnosis and treatment of OSAS due to the closeness to families and routine evaluation of children. The interaction between pediatricians, schoolteachers, otorhinolaryngologists, orthodontists, and sleep medicine specialists effectively contributes to the early diagnosis and treatment of childhood OSAS.

## REFERENCES

1. Dehlink E. Update on paediatric obstructive sleep apnoea. *J Thorac Dis.* 2016;8(2):224–35.
2. Nosetti L, Paglietti MG, Brunetti L, Masini L, La S, Id GC, et al. Application of latent class analysis in assessing the awareness , attitude , practice and satisfaction of paediatricians on sleep disorder management in children in Italy. 2020;1:1–17.
3. Morsbach Honaker S. Adressing sleep in pediatric Primary care. 2016;2141:31–9.
4. Faruqi F, Khubchandani J, Price JH, Bolyard D RR. Sleep disorders in children: a national assessment of primary care pediatrician practices and perceptions. . *Pediatrics.* 2011;128(3):539–46.
5. Mukherjee S, Patel SR, Kales SN, Ayas NT, Strohl KP, Gozal D, et al. An official American Thoracic Society statement: The importance of healthy sleep: Recommendations and future priorities. *Am J Respir Crit Care Med.* 2015;191(12):1450–8.
6. Mindell JA, Bartle A, Ahn Y, Ramamurthy MB, Huong HT, Kohyama J et al. Sleep education in 34 pediatric residency programs: a cross-cultural look. *BMC Res notes.* 2013;6(130).
7. Harrison R, Edmiston R, Mitchell C. Recognising paediatric obstructive sleep apnoea in primary care: Diagnosis and management. *Br J Gen Pract.* 2017;67(659):282–3.
8. Wu Y, Feng G, Xu Z, Li X, Zheng L, Ge W, et al. Identification of different clinical faces of obstructive sleep apnea in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol [Internet].* 2019;127(August):109621. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2019.109621>
9. Pham L V., Schwartz AR. The pathogenesis of obstructive sleep apnea. *J Thorac Dis.* 2015;7(8):1358–72.

10. Gulotta G, Iannella G, Vicini C, Polimeni A, Greco A, de Vincentiis M, et al. Risk factors for obstructive sleep apnea syndrome in children: State of the art. *Int J Environ Res Public Health*. 2019;16(18).
11. Di Francesco, R.; Alvarez J. Allergic rhinitis affects the duration of rapid eye movement sleep in children with sleep-disordered breathing without sleep apnea. *Int Forum Allergy Rhinol*. 2016;6:465–71.
12. Cao, Y.;Wu, S.;Zhang, L.;Yang, Y.;Cao, S.;Li Q. Association of allergic rhinitis with obstructive sleep apnea: A meta-analysis. *Medicine (Baltimore)*. 2018;Dec; 97(51).
13. Guilleminault C, Huang YS. From oral facial dysfunction to dysmorphism and the onset of pediatric OSA. *Sleep Med Rev [Internet]*. 2018;40:203–14. Available from: <https://doi.org/10.1016/j.smr.2017.06.008>
14. Galeotti A, Festa P, Viarani V, Pavone M, Sitzia E, Piga S, et al. Correlation between cephalometric variables and obstructive sleep apnoea severity in children. *Eur J Paediatr Dent*. 2019;20(1):43–7.
15. Mathur R DN. Family studies in patients with the sleep apnea- hypopnea syndrome. *Ann Intern Med*. 1995;122:174–8.
16. Chi L, Comyn F-L, Keenan BT, Cater J, Maislin G, Pack AI, et al. Heritability of Craniofacial Structures in Normal Subjects and Patients with Sleep Apnea. *Sleep*. 2014;37(10):1689–98.
17. Schwab RJ, Pasirstein M, Kaplan L, Pierson R, Mackley A, Hachadoorian R, et al. Family aggregation of upper airway soft tissue structures in normal subjects and patients with sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med*. 2006;173(4):453–63.
18. Redline S, Tishler P V. The genetics of sleep apnea. *Sleep Med Rev*. 2000;4(6):583–602.
19. Szily M, Tarnoki AD, Tarnoki DL, Kovacs DT, Forgo B, Lee J, et al. Genetic influences on the onset of obstructive sleep apnoea and daytime sleepiness: A

- twin study. *Respir Res.* 2019;20(1):4–9.
20. De Paula LKG, Alvim RO, Pedrosa RP, Horimoto ARVR, Krieger JE, Oliveira CM, et al. Heritability of OSA in a Rural Population. *Chest* [Internet]. 2016;149(1):92–7. Available from: <http://dx.doi.org/10.1378/chest.15-0843>
  21. Moreira Gustavo, Haddad F BL. *Recomendações para o Diagnóstico e Tratamento da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono na Criança e no Adolescente*. 1o. ed. São Paulo: Estação Brasil; 2013.
  22. Blechner M, Williamson AA. Consequences of Obstructive Sleep Apnea in Children. *Curr Probl Pediatr Adolesc Health Care* [Internet]. 2016;46(1):19–26. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.cppeds.2015.10.007>
  23. Trosman I, Trosman SJ. Cognitive and Behavioral Consequences of Sleep Disordered Breathing in Children. Vol. 5, *Medical Sciences*. 2017. p. 30.
  24. Gatica D, Zenteno D, Montesinos JJ, Manterola C. Association between sleep-related breathing disorders and academic performance among children from Concepción, Chile. *Arch Argent Pediatr.* 2017;115(5):497–501.
  25. Hunter SJ, Gozal D, Smith DL, Philby MF, Kaylegian J, Kheirandish-Gozal L. Effect of sleep-disordered breathing severity on cognitive performance measures in a large community cohort of young school-aged children. *Am J Respir Crit Care Med.* 2016;194(6):739–47.
  26. Harding R, Haszard JJ, Schaughency E, Drummond B GB. Parent report of children’s sleep disordered breathing symptoms and limited academic progress in reading, writing, and math. *Sleep Med.* 2020;Jan;65:105–12.
  27. Beebe DW GD. Obstructive sleep apnea and the prefrontal cortex: towards a comprehensive model linking nocturnal upper airway obstruction to daytime cognitive and behavioral deficits. *J Sleep Res.* 2002;11(1):1–16.
  28. Pires PJS, Mattiello R, Lumertz MS, Morsch TP, Fagondes SC, Nunes ML, et al. Validation of the Brazilian version of the Pediatric Obstructive Sleep Apnea Screening Tool questionnaire. *J Pediatr (Rio J).* 2019;95(2):231–7.

29. Parreira AF, Martins A, Ribeiro F, Silva FG. Clinical validation of the portuguese version of the children sleep habits questionnaire (CSHQ-PT) in children with sleep disorder and ADHD. *Acta Med Port.* 2019;32(3):195–201.
30. Silva FG, Silva CR, Braga LB, Neto AS. Portuguese Children's Sleep Habits Questionnaire - Validation and cross-cultural comparison. *J Pediatr (Rio J)* [Internet]. 2014;90(1):78–84. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.jped.2013.06.009>
31. Brodsky L. Modern assessment of tonsils and adenoids. *Pediatr Clin North Am.* 1989;Dec 36(6):1551–69.
32. Samssoon GL YJ. Difficult tracheal intubation: a retrospective study. 1987, 42:487-49. *Anaesthesia.* 1987;42:487–49.
33. Maahs M. Atuação da ortodontia e ortopedia facial. In: Maars MAP, Almeida ST, editors. *Respiração oral e apneia obstrutiva do sono.* Rio de Janeiro: Revinter; 2017. p. 88–126.
34. Koca CF, Erdem T, Bayındır T. The effect of adenoid hypertrophy on maxillofacial development: An objective photographic analysis. *J Otolaryngol - Head Neck Surg.* 2016;45(1):1–8.
35. Lee RWW, Petocz P, Prvan T, Chan ASL, Grunstein RR, Cistulli PA. Prediction of Obstructive Sleep Apnea with Craniofacial Photographic Analysis. *Sleep.* 2009;32(1):46–52.
36. Sutherland K, Schwab RJ, Maislin G, Lee RWW, Benedikstsottir B, Pack AI, et al. Facial Phenotyping by Quantitative Photography Reflects Craniofacial Morphology Measured on Magnetic Resonance Imaging in Icelandic Sleep Apnea Patients. *Sleep.* 2014;37(5):959–68.
37. Sutherland K, Weichard AJ, Davey MJ, Horne RS, Cistulli PA, Nixon GM. Craniofacial photography and association with sleep-disordered breathing severity in children. *Sleep Breath.* 2020;Sep;24(3):1173–9.
38. Scalzitti N, Hansen S, Maturo S, Lospinoso J, O'Connor P. Comparison of home

- sleep apnea testing versus laboratory polysomnography for the diagnosis of obstructive sleep apnea in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* [Internet]. 2017;100:44–51. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2017.06.013>
39. Alonso-Álvarez ML, Terán-Santos J, Ordax Carbajo E, Cordero-Guevara JA, Navazo-Egüía AI, Kheirandish-Gozal L, et al. Reliability of home respiratory polygraphy for the diagnosis of sleep apnea in children. *Chest*. 2015;147(4):1020–8.
  40. Bhattacharjee R. Ready for Primetime? Home sleep apnea tests for children. *J Clin Sleep Med*. 2019;15(5):685–6.
  41. Kirk V, Baughn J, Andrea LD, Friedman N, Galion A, Garetz S, et al. Medicine position paper for the use of HSAT for the diagnosis of OSA in children. *J Clin Sleep Med*. 2017;13(10):1199–203.
  42. Kaditis AG, Alvarez MLA, Boudewyns A, Alexopoulos EI, Ersu R, Joosten K, et al. Obstructive sleep disordered breathing in 2- to 18-year-old children: Diagnosis and management. *Eur Respir J* [Internet]. 2016;47(1):69–94. Available from: <http://dx.doi.org/10.1183/13993003.00385-2015>
  43. Li KK, Riley RW GC. An unreported risk in the use of home nasal continuous positive airway pressure and home nasal ventilation in children: mid-face hypoplasia. *Chest*. 2000;Mar;117(3):916-8.
  44. Andersen, I.G.; Holmb, J.C.; Homoea P. Impact of weight-loss management on children and adolescents with obesity and obstructive sleep apnea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2019;123:57–62.
  45. Camacho, M.; Chang, E.T.; Song, S.A.; Abdullatif, J.; Zaghi, S.; Pirelli, P.; Certal, V.; Guilleminault C. Rapid maxillary expansion for pediatric obstructive sleep apnea: A systematic review and meta-analysis. *Laryngoscope*. 2017;127:1712–9.
  46. Benard B, Bastien V, Vinet B, Yang R, Krajinovic M, Ducharme FM. Neuropsychiatric adverse drug reactions in children initiated on montelukast in real-life practice. *Eur Respir J* [Internet]. 2017;50(2). Available from:

<http://dx.doi.org/10.1183/13993003.00148-2017>

## MATERIAL SUPLEMENTAR DO ARTIGO DE REVISÃO 2

### 1. Ferramenta de triagem de apneia obstrutiva do sono (FASP)

	Nunca	Raramente (1 vez por semana)	Ocasionalmente (2 vezes por semana)	Frequentemente (3-4 vezes por semana)	Quase Sempre (mais de 4 vezes por semana)
O seu filho(a) para de respirar durante o sono?					
O seu fiho(a) tem dificuldade para respirar durante o sono?					
Você alguma vez teve que sacudir seu filho(a) para fazê-lo voltar a respirar durante o sono?					
Com que frequência o seu filho(a) ronca?					
Você tem alguma preocupação sobre a respiração do seu filho(a) enquanto ele dorme?					
Quanto de alto é o ronco do seu filho(a)?	Baixo	Um pouco alto	Alto	Muito Alto	Extremamente Alto

## 2. Questionário de Hábitos de Sono da Criança (CSHQ)

<b>HORA DE DEITAR</b>		pontuação: (3) (2) (1)		
Durante a semana: ___ horas e ___ minutos		No fim de semana: ___ horas e ___ minutos		
A criança...	Habitualmente (5 a 7 vezes por semana)	Às vezes (2 a 4 vezes por semana)	Raramente (uma vez ou nunca)	
Deita-se sempre à mesma hora (R)(1)	( )	( )	( )	
Depois de se deitar, demora até 20 minutos a adormecer (R)(2)	( )	( )	( )	
Adormece sozinha na sua própria cama (R)(3)	( )	( )	( )	
Adormece na cama dos pais ou dos irmãos (4)	( )	( )	( )	
Precisa de um dos pais no quarto para adormecer (5)	( )	( )	( )	
"Luta" na hora de deitar (chora, recusa-se a ficar na cama, etc.)(6)	( )	( )	( )	
Tem medo de dormir no escuro (7)	( )	( )	( )	
Tem medo de dormir sozinha (8)	( )	( )	( )	

<b>COMPORTAMENTO DURANTE O SONO</b>				
Tempo total de sono diário: _____ horas e _____ minutos (considerando o sono da noite e as sesta)				
A criança...	Habitualmente (5-7 vezes)	Às vezes (2-4 vezes)	Raramente (0-1 vez)	
Dorme pouco (9)	( )	( )	( )	
Dorme o que é necessário (R)(10)	( )	( )	( )	
Dorme o mesmo número de horas todos os dias (R)(11)	( )	( )	( )	
Molha a cama à noite (crianças com 4 ou mais anos) (12)	( )	( )	( )	
Fala a dormir (13)	( )	( )	( )	
Tem sono agitado, mexe-se muito a dormir (14)	( )	( )	( )	
Anda a dormir, à noite (sonambulismo) (15)	( )	( )	( )	
Vai para a cama dos pais, irmãos, etc., a meio da noite (16)	( )	( )	( )	
Range os dentes durante o sono (17)	( )	( )	( )	
Ressona alto (18)	( )	( )	( )	
Parece parar de respirar durante o sono (19)	( )	( )	( )	
Ronca ou tem dificuldade em respirar durante o sono (20)	( )	( )	( )	
Tem dificuldade em dormir fora de casa (na casa de familiares, nas férias, etc.) (21)	( )	( )	( )	
Acorda durante a noite a gritar, a suar, inconsolável (22)	( )	( )	( )	
Acorda assustada com pesadelos (23)	( )	( )	( )	

<b>ACORDAR DURANTE A NOITE</b>				
Acorda uma vez durante a noite (24)	( )	( )	( )	
Acorda mais de uma vez durante a noite (25)	( )	( )	( )	

<b>ACORDAR DE MANHÃ</b>				
Hora de acordar nos dias de semana: ___ horas e ___ minutos		no fim de semana: ___ horas e ___ minutos		
A criança...	Habitualmente (5-7 vezes)	Às vezes (2-4 vezes)	Raramente (0-1 vez)	
De manhã, acorda por si própria (R)(26)	( )	( )	( )	
Acorda mal-humorada (27)	( )	( )	( )	
De manhã, é acordada pelos pais ou irmãos (28)	( )	( )	( )	
Tem dificuldade em sair da cama de manhã (29)	( )	( )	( )	
Demora a ficar bem acordada (30)	( )	( )	( )	

<b>SONOLÊNCIA DURANTE O DIA</b>				
A criança...	Habitualmente	Às vezes	Raramente	
Parece cansada (31)	( )	( )	( )	
Na semana passada, a criança pareceu sonolenta em alguma destas situações?	Não ficou sonolenta (1)	Ficou muito sonolenta (2)	Adormeceu (3)	
A ver televisão (32)	( )	( )	( )	
A andar de carro (33)	( )	( )	( )	

## 3. OBJETIVOS

### **Objetivo geral**

Detectar se padrões de morfologia craniofacial e de composição corporal associados a AOS nos pais podem ser correlacionados com a AOS dos filhos.

### **Objetivos específicos**

1. Elaborar artigos de revisão sobre o método de fotografia facial para análise da morfologia craniofacial em pacientes com apneia obstrutiva do sono e a respeito da importância do Pediatra na detecção precoce da SAOS nas crianças e a importância da interação entre o Pediatra e o Médico do Sono.

2. Avaliar a correlação entre a morfologia craniofacial dos pais, avaliada pela fotografia facial, e a presença e gravidade de apneia obstrutiva do sono em seus filhos.

3. Correlacionar os achados relacionados à obstrução das vias aéreas na videonasolaringoscopia (hipertrofia de tonsilas faríngeas) e exame otorrinológico (índice de Mallampatti, escala de Brodsky) dos pais com o IAH dos filhos

## 4. MÉTODOS

### **Delineamento e local do estudo**

Estudo transversal, prospectivo realizado no período de setembro/2019 a abril/2021.

### **Pacientes**

Os pacientes foram selecionados do ambulatório de Pediatria da Faculdade de Medicina da Universidade Federal de São João del Rei (UFSJ) - campus Divinópolis, a partir de uma amostra não probabilística, independente de apresentarem sintomas sugestivos de distúrbios do sono.

### **Critérios de exclusão**

Foram excluídos pais e filhos com obesidade mórbida, pois este fator dificulta as medidas de morfologia craniofacial pela fotografia facial; idade superior a 60 anos e inferior a dois anos; indivíduos com síndromes genéticas com alterações da morfologia craniofacial; portadores de distúrbios neurológicos com comprometimento cognitivo e crianças que já foram submetidas à cirurgia de remoção de tonsilas faríngeas e/ou palatinas.

### **Procedimentos e equipamentos**

Foram colhidos dados dos pacientes de acordo com as seguintes etapas.

#### **Questionário**

Aplicou-se um questionário padronizado que continha perguntas sobre hábitos de sono, uso de medicamentos e doenças associadas. A cor da pele foi classificada em faioderma, melanoderma e leucoderma por autodeclaração.

(Vide material suplementar I, página 111).

## Exame físico

Peso e altura foram mensurados com balança e estadiômetro para cálculo de IMC nos adultos e escore-Z do IMC nas crianças. A classificação destas variáveis seguiu as recomendações da Organização Mundial de Saúde.<sup>1</sup>

O exame da cavidade oral foi realizado para verificação do índice de Mallampati<sup>2</sup> e tamanho das tonsilas palatinas que foram classificadas de acordo com Brodsky.<sup>3</sup>

O índice de Mallampati modificado avalia a relação de espaço da faringe com o tamanho da língua. Um índice aumentado está associado ao maior risco de AOS. Ele foi proposto por Friedmann, sendo classificado em quatro classes; na classe I é possível visualizar toda a orofaringe, incluindo o polo inferior das tonsilas palatinas; classe II visualiza-se o palato mole, parte superior das tonsilas e a úvula; classe III só é visualizado o palato mole e a base da úvula e na classe IV pode-se visualizar apenas o palato duro e parte do palato mole, e não a parede posterior da orofaringe e nem a inserção da úvula.<sup>2</sup>

As tonsilas palatinas foram classificadas de acordo com Brodsky em: grau I - tonsilas estão situadas levemente fora da fossa tonsilar, ocupando menos de 25 % da área entre pilares da fossa tonsilares; grau II - tonsilas estão prontamente visíveis, ocupando 25% a 50% da área entre os pilares das fossas tonsilares; grau III - tonsilas estão ocupando 50% a 75% da área entre os pilares; e grau IV - ocupam mais de 75% da área entre os pilares.<sup>3</sup> Foram consideradas tonsilas obstrutivas no grau III e IV.

## Videonasolaringoscopia

Utilizou-se um fibronasolaringoscópio flexível da marca Karl Storz® (Karl Storz Se & Co. Kg, Germany) para verificação do tamanho das tonsilas faríngeas que foram classificadas pela porcentagem de obstrução do cávum. Definiu-se como tonsilas faríngeas obstrutivas aquelas que ocluía mais que 50% do espaço aéreo.<sup>4</sup>

## Fotografia facial

A fotografia facial foi realizada com câmera fotográfica digital Canon EOS® (Canon Inc., Japan). A câmera foi fixada em um tripé, a um metro de distância da pessoa. Uma régua foi colocada próximo ao tragus dos participantes na foto frontal e à frente do rosto na foto em perfil para a parametrização das medidas. Para a realização da fotografia os participantes foram solicitados a olhar para a frente, para obter o posicionamento da cabeça em uma posição de repouso natural e foram convidados a manter expressão facial de repouso neutro além de manter a boca fechada com os lábios suavemente justapostos. A figura 1 representa a padronização da foto.

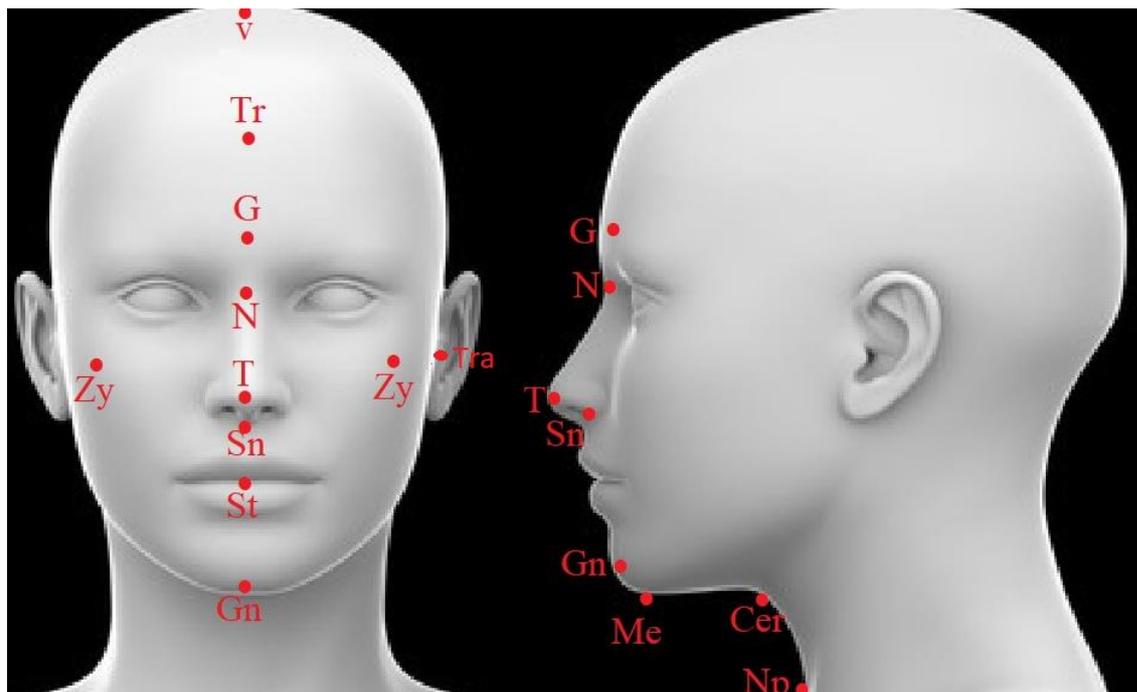
Figura 1: Foto padronizada



Para a análise das fotos utilizou-se o software Studio 3® (Radiomemory, Brasil). Um dentista membro da equipe analisou as fotografias craniofaciais e um grupo de 15 fotos (10%) foi selecionada randomicamente para repetição da análise um mês depois da primeira para verificar a concordância intra-observador. A confiabilidade intra-observador na análise das medidas faciais foi avaliada utilizando-se o coeficiente de correlação intraclassa (ICC, modelo de efeitos mistos bidirecionais) que demonstrou excelente confiabilidade de medidas repetidas das mesmas fotos (ICC 0,83-0,99).

Na primeira etapa da análise foram marcados nas fotos os pontos de referência anatômicos e realizado a parametrização da foto de acordo com as medidas da régua que foi posicionada na foto. Os pontos de referência utilizados para a análise fotográfica são demonstrados na figura 1.

Figura 1: Pontos de referência



V (vertex), tr(trichion; ponto médio da linha capilar anterior), n (nasion; ponto médio da sutura nasofrontal), T (ponta; a junção da margem inferior da crista nasal e a columela), sn (subnasal; o ponto médio da borda inferior da columela nasal), gn (gnation; no meio da linha, o ponto mais baixo na borda inferior do queixo), st (estomion: o ponto mediano da fenda oral quando os lábios estão fechados, tra (tragion: a margem superior do tragus da orelha), me (mento), np (pescoço), cer (cervical), zy (zygion - zigomático), G ( glabela).

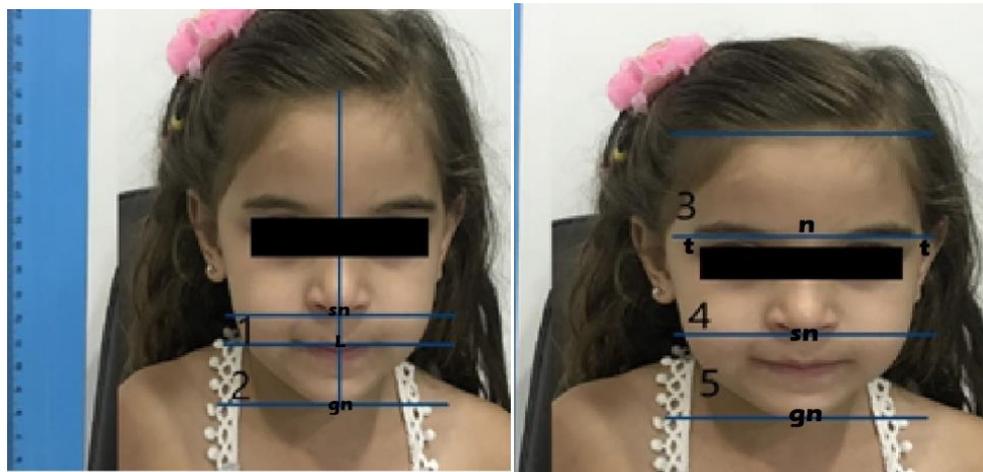
Em segundo momento, o “software” realizou as medidas craniofaciais já previamente estabelecidas.

A tabela 1 demonstra as medidas craniofaciais e seus pontos de referência.

Tabela 1: Medidas craniofaciais e pontos de referência

<b>Descrição</b>	<b>Pontos de referência</b>	<b>Medidas (unidade)</b>
<b>Medidas foto perfil</b>		
Ângulo da convexidade da face	G-Sn-Gn	Ângulo (°)
Ângulo cervicomentar	Me-Cer-Np	Ângulo (°)
Ângulo nasolabial	T-Sn_Sto	Ângulo (°)
Sulco mentolabial	St-Me	Ângulo (°)
<b>Medidas foto frontal</b>		
Comprimento labial superior (CLS)	Sn-Sto	Comprimento (mm)
Comprimento labial inferior (CLI)	Sto-Gn	Comprimento (mm)
Proporção labial (PL)	CLS/CLI	
Altura facial (AF)	Tr-Gn	Comprimento (mm)
Altura terço superior (ATS)	Tr-N	Comprimento (mm)
Altura terço médio (ATM)	N-Sn	Comprimento (mm)
Altura terço inferior (ATI)	Sn-Gn	Comprimento (mm)
Largura facial (LF)	Tra-Tra	Comprimento (mm)
Proporção facial (PF)	AF/LF	
Proporção terço médio e inferior	TM/TI	

A figura 2 demonstra algumas das medidas craniofaciais utilizadas



1. Comprimento labial superior (CLS), 2. comprimento labial inferior (CLI), proporção labial (CLS/CLI), 3. altura do terço superior (ATS), 4. altura do terço médio (ATM), 5. altura do terço inferior (ATI). 6. ângulo da convexidade da face (AC), 7. ângulo cervicomentale (ACM) 8. ângulo nasolabial (ANL) 9. sulco mentolabial (SML). O traço vertical representa a altura facial (AF). Sn, subnasal; gn, gonion; g, glabella; me, mento; cer, cervical; t, tragus; np neckplane; n, nasion.

### Polissonografia

Todos os pacientes realizaram polissonografia em ambiente domiciliar, analisada como tipo II, com o aparelho Embletta® (Embla Systems, Canadá). Em resumo, foram

registrados os dados de eletroencefalograma, eletro-oculograma esquerdo e direito, eletromiograma submental, eletromiograma muscular tibial anterior, eletrocardiograma, movimentos respiratórios torácicos e abdominais, pressão nasal e saturação de oxigênio.

Os critérios diagnósticos de AOS seguiram as recomendações da Academia Americana de Medicina do Sono,<sup>5</sup> combinados com os critérios utilizados no estudo CHAT ( Childhood adenotonsillectomy).<sup>6</sup>

Em crianças a AOS foi classificada como um índice de irregularidade respiratória acima de 2 eventos/h, incluindo apneias obstrutivas, apneias mistas e hipopneias obstrutivas por hora de tempo total de sono. As crianças foram agrupadas em quatro categorias para análise: controles (IAH < 2 eventos/h ou apneia menor que 1 evento/h) AOS leve (IAH >2 e < 4,9 eventos/h); AOS moderada (IAH > 5 e <9,9 eventos/h) e grave (IAH >10/h).

Nos adultos a classificação utilizada foi: controles (IAH < 5 eventos/h), AOS leve (IAH >5 e < 15 eventos/h); AOS moderada (IAH >15 e <30 eventos/h) e grave (IAH >30/h).

A videonasofaringoscopia, fotografia facial e a polissonografia foram analisadas por membros diferentes da equipe executora, sendo que cada um deles desconhecia os resultados dos outros exames.

## **Aspectos estatísticos**

### **Cálculo amostral**

O cálculo amostral foi baseado nos resultados do estudo piloto onde a largura facial entre pais com AOS (média 117, DP 12) e sem AOS (média 101, DP 12) como desfecho primário. Foi utilizado o teste T,  $\alpha=0,05$ , Power  $(1-\beta) = 0.80$  e tamanho do efeito(f): 0.69, sendo estimado o  $n= 52$  trios de voluntários (pais, mães e filhos)

### **Análise**

Além das estatísticas descritivas, para avaliar as correlações das variáveis independentes dos pais com o IAH dos filhos utilizou-se o método de regressão linear múltipla. Os modelos foram construídos, primariamente pelo método “enter”, no qual

foram incluídas as variáveis independentes do pai ou da mãe. Cumprida esta etapa, aplicou-se o método “stepwise”, no qual retirou-se as variáveis cujo p foi  $>0,30$ . O melhor modelo foi assumido a partir do coeficiente de determinação. O nível de significância considerado foi  $p < 0,05$ . A análise estatística foi realizada pelo software SPSS (Versão 24, IBM Corporation – EUA).

## Aspectos Éticos

O projeto de pesquisa foi aprovado no Comitê de Ética em Pesquisa da UFMG sob número 2.645.547 em 6/6/2018. Todos os pacientes assinaram o Termo de Consentimento para os adultos e Termo de Assentimento para as crianças.

## Referências bibliográficas

1. <https://www.who.int/toolkits/child-growth-standards/standards/body-mass-index-for-age-bmi-for-age>.
2. Samsoon GL YJ. Difficult tracheal intubation: a retrospective study. 1987, 42:487-49. *Anaesthesia*. 1987;42:487-49.
3. Brodsky L. Modern assessment of tonsils and adenoids. *Pediatr Clin North Am*. 1989;Dec 36(6):1551-1569. doi:10.1016/s0031-3955(16)36806-7 .
4. Josephson GD, Duckworth L, Hossain J. Proposed definitive grading system tool for the assessment of adenoid hyperplasia. *Laryngoscope*. 2011;121(1):187-193. doi:10.1002/lary.21215
5. Berry RB, Brooks R, Gamaldo CE et al. . for the AA of SM. *The AASM Manual for the Scoring of Sleep and Associated Events: Rules, Terminology and Technical Specifications. Version 2.0.*; 2012.
6. R.B. M, S. G, R.H. M, et al. The use of clinical parameters to predict obstructive sleep apnea syndrome severity in children: The Childhood Adenotonsillectomy (CHAT) study randomized clinical trial. *JAMA Otolaryngol - Head Neck Surg*. 2015;141(2):130-136. doi:10.1001/jamaoto.2014.3049.The

## 5. RESULTADOS

Os resultados serão apresentados no artigo original “Correlação entre morfologia craniofacial dos pais e presença de apneia do sono em seus filhos”

Como resultado deste trabalho houve também a publicação de dois capítulos de livros:

“Roncos e apneia obstrutiva do sono: quais as consequências nas crianças e como diagnosticar?” (anexo II) e “Qualidade de sono e associação com desempenho escolar” (Anexo III) para o livro “Tenho um Aluno com Transtorno do Sono. E agora?” Este livro faz parte da coleção “Ao Mestre com Carinho” da Editora Artesã voltada para a educação de professores de educação infantil e ensino médio em temas de saúde da criança.

## Artigo Original

### **Correlação entre morfologia craniofacial dos pais e presença de apneia obstrutiva do sono em seus filhos**

#### **RESUMO**

**Objetivos** - Detectar quais padrões de morfologia craniofacial dos pais influenciam na AOS (Apneia Obstrutiva do Sono) dos filhos, utilizando a fotografia facial como método de avaliação. A hipótese do estudo é que existem alterações da morfologia craniofacial dos pais, ligados à AOS que são associadas ao diagnóstico de AOS nos filhos e sua gravidade.

**Métodos** - Quarenta e sete crianças e seus pais realizaram exame clínico com dados de tamanho de tonsilas, índice de Mallampati e mensuração de peso e altura; polissonografia; videonasolarinoscopia e fotografia facial. A caracterização da população estudada foi feita por análises descritivas. Para avaliar as correlações das variáveis independentes dos pais com o IAH (Índice de Apneia e Hipopneia) dos filhos utilizou-se a regressão linear múltipla.

**Resultados** - As medidas craniofaciais das mães, a saber, índice de Mallampati ( $p=0,03$ ), e inversamente, a altura do terço médio da face ( $p= 0,00$ ) e dos pais, proporção labial ( $p=0,05$ ) e ângulo cervicomentar ( $p=0,04$ ) foram correlacionadas linearmente com o aumento do IAH dos filhos. O coeficiente de determinação na avaliação das mães foi 0,27 e na avaliação dos pais foi 0,20.

**Conclusão** - Os resultados sugerem que as medidas faciais dos pais apresentaram uma correlação linear com a gravidade da AOS nos filhos, demonstrando a possível herdabilidade da morfologia craniofacial na constituição do fenótipo da AOS.

Portanto, a avaliação da morfologia craniofacial dos pais das crianças com suspeita de distúrbios respiratórios do sono pode ajudar na detecção de alterações craniofaciais associados à AOS nos filhos. A intervenção e tratamento precoces dos fatores causais pode impedir que a criança se torne um adulto apneico, com todas as implicações da doença na qualidade de vida.

**Palavras-chave** - Apneia Obstrutiva do Sono, Morfologia Craniofacial, Criança, Pais, Fotografia Facial

## INTRODUÇÃO

A Apneia Obstrutiva do Sono (AOS) é uma entidade clínica complexa, multifatorial e com grande variabilidade de fenótipos.<sup>1</sup> A significativa variação no grau de morbidade e sintomatologia em pacientes com a mesma gravidade ressalta a importância da interação da genética e de fatores anatômicos na determinação dos fenótipos da AOS.

A herdabilidade da AOS já foi reconhecida, e sua influência genética varia de 21 a 84%.<sup>2,3,4,5</sup> A agregação familiar da morfologia craniofacial foi demonstrada em alguns estudos, porém estes ocorreram com gêmeos ou parentes adultos. Até o momento a pesquisa da literatura não encontrou estudos em pais e seus filhos em idade pediátrica.<sup>6,7,8</sup>

Além do fator genético, fatores anatômicos como alterações da morfologia craniofacial influenciam o aparecimento da AOS. O comprometimento do crescimento orofacial sempre leva ao aumento do risco de colapso das vias aéreas superiores durante o sono.<sup>9,10</sup> Há uma interação contínua durante a infância entre funções oronasal e crescimento orofacial e portanto, a detecção precoce de fatores, possivelmente herdados dos pais, que prejudicam as funções normais oronasais e o crescimento orofacial contribui para o manejo e tratamento de crianças sujeitas a se tornarem futuros adultos apneicos, prevenindo complicações na vida adulta.<sup>11</sup>

Um dos métodos para avaliar a morfologia craniofacial é a fotografia facial. Este é considerado de fácil realização, baixo custo, sem consequências deletérias como irradiação.<sup>12,13</sup> Porém, existe apenas um estudo com este método em pacientes pediátricos com AOS.<sup>14</sup>

Portanto, o objetivo deste estudo é detectar quais os padrões de morfologia craniofacial e de composição corporal dos pais influenciam na AOS dos filhos, utilizando a fotografia facial como método de avaliação. A hipótese do estudo é que

existem alterações da morfologia craniofacial dos pais, ligados à AOS, que são associados ao diagnóstico de AOS nos filhos e sua gravidade.

## **MÉTODOS**

### **Delineamento e local do estudo**

Estudo transversal, prospectivo realizado no período de setembro/2019 a abril/2021.

### **Pacientes**

Os pacientes foram selecionados do ambulatório de Pediatria da Faculdade de Medicina - Universidade Federal de São João del Rei (UFSJ) - campus Divinópolis, a partir de uma amostra não probabilística, independente de apresentarem sintomas sugestivos de distúrbios do sono.

### **CrITÉRIOS de exclusão**

Foram excluídos pais e filhos com obesidade mórbida, pois este fator dificulta as medidas de morfologia craniofacial pela fotografia facial; idade superior a 60 anos e inferior a dois anos; indivíduos com síndromes genéticas com alterações da morfologia craniofacial; portadores de distúrbios neurológicos com comprometimento cognitivo e crianças que já foram submetidas à cirurgia de remoção de tonsilas faríngeas e/ou palatinas.

### **Procedimentos e equipamentos**

Foram colhidos dados dos pacientes de acordo com as seguintes etapas:

#### *Questionário*

Aplicou-se um questionário padronizado que continha perguntas sobre hábitos de sono, uso de medicamentos e doenças associadas. A cor da pele foi classificada em faioderma, melanoderma e leucoderma por autodeclaração (vide material suplementar I, página 111).

### *Exame físico*

Peso e altura foram mensurados com balança e estadiômetro para cálculo de IMC nos adultos e escore-Z do IMC nas crianças. A classificação destas variáveis seguiu as recomendações da Organização Mundial de Saúde.<sup>15</sup>

O exame da cavidade oral foi realizado para verificação do índice de Mallampati<sup>16</sup> e tamanho das tonsilas palatinas que foram classificadas de acordo com Brodsky.<sup>17</sup>

O índice de Mallampati modificado avalia a relação de espaço da faringe com o tamanho da língua. Um índice aumentado está associado ao maior risco de AOS. Ele foi proposto por Friedmann, sendo classificado em quatro classes; na classe I é possível visualizar toda a orofaringe, incluindo o polo inferior das tonsilas palatinas; classe II visualiza-se o palato mole, parte superior das tonsilas e a úvula; classe III só é visualizado o palato mole e a base da úvula e na classe IV pode-se visualizar apenas o palato duro e parte do palato mole, e não a parede posterior da orofaringe e nem a inserção da úvula.<sup>16</sup>

As tonsilas palatinas foram classificadas de acordo com Brodsky em: grau I - tonsilas estão situadas levemente fora da fossa tonsilar, ocupando menos de 25 % da área entre pilares da fossa tonsilares; grau II - tonsilas estão prontamente visíveis, ocupando 25% a 50% da área entre os pilares das fossas tonsilares; grau III - tonsilas estão ocupando 50% a 75% da área entre os pilares; e grau IV - ocupam mais de 75% da área entre os pilares.<sup>17</sup> Foram consideradas tonsilas obstrutivas no grau III e IV.

### *Videonasolarinoscopia*

Utilizou-se um fibronasolarinoscópico flexível da marca Karl Storz® (Karl Storz Se & Co. Kg, Germany) para verificação do tamanho das tonsilas faríngeas que foram

classificadas pela porcentagem de obstrução do cávum. Definiu-se como tonsilas faríngeas obstrutivas aquelas que ocluíaam mais que 50% do espaço aéreo.<sup>18</sup>

### *Fotografia facial*

A fotografia facial foi realizada com uma câmara fotográfica digital Canon EOS® (Canon Inc., Japan). A câmara foi fixada em um tripé, a um metro de distância da pessoa. Uma régua foi colocada próximo ao tragus dos participantes na foto frontal e à frente do rosto na foto em perfil para a parametrização das medidas. Para a realização da fotografia os participantes foram solicitados a olhar para a frente, para obter o posicionamento da cabeça em uma posição de repouso natural e foram convidados a manter expressão facial de repouso neutro além de manter a boca fechada com os lábios suavemente justapostos. A figura 1 representa a padronização da foto.

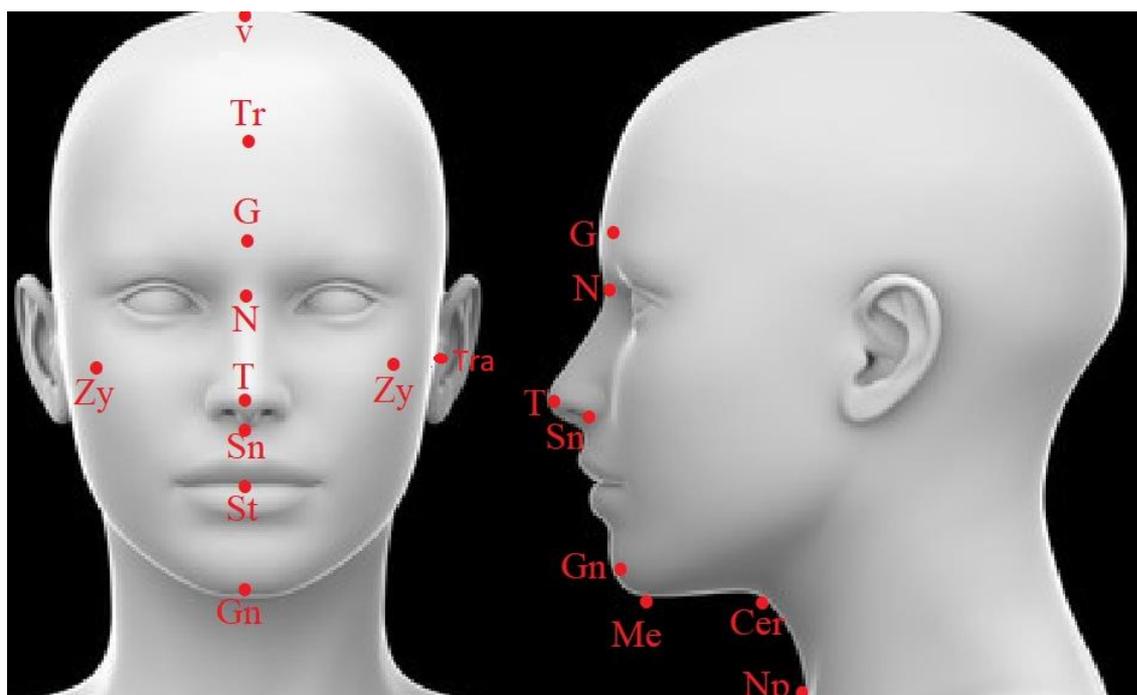
Figura 1: Foto padronizada



Para a análise das fotografias utilizou-se o software Studio 3<sup>®</sup> (Radiomemory, Brasil). Um dentista membro da equipe avaliou as fotografias craniofaciais e um grupo de 15 fotos (10%) foi selecionada randomicamente para repetição da análise um mês depois da primeira para verificar a concordância intra-observador. A confiabilidade intra-observador na análise das medidas faciais foi avaliada utilizando-se o coeficiente de correlação intraclassa (ICC, modelo de efeitos mistos bidirecionados) que demonstrou excelente confiabilidade de medidas repetidas das mesmas fotos (ICC 0,83-0,99).

Inicialmente são marcados pontos de referência anatômicos nas fotos e uma calibração das medidas de acordo com os centímetros medidos na régua colocada na foto. Na próxima etapa, o software realiza as medidas craniofaciais. Os pontos de referência utilizados para a análise fotográfica são demonstrados na figura 2.

Figura 2: Pontos de referência



V (vertex), tr (trichion; ponto médio da linha capilar anterior), n (nasion; ponto médio da sutura nasofrontal), T (ponta; a junção da margem inferior da crista nasal e a columela), sn (subnasal; o ponto médio da borda inferior da columela nasal), gn (gnathion; no meio da linha, o ponto mais baixo na borda inferior do queixo), st (estomion: o ponto mediano da fenda oral quando os lábios estão fechados, tra

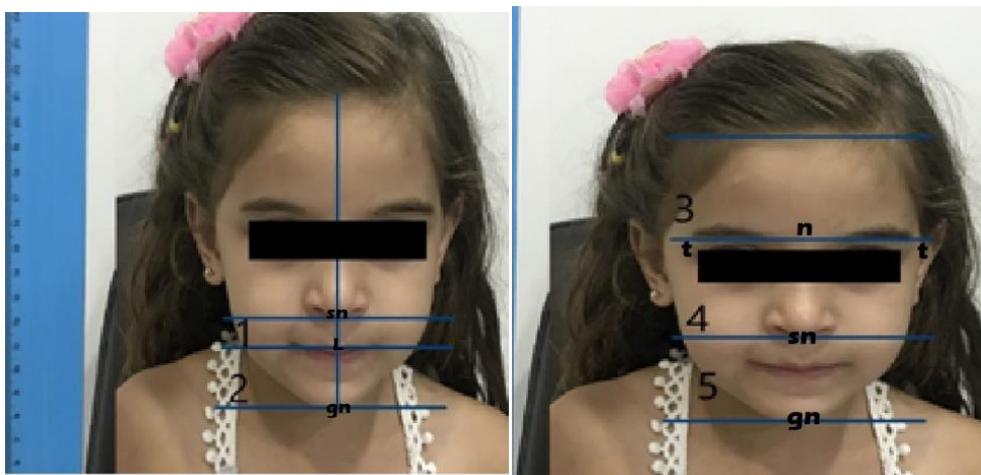
(tragion: a margem superior do tragus da orelha), me (mento), np (pescoço), cer (cervical), zy (zygion - zigomático), g ( glabela).

A tabela 1 demonstra as medidas craniofaciais e seus pontos de referência utilizados neste estudo.

Tabela 1: Medidas craniofaciais e pontos de referência

<b>Descrição</b>	<b>Pontos de referência</b>	<b>Medidas (unidade)</b>
<b>Medidas foto perfil</b>		
Ângulo da convexidade da face	G-Sn-Gn	Ângulo (°)
Ângulo cervicomenta	Me-Cer-Np	Ângulo (°)
Ângulo nasolabial	T-Sn_Sto	Ângulo (°)
Sulco mentolabial	St-Me	Ângulo (°)
<b>Medidas foto frontal</b>		
Comprimento labial superior (CLS)	Sn-Sto	Comprimento (mm)
Comprimento labial inferior (CLI)	Sto-Gn	Comprimento (mm)
Proporção labial (PL)	CLS/CLI	
Altura facial (AF)	Tr-Gn	Comprimento (mm)
Altura terço superior (ATS)	Tr-N	Comprimento (mm)
Altura terço médio (ATM)	N-Sn	Comprimento (mm)
Altura terço inferior (ATI)	Sn-Gn	Comprimento (mm)
Largura facial (LF)	Tra-Tra	Comprimento (mm)
Proporção facial (PF)	AF/LF	
Proporção terço médio e inferior	TM/TI	

A figura 3 demonstra algumas das medidas craniofaciais utilizadas em uma foto do arquivo pessoal da autora.



1. Comprimento labial superior (CLS), 2. comprimento labial inferior (CLI), proporção labial (CLS/CLI), 3. altura do terço superior (ATS), 4. altura do terço médio (ATM), 5. altura do terço inferior (ATI). 6. ângulo da convexidade da face (AC), 7. ângulo cervicomentar (ACM) 8. ângulo nasolabial (ANL) 9. sulco mentolabial (SML). O traço vertical representa a altura facial (AF). Sn, subnasal; gn, gonion; g, glabella; me, mento; cer, cervical; t, tragus; np neckplane; n, nasion.

*Polissonografia*

Todos os pacientes realizaram polissonografia em ambiente domiciliar, analisada como tipo II, com o aparelho Embletta® (Embla Systems, Canadá). Em resumo, foram registrados os dados de eletroencefalograma, eletro-oculograma esquerdo e direito, eletromiograma submental, eletromiograma muscular tibial anterior, eletrocardiograma, movimentos respiratórios torácicos e abdominais, pressão nasal e saturação de oxigênio.

Os critérios diagnósticos de AOS seguiram as recomendações da Academia Americana de Medicina do Sono<sup>19</sup> combinados com os critérios utilizados no estudo CHAT ( Childhood adenotonsillectomy).<sup>20</sup>

Em crianças a AOS foi classificada como o índice de irregularidade respiratória acima de 2 eventos/h, incluindo apneias obstrutivas, apneias mistas e hipopneias obstrutivas por hora de tempo total de sono. As crianças foram agrupadas em quatro categorias para análise: controles (IAH < 2 eventos/h ou apneia menor que 1 evento/h) AOS leve (IAH > 2 e < 4,9 eventos/h); AOS moderada (IAH > 5 e < 9,9 eventos/h) e grave (IAH > 10/h).

Nos adultos a classificação utilizada foi: controles (IAH < 5 eventos/h), AOS leve (IAH > 5 e < 15 eventos/h); AOS moderada (IAH > 15 e < 30 eventos/h) e grave (IAH > 30/h).

A videonasolaringoscopia, fotografia facial e a polissonografia foram analisadas por membros diferentes da equipe executora, sendo que cada um deles desconhecia os resultados dos outros exames.

## **Aspectos estatísticos**

### *Cálculo amostral*

O cálculo amostral foi baseado nos resultados do estudo piloto onde a largura facial entre pais com AOS (média 117, DP 12) e sem AOS (média 101, DP 12) foi avaliada como desfecho primário. Utilizou-se o teste T,  $\alpha=0,05$ , Power  $(1-\beta) = 0.80$  e tamanho do efeito(f): 0.69, sendo estimado o  $n= 52$  trios de voluntários (pais, mães e filhos).

### *Análise*

Além das estatísticas descritivas, para avaliar as correlações das variáveis independentes dos pais com o IAH dos filhos utilizou-se a regressão linear múltipla. Os modelos foram construídos primariamente pelo método “enter”, no qual foram incluídas as variáveis independentes do pai ou da mãe. Cumprida esta etapa, aplicou-se o método “stepwise”, no qual retirou-se as variáveis cujo p foi >0,30. O melhor modelo foi assumido a partir do coeficiente de determinação. O nível de significância considerado foi  $p < 0,05$ . A análise estatística foi realizada pelo software SPSS (Versão 24, IBM Corporation – EUA).

## RESULTADOS

A população total analisada foi constituída por 47 crianças e seus pais. Os dados demográficos, características clínicas e IAH são apresentados na tabela 2 e apresentados com a média e desvio padrão e entre parênteses, a porcentagem. Utilizou-se para a análise o teste GLM univariado.

Tabela 2 – Características clínicas e IAH da amostra

		Mãe sem AOS (n=28)	Mãe com AOS (n=18)	P	Pai sem AOS (n=12)	Pai com AOS (n=31)	P	Filhos Sem AOS (n=16)	Filhos Com AOS (n=31)	P
Sexo	F							9(56)	10(32)	0,13
	M							7(44)	21(68)	
Idade		34±6,0	35±7,0	0,51	33±5	36±7	0,19	7,2±2,6	7,5±2,0	0,67
Peso		67±10	78±18	0,01*	71±22	89±16	0,005*	29±12	33±13	0,39
IMC		25±3,8	30±6,0	0,007*	26±3,7	30±4,9	0,01*	18±3,7	19±4,2	0,48
Escore-Z								0,68±1,3	1,15±1,4	0,27
Cor	Faio	13(46)	5 (27)	0,25	8 (67)	11(34)	0,12	7 (43)	14(45)	0,56
	Leuco	13(46)	8 (44)		4 (33)	16(52)		6 (38)	15(48)	
	Melano	2 (8)	5 (29)		0 (0)	4 (14)		3 (19)	2 (7)	
Tonsila	1 e 2	26(93)	12(67)	0,02*	12(100)	26(93)	0,34	11(69)	23(74)	0,58
Palatina	3 e 4	2(7)	6 (33)		0 (0)	2 (7)		5 (31)	8 (26)	
Mallampatti	1 e 2	10(36)	5 (28)	0,57	5(42)	7 (25)	0,29	4 (27)	16(52)	0,11
	3 e 4	18(64)	13(72)		7 (58)	21(75)		11(73)	15(48)	
Tonsila	<50%							9(47)	12(43)	0,66
Faríngea	>50%							10(53)	17(57)	
IAH	IAH	2,3±1,1	13±11	<0,001*	3,1±0,94	24±21	0,001*	0,88±0,5	5,6±4,7	<0,001*

Observa-se que nas mães e pais houve uma diferença significativa no IMC entre o grupo controle e AOS, com a média indicando obesidade na amostra com AOS. Entre os filhos, não houve diferença significativa entre os grupos.

A grande variação na cor da pele reflete a multi-eticidade da população estudada, característica da população brasileira.

Em relação ao tamanho das tonsilas palatinas houve diferença significativa apenas no grupo das mães. Já na avaliação de tonsilas faríngeas não houve diferença significativa entre os grupos com e sem AOS nos filhos.

Também não se observou diferença significativa na classificação de Mallampati em nenhum dos grupos.

Os dados da polissonografia encontram-se no material suplementar I. As mães com AOS apresentaram significativamente redução da eficiência do sono ( $p=0,04$ ), redução do tempo total de sono ( $p=0,03$ ) com aumento do sono superficial N1 ( $p=0,01$ ). Observou-se também aumento do IAH ( $p<0,001$ ), índice de dessaturações ( $p=0,009$ ) e de despertares ( $p<0,001$ ). Já nos pais houve aumento no IAH ( $p=0,001$ ), índice de dessaturações ( $p=0,005$ ), despertares ( $p=0,004$ ) e saturação média mais baixa no grupo com AOS ( $p=0,003$ ). Nos filhos, houve aumento do sono superficial N2 ( $p=0,04$ ) e redução de N3 ( $p=0,01$ ). O índice de despertares ( $p=0,001$ ) e IAH ( $p<0,001$ ) também foi significativamente maior no grupo com AOS. Estes dados demonstram sono de má qualidade tanto nos filhos quanto em seus pais, com aumento de sono superficial, redução de sono profundo e fragmentação do sono.

A tabela 3 contém os dados da fotografia facial. Os dados foram apresentados em média e desvio-padrão. Os ângulos foram medidos em graus e as outras medidas em milímetros. O valor de  $p$  foi ajustado por IMC, altura, idade. Análise realizada com o teste Glm univariado. Dados com  $p<0,05$  assinalados com \*.

Tabela 3 - Dados da fotografia facial

Variáveis fotográficas	Mãe sem AOS (n=28)	Mãe com AOS (n=18)	P	Pai sem AOS (n=12)	Pai com AOS (n=31)	P	Filhos Sem AOS (n=16)	Filhos com AOS (n=31)	P
Ângulo facial	10±5,2	10±5,3	0,64	6,0±8,4	6,3±7,9	0,83	14±4,9	14±4,9	0,53
Ângulo nasolabial	91±15	92±18	0,65	76±23	84±22	0,21	105±15	104±15	0,92
Ângulo cervicomenta	139±17	141±22	0,55	138±14	137±42	0,81	118±13	119±17	0,27
Sulco mentolabial	148±11	143±14	0,48	147±14	143±30	0,95	154±10	148±17	0,15
Altura facial	181±43	165±24	0,03*	188±23	178±30	0,39	150±48	145±18	0,58
Largura facial	124±29	118±18	0,10	128±17	115±30	0,38	105±32	105±11	0,69
Proporção facial	1,45±0,05	1,41±0,1	0,2	1,47±0,0	1,44±0,1	0,95	1,41±0,1	1,37±0,1	0,48
Altura terço superior	57±13	51±9	0,08	54±8,00	54±13	0,58	47±13	45±8,3	0,61
Altura terço médio	61±13	58±9	0,28	63±8,8	59±10	0,43	53±17	50±7,0	0,63
Altura terço inferior	62±19	59±12	0,14	69±11	61±14	0,05	47±16	48±8,4	0,97
Proporção médio/inferior	1,02±0,19	0,99±0,2	0,7	0,92±0,1	0,98±,21	0,14	1,11±0,2	1,12±0,2	0,37
Comprimento labial superior	16±5,0	16±4,3	0,83	17±3,0	16±4,7	0,72	13±4,9	14±2,2	0,92
Comprimento labial inferior	30 ±12	27±10	0,03*	35±6,4	32±8,5	0,10	21 ±8,8	20±4,6	0,15
Proporção labial	0,55± 0,14	0,62±0,2	0,05*	0,49±0,1	0,51±0,1	0,38	0,65± 0,1	0,65±0,2	0,79

Na avaliação das fotos dos filhos não houve diferença estatística entre os grupos com e sem AOS em nenhuma das medidas realizadas. Já nas mães observa-se uma redução da altura facial, da altura do terço superior, do comprimento labial inferior e aumento da proporção labial, sugerindo um padrão de face mais curta, braquicefálico. Os pais com AOS apresentaram uma altura do terço inferior reduzida em relação ao grupo sem AOS, também associado ao padrão de face encurtado.

A correlação entre a morfologia craniofacial dos pais com o aumento do IAH dos filhos foi feita através da regressão linear múltipla. Os dados completos encontram-se no material suplementar II. Os fatores avaliados pelo método “enter” foram o IMC, altura,

classificação de Mallampati, tamanho das tonsilas palatinas, idade, log IAH, e as seguintes medidas faciais; ângulo da convexidade da face, ângulo cervicomenal, largura e altura facial, proporção facial, as alturas dos terços da face, sulco mentolabial, proporção labial. Após o método “enter”, foram mantidas as medidas com  $p > 0,30$  e aplicado a segunda etapa pelo método “stepwise”.

A tabela 4 apresenta as características craniofaciais das mães correlacionados com o aumento do IAH dos filhos após o método stepwise. O coeficiente de determinação ( $r^2$ ) foi calculado em 0,27.

Tabela 4 – Regressão linear múltipla para as relações entre as variáveis independentes das mães com a gravidade da AOS nos filhos (logIAH como variável dependente). O coeficiente Beta( $\beta$ ) indica o aumento esperado no IAH por uma unidade de aumento nas medidas independentes. O modelo foi ajustado por idade, altura e IMC. Os valores com p significativo estatisticamente são marcados com \*.

Variável	B	t	p	IC 95%
Mallampati	0,30	2,19	0,03*	(0,02 - 0,57)
IMC	0,01	1,05	0,30	(-0,01 - 0,04)
Altura do terço médio	-0,02	-3,00	0,00*	(-0,03 - 0,01)

O aumento do IAH da criança foi proporcional ao aumento do índice de Mallampati da mãe e inversamente proporcional à altura do terço médio da mãe.

A tabela 5 apresenta as características craniofaciais dos pais correlacionados com o aumento do IAH nos filhos, após o método stepwise. O coeficiente de determinação foi calculado em 0,20.

Tabela 5 - Regressão linear múltipla para as relações entre as variáveis independentes dos pais com a gravidade da AOS nos filhos (logIAH como variável dependente). O coeficiente Beta( $\beta$ ) indica o aumento esperado no IAH por uma unidade de aumento nas medidas independentes. O modelo foi ajustado por idade, altura e IMC. Os valores com p significativo estatisticamente são marcados com \*.

Variável	B	t	p	IC 95,0%
Mallampati	-0,36	-1,81	0,08	(-0,76 – 0,04)
Ângulo cervicomenta	0,01	2,19	0,04*	(0,00 – 0,01)
Altura terço médio	-0,02	-1,89	0,07	(-0,03 – 0,00)
Sulco mentolabial	-0,01	-1,44	0,16	(-0,01 - 0,00)
Proporção labial	1,27	2,05	0,05*	(0,01 - 2,54)

Observa-se uma correlação positiva com o ângulo cervicomenta e marginalmente com a proporção labial.

## DISCUSSÃO

Este estudo analisou os fatores clínicos e de morfologia facial dos pais correlacionados com AOS nas crianças. Verificou-se uma correlação linear estatisticamente significativa do escore de Mallampati e de forma inversa com as medidas da altura do terço médio da face das mães com o IAH dos filhos. Já nas pais, as medidas correlacionadas foram a proporção labial e do ângulo cervicomenta.

A AOS apresenta inúmeros fenótipos e a avaliação das vias aéreas superiores e do esqueleto facial é fundamental para determinação de tais fenótipos e consequente tratamento individualizado. A detecção precoce de fatores relacionados à AOS na criança é importante para a prevenção de complicações futuras. O crescimento orofacial é maior entre o nascimento e os dois anos de idade e permanece muito ativo até seis anos. Nesta idade, 60% da face adulta é construída.<sup>21</sup> Portanto, ao reconhecer nos pais, alterações craniofaciais e outros fatores relacionados à AOS que influenciem na AOS da criança, pode-se intervir precocemente com uma monitorização constante do crescimento facial. A avaliação multidisciplinar desta

criança pelo Pediatra, Otorrinolaringologista, Ortodontista e Fonoaudiólogo, pode reduzir a chance de comorbidades.

Em uma extensa pesquisa bibliográfica não foram encontrados estudos de análise de fotografia facial conduzidos em pais e filhos e a relação da morfologia craniofacial dos pais com a gravidade de AOS em seus filhos. A comparação dos dados do atual estudo com a literatura é dificultada, pois há apenas um estudo sobre morfologia craniofacial utilizando fotografia facial em crianças.<sup>14</sup> A maioria dos estudos neste grupo etário utiliza a cefalometria, cujas medidas são diferentes da fotografia o que impede a comparação fidedigna.<sup>22,10,9</sup> Mesmo em adultos, esta avaliação é dificultada pois existem poucos trabalhos na literatura com fotografia facial.<sup>12,13,23</sup>

O escore de Mallampati aumentado nas mães, correlacionado com o IAH dos filhos neste estudo, é uma medida que está associada à posição e volume da língua e tamanho do palato mole, sendo habitualmente encontrado elevado em pacientes apneicos. Alta herdabilidade ( $h^2$ ) do volume da língua ( $h^2 = 36.5\%$ ;  $p = 0.0001$ ) e volume de tecidos moles na via aérea ( $h^2 = 37.5\%$ ;  $p = 0.0001$ ), foi encontrada em estudo de 55 pares com e sem AOS através de ressonância nuclear magnética (RNM)<sup>7</sup> e em outro estudo com gêmeos dizigóticos e monozigóticos adultos através de cefalometria onde foram mensurados a velofaringe ( $h^2 = 0.71$ ), nasofaringe ( $h^2 = 0.27$ ), orofaringe ( $h^2 = 0.26$ ), língua ( $h^2 = 0.35$ ) e altura de palato mole ( $h^2 = 1.67$ ).<sup>24</sup> Sutherland e colaboradores em estudos com fotografia facial e RNM verificaram aumento do tamanho da língua nos pacientes com AOS ( $r = 0.52$ ,  $P = 0.01$ ), fato também encontrado por Schwab *et al* e relacionado com redução de tamanho de via aérea.<sup>13,7</sup> O volume aumentado da língua está associado à deposição de gordura, sendo compatível com os achados de IMC aumentado nas mães com AOS.<sup>25</sup> Deste modo, ao detectar nos pais este padrão de deposição de gordura corporal pode-se atuar preventivamente com avaliação e controle nutricional em seus filhos.

O achado neste estudo da correlação inversa da altura do terço médio da face das mães com o IAH dos filhos sugere um menor crescimento da maxila nas mães. O crescimento vertical insuficiente pode levar a redução das dimensões das vias aéreas

superiores.<sup>22</sup> Sutherland e colaboradores encontraram através da fotografia facial, correlação da maior proporção da altura facial inferior em relação à superior com o IAH em crianças ( $p = 0.006$ ), sugerindo que este fator também está presente na infância.<sup>14</sup> Portanto, se a mãe apresenta um crescimento facial alterado, a criança deve ser monitorada continuamente em relação à sua morfologia craniofacial.

Na avaliação dos fatores determinantes de AOS dos pais houve uma correlação linear do aumento da proporção labial e do ângulo cervicomentar com o aumento do IAH das crianças.

O aumento do ângulo cervicomentar pode ser associado à postura de cabeça anteriorizada geralmente adotada em pacientes apneicos ou respiradores orais para aumento das vias aéreas.<sup>26</sup> O único estudo encontrado na literatura com fotografia facial na população pediátrica evidenciou a correlação linear deste ângulo com o IAH das crianças ( $p = 0.001$ ).<sup>14</sup> Kang verificou em pacientes adultos com AOS alta herdabilidade de medidas cefalométricas associadas à diminuição da lordose cervical, que é associada à postura anteriorizada da cabeça, com correlação estatisticamente significativa com tamanho e posição de mandíbula, IMC e dimensões da nasofaringe.<sup>24</sup>

A posição anteriorizada da cabeça associada com o aumento do ângulo cervicomentar encontrada no atual estudo sugere uma obstrução das vias aéreas superiores e deve-se buscar fatores causais nos filhos, como a hipertrofia de tonsilas faríngeas e palatinas e rinite alérgica.<sup>27</sup> No presente estudo não foram encontradas diferenças estatísticas no tamanho das tonsilas faríngeas e palatinas entre as crianças com e sem AOS, fato este possivelmente associado à média de idade dos grupos, em torno de sete anos. Nesta idade observa-se uma regressão do tecido linfóide, mas que pode gerar posturas inadequadas que se perpetuam mesmo após a remissão do fator causal.<sup>28 29</sup>

Um dado interessante sobre o ângulo cervicomentar é que seu aumento está associado a um maior risco de AOS, mesmo na ausência de fatores clínicos.<sup>30</sup> Portanto a avaliação deste ângulo, mesmo em pacientes pouco sintomáticos pode ajudar no diagnóstico de AOS.

O aumento do ângulo cervicomentar também está associado à maior deposição de gordura cervical e submentoniana. Em avaliação de 106 pacientes adultos que eram obesos e tiveram perda significativa de peso, os autores verificaram redução deste ângulo nos pacientes ( $r = 0.3$ ,  $p = 0.001$ ), demonstrando que esta medida reflete deposição de gordura regional.<sup>31</sup> Desta forma, a verificação da correlação do aumento deste ângulo nos pais com o IAH dos filhos pode ajudar a detectar padrão de obesidade familiar e de obstrução das vias aéreas superiores nas crianças.

As medidas de proporção labial aumentadas nos pais correlacionadas com o IAH dos filhos no presente estudo pode ser associada com uma deficiência de crescimento da mandíbula. Deficiências do crescimento maxilar e mandibular são similares na contribuição da colapsibilidade das vias aéreas e na AOS por ambas reduzirem o espaço aéreo faríngeo.<sup>13</sup> A forma braquicefálica da cabeça (face mais curta e larga), com inerente redução de mandíbula, está associada com AOS em caucasianos e também na população brasileira, considerada multirracial, em estudos com fotografia facial, ressonância magnética e cefalometria.<sup>32,23,13,2</sup> A herdabilidade da altura facial inferior foi encontrada em estudo com RNM entre 55 pares de pacientes com e sem AOS adultos ( $h^2 = 33\%$ ,  $P = 0.006$ ).<sup>6</sup> Desta forma, verificou-se no presente estudo um crescimento facial alterado nos pais associado à AOS nos filhos e como a literatura demonstra uma herdabilidade destas medidas, torna-se fundamental o monitoramento do crescimento facial destas crianças.

É importante frisar que a maioria dos estudos de morfologia craniofacial ocorreu em população predominantemente caucasiana, diferentemente deste estudo, onde encontramos uma grande variabilidade da cor da pele na amostra, sendo um reflexo da população brasileira, caracterizada como multirracial. A etnicidade pode modificar os padrões da morfologia craniofacial e deposição de gordura corporal, ressaltando a importância de estudos com amostras multirraciais. Os estudos sugerem que entre os asiáticos predominam as restrições do esqueleto, nos Afroamericanos o aumento de tecidos moles nas vias aéreas superiores, enquanto nos caucasianos há uma larga contribuição da obesidade.<sup>13,6</sup> No atual estudo na amostra dos pais e mães com apneia, a média do IMC sugere obesidade, o que pode levar a um aumento de

algumas medidas faciais e associação com redução do tamanho das vias aéreas superiores.

O presente estudo apresenta algumas limitações. O cálculo do poder amostral revela uma amostra satisfatória, pois sendo considerado o efeito de 0.70 do desfecho primário proporção facial,  $\alpha=0.05$  e  $n=47$ , o poder amostral foi de 0,99. Porém, houve perda de dados de cerca de oito por cento dos pais ( quatro pais), o que é um reflexo da população brasileira onde se observa um aumento de famílias monoparentais, que representam hoje 5% do total de famílias brasileiras.<sup>33</sup> Outro aspecto a ser considerado é que a população estudada foi derivada de um ambulatório de Pediatria, onde provavelmente, assim como na população geral, uma parte dos pacientes não apneicos são respiradores orais. Seria interessante um estudo onde no grupo controle fosse excluído respiradores orais ou que os dados destes pacientes fossem analisados em outro subgrupo. Outro ponto a ser discutido é que as medidas analisadas verificaram, em sua maioria, alterações do crescimento vertical, com poucas medidas relacionadas ao crescimento sagital, o que pode ser melhor explorado em estudos posteriores. Por se tratar do primeiro estudo até então visto na literatura entre pais e filhos com estudo da morfologia facial, novos estudos são importantes para confirmação dos achados.

## **CONCLUSÕES**

O presente estudo demonstrou que as medidas craniofaciais dos pais, a saber, índice de Mallampati, proporção labial e ângulo cervicomentar e inversamente, a altura do terço médio da face estiveram correlacionadas linearmente com o aumento do IAH dos filhos. Tais medidas refletem fatores associados à AOS como aumento de volume de língua, maior comprimento de palato mole, redução de altura de terço médio da face, estreitamento da maxila, posição anteriorizada da cabeça e aumento de deposição cervical de tecido adiposo, indicando uma possível herdabilidade da morfologia craniofacial na constituição do fenótipo da AOS.<sup>6,7,13,14,24</sup>

A AOS é uma doença complexa, multifatorial, com diferentes fenótipos. A avaliação dos pais das crianças com suspeita de distúrbios respiratórios do sono pode ajudar na detecção de alterações craniofaciais associados à AOS nos filhos. A intervenção precoce através de identificação e tratamento de fatores relacionados à obstrução

das vias aéreas, medidas preventivas de controle nutricional e tratamentos ortodônticos das disarmonias da face, pode evitar que a criança se torne futuramente um adulto apneico, com todas as implicações da doença na qualidade de vida.

## REFERÊNCIAS

1. Keenan BT, Kim J, Singh B, et al. Recognizable clinical subtypes of obstructive sleep apnea across international sleep centers: A cluster analysis. *Sleep*. 2018;41(3):1-14. doi:10.1093/sleep/zsx214
2. Redline S, Tishler P V. The genetics of sleep apnea. *Sleep Med Rev*. 2000;4(6):583-602. doi:10.1053/smr.2000.0120
3. Szily M, Tarnoki AD, Tarnoki DL, et al. Genetic influences on the onset of obstructive sleep apnoea and daytime sleepiness: A twin study. *Respir Res*. 2019;20(1):4-9. doi:10.1186/s12931-019-1095-x
4. De Paula LKG, Alvim RO, Pedrosa RP, et al. Heritability of OSA in a Rural Population. *Chest*. 2016;149(1):92-97. doi:10.1378/chest.15-0843
5. Mathur R DN. chi. *Ann Intern Med*. 1995;122:174-178.
6. Chi L, Comyn F-L, Keenan BT, et al. Heritability of Craniofacial Structures in Normal Subjects and Patients with Sleep Apnea. *Sleep*. 2014;37(10):1689-1698. doi:10.5665/sleep.4082
7. Schwab RJ, Pasirstein M, Kaplan L, et al. Family aggregation of upper airway soft tissue structures in normal subjects and patients with sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med*. 2006;173(4):453-463. doi:10.1164/rccm.200412-1736OC
8. Schwab RJ. Genetic determinants of upper airway structures that predispose to obstructive sleep apnea. *Respir Physiol Neurobiol*. 2005;147(2-3 SPEC. ISS.):289-298. doi:10.1016/j.resp.2005.06.006
9. Juliano ML, Machado MAC, De Carvalho LBC, et al. Polysomnographie findings are associated with cephalometric measurements in mouth-breathing children. *J Clin Sleep Med*. 2009;5(6):554-561.
10. Chambi-Rocha A, Cabrera-Domínguez ME, Domínguez-Reyes A. Breathing

- mode influence on craniofacial development and head posture. *J Pediatr (Rio J)*. 2018;94(2):123-130. doi:10.1016/j.jpmed.2017.05.007
11. Guilleminault C, Huang YS. From oral facial dysfunction to dysmorphism and the onset of pediatric OSA. *Sleep Med Rev*. 2018;40:203-214. doi:10.1016/j.smrv.2017.06.008
  12. Lee RWW, Petocz P, Prvan T, Chan ASL, Grunstein RR, Cistulli PA. Prediction of Obstructive Sleep Apnea with Craniofacial Photographic Analysis. *Sleep*. 2009;32(1):46-52. doi:10.5665/sleep/32.1.46
  13. Sutherland K, Schwab RJ, Maislin G, et al. Facial Phenotyping by Quantitative Photography Reflects Craniofacial Morphology Measured on Magnetic Resonance Imaging in Icelandic Sleep Apnea Patients. *Sleep*. 2014;37(5):959-968. doi:10.5665/sleep.3670
  14. Sutherland K, Weichard AJ, Davey MJ, Horne RS, Cistulli PA, Nixon GM. Craniofacial photography and association with sleep-disordered breathing severity in children. *Sleep Breath*. 2020;Sep;24(3):1173-1179. doi:10.1007/s11325-019-01928-x
  15. <https://www.who.int/toolkits/child-growth-standards/standards/body-mass-index-for-age-bmi-for-age>.
  16. Samsoon GL YJ. Difficult tracheal intubation: a retrospective study. 1987, 42:487-49. *Anaesthesia*. 1987;42:487-49.
  17. Brodsky L. Modern assessment of tonsils and adenoids. *Pediatr Clin North Am*. 1989;Dec 36(6):1551-1569. doi:10.1016/s0031-3955(16)36806-7 .
  18. Josephson GD, Duckworth L, Hossain J. Proposed definitive grading system tool for the assessment of adenoid hyperplasia. *Laryngoscope*. 2011;121(1):187-193. doi:10.1002/lary.21215
  19. Berry RB, Brooks R, Gamaldo CE et al. . for the AA of SM. *The AASM Manual for the Scoring of Sleep and Associated Events: Rules, Terminology and Technical Specifications. Version 2.0.*; 2012.
  20. R.B. M, S. G, R.H. M, et al. The use of clinical parameters to predict obstructive sleep apnea syndrome severity in children: The Childhood Adenotonsillectomy

- (CHAT) study randomized clinical trial. *JAMA Otolaryngol - Head Neck Surg.* 2015;141(2):130-136. doi:10.1001/jamaoto.2014.3049.The
21. Guilleminault C, Sullivan SS, Huang Y shu. Sleep-Disordered Breathing, Orofacial Growth, and Prevention of Obstructive Sleep Apnea. *Sleep Med Clin.* 2019;14(1):13-20. doi:10.1016/j.jsmc.2018.11.002
  22. Katyal V, Pamula Y, Martin AJ, Daynes CN, Kennedy JD, Sampson WJ. Craniofacial and upper airway morphology in pediatric sleep-disordered breathing: Systematic review and meta-analysis. *Am J Orthod Dentofac Orthop.* 2013;143(1):20-30.e3. doi:10.1016/j.ajodo.2012.08.021
  23. Capistrano A, Cordeiro A, Filho LC, et al. Facial morphology and obstructive sleep apnea. *Dental Press J Orthod.* 2015;20(6):60-67. doi:10.1590/2177-6709.20.6.060-067.oar
  24. Kang JH, Sung J, Song YM, Kim YH. Heritability of the airway structure and head posture using twin study. *J Oral Rehabil.* 2018;45(5):378-385. doi:10.1111/joor.12620
  25. Nashi N, Kang S, Barkdull GC, Lucas J DT. Lingual fat at autopsy. *Laryngoscope.* 2007;117(8):1467-1473. doi:10.1097/MLG.0b013e318068b566
  26. Ozbek MM, Miyamoto K, Lowe AA FJ. Natural head posture, upper airway morphology and obstructive sleep apnoea severity in adults. *Eur J Orthod.* 1998;20:133-143.
  27. Gulotta G, Iannella G, Vicini C, et al. Risk factors for obstructive sleep apnea syndrome in children: State of the art. *Int J Environ Res Public Health.* 2019;16(18). doi:10.3390/ijerph16183235
  28. Pagella F, De Amici M, Pusateri A, et al. Adenoids and clinical symptoms: Epidemiology of a cohort of 795 pediatric patients. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2015;79(12):2137-2141. doi:10.1016/J.IJPORL.2015.09.035
  29. Koca CF, Erdem T, Bayındır T. The effect of adenoid hypertrophy on maxillofacial development: An objective photographic analysis. *J Otolaryngol - Head Neck Surg.* 2016;45(1):1-8. doi:10.1186/s40463-016-0161-3
  30. Rizzatti FG, Mazzotti DR, Mindel J, et al. Defining Extreme Phenotypes of OSA

Across International Sleep Centers. *Chest*. 2020;158(3):1187-1197.  
doi:10.1016/j.chest.2020.03.055

31. Sutherland K, Chapman JL, Cayanan EA, et al. Parsing the craniofacial phenotype: effect of weight change in an obstructive sleep apnoea population. doi:10.1007/s11325-019-01826-2/Published
32. Cakirer B, Hans MG, Graham G, Aylor J, Tishler PV RS. The relationship between craniofacial morphology and obstructive sleep apnea in whites and in African-Americans. *Am J Respir Crit Care Med*. 2001;163:947–50.
33. [https://biblioteca.ibge.gov.br/visualizacao/periodicos/97/cd\\_2010\\_familias\\_do\\_micilios\\_amostra.pdf](https://biblioteca.ibge.gov.br/visualizacao/periodicos/97/cd_2010_familias_do_micilios_amostra.pdf).

## Material suplementar I

Dados da polissonografia da amostra

	Mãe s/ AOS (n=28)	Mãe c/ AOS (n=18)	P	Pai s/ AOS (n=12)	Pai AOS (n=31)	c/P	Filhos s/ AOS (n=16)	Filhos c/ AOS (n=31)	P
<b>LS</b>	26±31	28±32	0,84	43±49	19±31	0,07	27±21	24±31	0,73
<b>LREM</b>	117±77	155±99	0,17	110±62	116±58	0,77	152±57	122±51	0,07
<b>ES</b>	83±12	75±12	0,04*	83±10	83±13	0,96	89±7,7	86±9,6	0,25
<b>N1</b>	2,8±1,4	4,2±2,0	0,01*	3,2±1,5	3,6±1,9	0,47	2,3±0,85	2,9±1,4	0,11
<b>N2</b>	59±8,8	60±11	0,64	61±9,3	61±8,4	0,92	54±6,6	58±6,3	0,04*
<b>N3</b>	18±6,5	17±10	0,68	17±5,6	16±4,7	0,40	27± 6,7	22± 5,2	0,01*
<b>REM</b>	19,2±6,4	17,4±8,1	0,41	17,9±7	19±6,4	0,64	16±5,5	16±3,8	0,84
<b>TTS</b>	371±48	331±69	0,03*	360±39	378±45	0,21	400±35	414±82	0,55
<b>IAH</b>	2,3±1,1	13±11	<0,001*	3,1±0,94	24±21	0,001*	0,88±0,5	5,6±4,7	<0,001*
<b>IDS</b>	1,50±1,3	10±17	0,009*	2,5±3,7	15±14	0,005*	1,5±2,1	2,0±3,0	0,58
<b>IDP</b>	4,7±2,4	11±7,1	<0,001*	5,4±2,7	14±10	0,004*	3,1±1,8	5,3±1,9	0,001*
<b>S&lt;90 %</b>	5,2±15	3,5±7,2	0,64	0,19±0,3	5,9±11	0,09	4,0±15	9,6±22	0,38
<b>Smed</b>	95±2,5	94±2,1	0,07	95±1,4	93±1,9	0,03*	96±2,5	95±4,0	0,20

LS - Latência do Sono, LREM - Latência do Sono REM, ES - Eficiência do Sono, N1- Sono 1, N2 - Sono 2, N3 - Sono3, REM - sono REM, TTS - Tempo Total Sono, IAH - Índice de Apneia e Hipopneia, IDS - Índice de Dessaturação, IDP - Índice de Despertares, S<90% - Porcentagem de tempo com Saturação < 90%, Smed - Saturação Média

## Material Suplementar II

Tabelas de correlação linear com as variáveis independentes analisadas

**Tabela 1 - Regressão linear múltipla das variáveis independentes das mães com IAH dos filhos**

	Coeficientes não padronizados			Intervalo de confiança 95,0% para B	
	B	t	p	Limite inferior	Limite superior
$r^2=0,33$					
Idade	0,00	0,00	1,00	-0,03	0,03
Altura	0,00	0,05	0,96	-0,03	0,03
Tonsila	-0,09	-0,43	0,67	-0,52	0,34
Mallampati	0,30	1,59	0,12	-0,09	0,69
IMC	0,03	1,41	0,17	-0,01	0,08
ÍAH	-0,01	-0,51	0,61	-0,03	0,02
Ângulo perfil	0,01	0,36	0,72	-0,03	0,05
Ângulo cervicomenta	0,00	-0,22	0,83	-0,01	0,01
Largura facial	0,00	-0,20	0,84	-0,03	0,02
Proporção facial	-0,06	-0,04	0,97	-3,44	3,33
Altura terço médio	-0,01	-0,55	0,59	-0,06	0,04
Altura terço inferior	0,00	0,03	0,98	-0,05	0,05
Proporção terço médio/inferior	0,46	0,36	0,72	-2,17	3,09
Sulco mentolabial	0,00	0,08	0,94	-0,01	0,02
Mallampati	0,30	2,19	0,03*	0,02	0,57
IMC	0,01	1,05	0,30	-0,01	0,04
Altura terço médio	-0,02	-3,00	0,00*	-0,03	-0,01

$r^2=0,27$  Regressão linear múltipla, variável dependente: Log IAH filho,  $p<0.05^*$

**Tabela 2- Regressão linear múltipla das variáveis independentes dos pais com IAHL dos filhos**

	B	t	p	IC 95,0% para B	
				Limite inferior	Limite superior
R <sup>2</sup> =0,39					
Idade	0,02	1,47	0,15	-0,01	0,05
IMC	0,00	0,01	0,99	-0,05	0,05
Tonsila	0,06	0,17	0,87	-0,66	0,78
Mallampati	-0,49	-2,19	0,04	-0,94	-0,03
Proporção médio/inferior	4,02	1,74	0,09	-0,74	8,78
Ângulo cervicomental	0,01	2,20	0,04	0,00	0,01
Ângulo perfil	0,01	0,77	0,45	-0,02	0,04
Altura terço médio	-0,08	-1,76	0,09	-0,16	0,01
Altura terço inferior	0,06	1,45	0,16	-0,02	0,13
Sulco mentolabial	-0,01	-1,35	0,19	-0,01	0,00
Proporção facial	1,98	1,60	0,12	-0,57	4,52
Proporção labial	1,09	1,41	0,17	-0,50	2,68
<hr/>					
Mallampati	-0,36	-1,81	0,08	-0,76	0,04
Ângulo cervicomental	0,01	2,19	0,04*	0,00	0,01
Altura terço médio	-0,02	-1,89	0,07	-0,03	0,00
Sulco mentolabial	-0,01	-1,44	0,16	-0,01	0,00
Proporção labial	1,27	2,05	0,05*	0,01	2,54

R<sup>2</sup>=0,20

Regressão linear múltipla, variável dependente: Log IAHL filho, p<0.05\*

## 6. CONCLUSÃO

O presente estudo demonstrou que as medidas craniofaciais dos pais, a saber, índice de Mallampati, proporção labial e ângulo cervicomentar e inversamente, altura do terço médio da face estiveram correlacionadas linearmente com aumento do IAH nos filhos. Tais medidas refletem fatores associados à AOS como aumento de volume de língua, maior comprimento de palato mole, redução de altura da face, estreitamento da maxila, posição anteriorizada da cabeça, assim como maior deposição de gordura regional no pescoço indicando possível herdabilidade da morfologia craniofacial no fenótipo da AOS. Novos estudos em pais e filhos são importantes para comprovar os achados, assim como estudos de herdabilidade utilizando pais e filhos.

A detecção das alterações da morfologia craniofacial, especialmente em crianças, onde os tecidos ainda podem sofrer remodelação, é parte fundamental para o tratamento precoce.

A fotografia facial identifica as anormalidades do esqueleto craniofacial associado à AOS e por ser eficiente e de custo reduzido pode ser inserida na prática clínica na avaliação de pacientes com distúrbios respiratórios do sono.

A AOS é uma doença complexa, multifatorial, com diferentes fenótipos. A avaliação dos pais das crianças com suspeita de distúrbios respiratórios do sono pode ajudar na detecção precoce de fatores associados à AOS e assim atuar preventivamente, evitando que a criança se torne um adulto apneico, com todas as implicações da doença na qualidade de vida.

O pediatra tem papel fundamental no diagnóstico precoce e tratamento da AOS devido à proximidade com as famílias e à avaliação de rotina das crianças. A interação entre pediatras, otorrinolaringologistas, ortodontistas e especialistas em medicina do sono contribui efetivamente para o diagnóstico precoce e o tratamento da AOS infantil.

## ANEXO I

## SUBMISSÃO DE ARTIGO NO JORNAL DE PEDIATRIA

<b>Jornal de Pediatria</b>	
<b>Early management of obstructive sleep apnea syndrome by pediatricians and interactions with sleep medicine specialists</b>	
--Manuscript Draft--	
<b>Manuscript Number:</b>	
<b>Article Type:</b>	Review Article
<b>Keywords:</b>	obstructive sleep apnea; child; treatment
<b>Corresponding Author:</b>	Luciana Martins Universidade Federal de São João del-Rei - Campus Centro-Oeste Dona Lindu Divinópolis, MG BRAZIL
<b>First Author:</b>	Luciana Martins
<b>Order of Authors:</b>	Luciana Martins Gustavo Moreira Paulo Camargos
<b>Abstract:</b>	<p><b>Objective</b></p> <p>The objective of this study is to provide pediatricians with key-points for the recognition of children at risk for obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) and information on diagnosis and treatment through a collaboration with otorhinolaryngologists and/or sleep medicine specialists.</p> <p><b>Sources</b></p> <p>A search was performed for articles published between 2010 and 2020 and available in the MEDLINE and LILACS databases, using specific keywords, based on Medical Subject Headings (MeSH) and Embase Subject Headings (Emtree): "child", "pediatrics", "obstructive sleep apnea", "obesity", "adenotonsillar hypertrophy", "craniofacial abnormalities", "allergic rhinitis", and their variations. A total of 225 articles in English, Spanish and/or Portuguese were considered, of which 45 were selected for inclusion in this study.</p> <p><b>Conclusions</b></p> <p>Obstructive sleep apnea syndrome is a condition with multifactorial etiology. The study of each risk factor and associated comorbidities, as well as continuous patient monitoring, are therefore critical for therapeutic planning. Pediatricians have a fundamental role in the early diagnosis and treatment of OSAS due to their proximity to families and routine assessments since an early age. The interactions among pediatricians, otorhinolaryngologists, orthodontists and sleep medicine specialists effectively contribute to the adequate management of childhood OSAS.</p>

## **ANEXO II**

### **CAPITULO DO LIVRO “TENHO UM ALUNO COM TRANSTORNO DO SONO: E AGORA?”**

#### **Roncos e apneia obstrutiva do sono: quais as consequências nas crianças, quando suspeitar e como diagnosticar?**

##### **Autores**

Luciana Menezes Nogueira Martins, Gustavo Antônio Moreira, Paulo Augusto Moreira Camargos

##### **Resumo**

A apneia obstrutiva do sono é uma doença que pode ocorrer em cinco por cento das crianças e leva a alterações no desenvolvimento neurocognitivo e comportamental, bem como consequências cardiovasculares e metabólicas. É importante identificar sinais desta doença para encaminhar para diagnóstico e tratamento precoces.

##### **Introdução**

É muito comum o relato dos pais sobre a ocorrência do ronco durante o sono nos seus filhos, especialmente naqueles entre dois e dez anos de idade. Mas será que esse ronco leva à alguma consequência danosa para a saúde?

O ronco é um sintoma comum na infância. Cerca de 10% das crianças apresentam roncos noturnos. O som do ronco é ocasionado pela passagem do ar durante a inspiração por uma via aérea estreita. Quando a criança apresenta apenas roncos, na maioria das vezes não há alterações da qualidade do sono mas devemos estar atentos que este pode ser um sinal de obstrução da via respiratória e se esta obstrução leva a redução significativa ou total da entrada de ar nos pulmões pode levar a graves alterações na criança.

Estima-se que 20% das crianças que roncam frequentemente apresentam a Apneia obstrutiva do sono (AOS). A AOS na criança é definida como um distúrbio da respiração durante o sono caracterizada por obstrução parcial prolongada da via aérea superior e/ou obstrução completa e intermitente que interrompe a ventilação normal durante o sono e com ela o comprometimento do padrão normal do sono.

Estima-se que até 5% das crianças apresentam AOS, principalmente na idade entre 2 e 8 anos e predomínio no sexo masculino.

### **Quais as consequências da AOS?**

A AOS é uma doença grave, que pode levar a várias alterações no organismo, com consequências no coração, na pressão arterial, no comportamento, na cognição, na aprendizagem, nos níveis de gordura e açúcar no sangue.

Existem muitos estudos que comprovam que a criança com AOS apresenta maior frequência hiperatividade, desatenção e transtornos de humor, tais como a depressão. O déficit de atenção e hiperatividade está claramente relacionado à AOS, principalmente quando a alteração da respiração se mantém por um período maior que cinco anos. Felizmente estas alterações comportamentais tendem a desaparecer após tratamento da AOS, após a remoção cirúrgica das amígdalas e adenoides nos casos indicados. Os sintomas que acompanham a apneia do sono também estão relacionados a aumento do risco de depressão e tendência a comportamentos solitários.

A cognição também está prejudicada nestas crianças. Ela é definida como uma faculdade de adquirir um dado conhecimento e, por sua vez, está relacionada a outras habilidades tais como atenção e outras funções cerebrais, como é o caso da percepção visual e memória. Ambas, por sua vez, resultam em pior desempenho escolar. Crianças com AOS apresentam cerca de duas vezes mais chance de terem desempenho escolar reduzido com notas classificadas como “baixas” ou progresso escolar “abaixo” ou “bem abaixo” do esperado. Este fato foi demonstrado principalmente em disciplinas como matemática, ciências, leitura e linguagem. Estudos demonstraram que dentre as crianças que têm pior desempenho escolar, a prevalência de AOS é muito mais alta (em torno de 30%) em relação às crianças com desempenho escolar adequado.

Várias alterações metabólicas podem ser associadas à AOS. Nesta doença, a obstrução da via aérea resulta em baixa oxigenação sanguínea e como resposta a ela ocorre ativação cerebral e despertares durante o sono, como uma tentativa do

organismo de desobstruir a via aérea. Estas respostas do organismo podem levar a elevações súbitas da pressão arterial e da frequência cardíaca.

A fragmentação do sono secundária às paradas respiratórias e a diminuição da quantidade e qualidade do sono resultam em sonolência diurna, o que pode limitar a atividade física. Também pode alterar os hormônios que controlam a fome e saciedade, como a leptina e grelina. Desta forma, pode levar à obesidade e aumento de níveis de colesterol e triglicérides.

Nota-se que a AOS é, portanto, uma doença com inúmeras consequências e apresenta uma elevada prevalência. O diagnóstico e intervenção precoces são, portanto, fundamentais. Organizações científicas nacionais e internacionais recomendam educação e conscientização do público geral e de médicos a respeito da importância da identificação precoce dos grupos de risco para SAOS devido às profundas implicações para a saúde pública. Como os pais, os professores estão em contato diário com as crianças e, portanto, são peças-chave em detectar casos suspeitos de distúrbios do sono. Este capítulo visa orientar professores e pais a reconhecer crianças do grupo de risco para AOS e assim trabalhar de forma conjunta com médicos especialistas e não especialistas em Medicina do Sono para a identificação de anormalidades do sono e melhoria de sua qualidade.

### **Quais os principais fatores relacionados à AOS na criança?**

#### **1. Hipertrofia de amígdalas e adenoide**

É a causa mais comum de AOS na criança. As amígdalas e a adenoide são importantes para a defesa contra infecções e se localizam na região posterior do nariz (adenoide) e na garganta (amígdalas). Ambas se desenvolvem e crescem principalmente entre três e seis anos, e quando aumentadas, reduzem significativamente a passagem de ar, levando a criança a respirar predominantemente pela boca e ocasionando a apneia obstrutiva durante o sono. A cirurgia de retirada de ambas é denominada adenotonsilectomia e ela constitui o tratamento de primeira linha para crianças com AOS.

#### **2. Obesidade**

A gordura acumula-se na língua e nas paredes da garganta, a mesma região onde se localizam as amígdalas e por onde passa o ar durante a respiração, ocasionado diminuição do seu calibre e favorecendo seu colapso durante o sono, quando há o relaxamento da musculatura. O tecido adiposo aumentado no tórax e no abdômen também reduz a expansão dos pulmões durante a respiração, piorando, portanto, as apneias. Sabe-se que cada aumento de 10% do peso, aumenta em quase 30% a chance de desenvolver apneias moderadas e graves.

A privação de sono ocasionada pelas apneias também provoca alteração do padrão hormonal que controla a fome, com consequente aumento do apetite para alimentos com alta quantidade de carboidratos e gorduras, levando a um ciclo vicioso, isto é, quanto mais apneias, mais a pessoa aumenta o peso e assim, piora mais a AOS.

### 3. Rinite Alérgica

Nas crianças com distúrbios do sono a presença de rinite alérgica reduz a duração o sono REM, principal parte do sono relacionado à consolidação da memória e aprendizado. A rinite leva aumento de secreção nasal, coceira nasal e ocular e sensação de nariz obstruído. A congestão nasal causada pela inflamação do nariz leva à respiração oral, sono fragmentado, sensação de fadiga e indisposição para realizar atividades físicas.

### 4. Influência genética

Vários estudos demonstram que ocorre uma agregação familiar na AOS, isto é, se uma pessoa da mesma família apresenta AOS, existe maior probabilidade de outros parentes serem afetados, aspecto que cabe destacar, pois se os pais apresentam apneia do sono, é fundamental orientar a família sobre os cuidados com os filhos e procurar assistência médica, tratando os fatores relacionados à apneia, evitando que a criança venha a desenvolver a mesma enfermidade.

### **O que fazer se suspeito que meu aluno tem AOS?**

Existem questionários padronizados para a avaliação do sono nas crianças que ajudam na triagem e detecção dos distúrbios do sono, entre eles, a apneia obstrutiva

do sono. Apresenta-se aqui um deles, de fácil preenchimento e que pode ser usado como triagem nas escolas.

#### Ferramenta de Triagem de Apneia Obstrutiva do Sono em Pediatria (FASP)

A Ferramenta de Triagem de Apneia Obstrutiva do Sono em Pediatria (FASP)(anexo I) envolve seis perguntas a serem respondidas pelos pais sobre o dia-a-dia do sono da criança. O questionário original *Pediatric Obstructive Sleep Apnea Screening Tool* (PosaST) foi traduzido e validado para a língua portuguesa e contém seis perguntas das quais, cinco respostas enquadram-se nas seguintes categorias: “nunca” (pontuação 0), “raramente” (uma vez por semana;1 ponto) “ocasionalmente” (duas vezes por semana;2 pontos) “frequentemente” (três a quatro vezes por semana; 3 pontos) e “quase sempre” (mais de 4 vezes por semana;4 pontos). Por sua vez, a sexta pergunta que considera a intensidade do ronco é graduada da seguinte forma: muito baixo: pontuação zero, um pouco alto:1 ponto, alto: 2 pontos, muito alto: 3 pontos e extremamente alto: 4 pontos. O resultado é dado pela pontuação cumulativa, representada pela média de todas as seis questões de acordo com a seguinte fórmula:  $A = (Q1+Q2)/2$  ;  $B = (A+Q3)/2$ ;  $C = (B+ Q4)/2$ ;  $D = (C+Q5)/2$  e a pontuação acumulada =  $(D + Q6)/2$ , na qual Q1 corresponde à questão 1, Q2 corresponde à questão 2, e assim sucessivamente.O resultado é obtido a partir da avaliação original, utilizando uma pontuação acumulada  $\geq 2,72$  para indicativo de alto risco para AOS moderada ou grave.

#### Diagnóstico

Ao suspeitar de um distúrbio do sono na criança, esta deve ser encaminhada para um médico especialista em Medicina do Sono ou para um pediatra ou otorrinolaringologista para a confirmação diagnóstica e instituição do tratamento. O médico fará um exame clínico completo e solicitará exames complementares. Dentre estes exames destacam-se a polissonografia e a videonasolaringoscopia. A polissonografia avalia a qualidade do sono e da respiração e oxigenação da criança durante o sono ao passo que a videonasolaringoscopia poderá detectar as causas de obstrução da via aérea, como hipertrofia das amígdalas e adenóide e malformações da via aérea.

## Tratamento

O tratamento do ronco e SAOS na criança é individualizado, mas algumas medidas de natureza geral são aplicáveis:

- 1) Cuidados ambientais para rinite alérgica:
  - a) quarto da criança bem ventilado,
  - b) evitar excesso de objetos acumuladores de poeira como bichinhos de pelúcia, cortinas e tapetes
  - c) encapar colchões e travesseiros
  - d) limpeza nasal com soro fisiológico quando apresentar excesso de secreção
  - e) Caso persistam os sintomas procurar assistência médica
- 2) Manter hábitos alimentares saudáveis visando a obtenção de peso adequado, evitando a obesidade. A atividade física associada a uma alimentação adequada para redução de composição corporal de gordura é uma ótima estratégia não-medicamentosa para quadros de apneia mais leves. A redução de peso com consequente melhora da composição corporal é benéfica para a melhora da apneia, bem como qualidade de sono.
- 3) A higiene do sono é muito importante:
  - a) O lugar adequado para dormir deve ser escuro e silencioso
  - b) reduzir as luzes duas horas antes de dormir
  - c) desligar dispositivos eletrônicos, como celulares, televisores, tablets e computadores
  - d) evitar bebidas que contenham cafeína ou estimulantes antes de dormir,
  - e) ter um horário fixo para dormir e acordar
  - f) praticar atividades físicas durante o dia.

- 4) Em caso de suspeita de AOS ou roncos frequentes, procurar médico especialista em Medicina do Sono, Pediatra ou Otorrinolaringologista para avaliação do grau de obstrução da via aérea da criança e suas causas..

#### **REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS:**

Beebe DW. Neurobehavioral morbidity associated with disordered breathing during sleep in children: a comprehensive review. *Sleep* 2006;29(9):1115–34

Blechner M, Williamson AA. Consequences of Obstructive Sleep Apnea in Children. *Curr Probl Pediatr Adolesc Health Care*. 2016;46(1):19–26.

Cao, Y.;Wu,S.;Zhang,L.;Yang,Y.;Cao,S.;Li,Q. Association of allergic rhinitis with obstructive sleep apnea: A meta-analysis. *Medicine* 2018, Dec; 97(51)

Dehlink E. Update on paediatric obstructive sleep apnoea. *J Thorac Dis*. 2016;8(2):224–35.

Di Francesco, R.; Alvarez, J. Allergic rhinitis affects the duration of rapid eye movement sleep in children with sleep-disordered breathing without sleep apnea. *Int. Forum Allergy Rhinol*. 2016, 6, 465–471

Galland B, Spruyt K, Dawes P, Philippa S. McDowall, Elder D, Schaughency E, Sleep Disordered Breathing and Academic Performance: A Meta-analysis. *PEDIATRICS* Volume 136, number 4, October 2015

Gatica D, Zenteno D, Montesinos JJ, Manterola C. Association between sleep-related breathing disorders and academic performance among children from Concepción, Chile. *Arch Argent Pediatr*. 2017;115(5):497–501.

Gokdemir Y, Ersu R. Sleep disordered breathing in childhood. *Eur Respir Rev* . 2016;25(139):48–53

Gulotta G, Iannella G, Vicini C, Polimeni A, Greco A, de Vincentiis M, et al. Risk factors for obstructive sleep apnea syndrome in children: State of the art. *Int J Environ Res Public Health*. 2019;16(18).

Harding R, Haszard JJ, Schaughency E, Drummond B, Galland B. Parent report of children's sleep disordered breathing symptoms and limited academic progress in reading, writing, and math. *Sleep Med*. 2020 Jan; 65:105-112.

Hunter SJ, Gozal D, Smith DL, Philby MF, Kaylegian J, Kheirandish-Gozal L. Effect of sleep-disordered breathing severity on cognitive performance measures in a large community cohort of young school-aged children. *Am J Respir Crit Care Med*. 2016;194(6):739–47.

Moreira Gustavo, Haddad F BL. Recomendações para o Diagnóstico e Tratamento da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono na Criança e no Adolescente. 1o. ed. São Paulo: Estação Brasil; 2013.

Mukherjee S, Patel SR, Kales SN, Ayas NT, Strohl KP, Gozal D, et al. An official American Thoracic Society statement: The importance of healthy sleep: Recommendations and future priorities. *Am J Respir Crit Care Med*. 2015;191(12):1450–8.

Pires PJS, Mattiello R, Lumertz MS, Morsch TP, Fagundes SC, Nunes ML, et al. Validation of the Brazilian version of the Pediatric Obstructive Sleep Apnea Screening Tool questionnaire. *J Pediatr (Rio J)*. 2019;95(2):231–7.

Szily M, Tarnoki AD, Tarnoki DL, Kovacs DT, Forgo B, Lee J, et al. Genetic influences on the onset of obstructive sleep apnoea and daytime sleepiness: A twin study. *Respir Res*. 2019;20(1):4–9.

**Anexo I: Ferramenta de triagem de apneia obstrutiva do sono (FASP)**

	Nunca	Raramente (1 vez por semana)	Ocasionalmente (2 vezes por semana)	Frequentemente (3-4 vezes por semana)	Quase Sempre (mais de 4 vezes por semana)
O seu filho(a) para de respirar durante o sono?					
O seu filho(a) tem dificuldade para respirar durante o sono?					
Você alguma vez teve que sacudir seu filho(a) para fazê-lo voltar a respirar durante o sono?					
Com que frequência o seu filho(a) ronca?					
Você tem alguma preocupação sobre a respiração do seu filho(a) enquanto ele dorme?					
Quanto de alto é o ronco do seu filho(a)?	Baixo	Um pouco alto	Alto	Muito Alto	Extremamente Alto

## **ANEXO III**

### **CAPITULO DO LIVRO “TENHO UM ALUNO COM TRANSTORNO DO SONO: E AGORA?”**

#### **QUALIDADE DE SONO E ASSOCIAÇÃO COM DESEMPENHO ESCOLAR**

### **RESUMO**

O sono é um componente essencial do desenvolvimento e é necessário para a saúde física e mental. A privação e a má qualidade do sono tornaram-se comuns, principalmente em crianças e jovens em idade escolar e representam sérias ameaças ao sucesso acadêmico e à saúde e merece a atenção de pais e educadores.

Autores:

Luciana Menezes Nogueira Martins, Ingrid Morselli Santos, Luiza Teixeira Lelis, Pablo Mercury Carvalho Leal, Gustavo Antonio Moreira, Paulo Augusto Moreira Camargos

### **INTRODUÇÃO**

O sono reparador é um componente essencial do desenvolvimento saudável e é necessário indispensável para a saúde física e mental. No entanto, a privação do sono tornou-se comum nas sociedades contemporâneas, principalmente em crianças e jovens em idade escolar. A perda crônica o sono e consequente sonolência diurna levam ao comprometimento das atividades diárias e representam sérias ameaças ao bom desempenho escolar, à saúde física e mental de crianças e jovens, merecendo, portanto, destaque em estudos sobre esse complexo tema.

A maioria dos seres humanos passa pelo menos um terço de suas vidas dormindo. O sono é definido como um estado cerebral ativo com limiar sensorial reduzido, postura típica, imobilidade e, por conseguinte, redução na habilidade de resposta a estímulos de natureza diversa. O desenvolvimento dos ciclos de sono-vigília tem início ainda na vida fetal e amadurece até a adolescência, consolidando o padrão de sono do indivíduo adulto. A teoria dos fatores do sono surge como explicação para a transição vigília-sono. Segundo essa teoria, algumas substâncias, com destaque para

adenosina, são acumuladas no cérebro durante a vigília ao passo que durante o sono espontâneo a concentração de adenosina extracelular diminui uniformemente em diversas regiões do corpo. A segunda principal influência é a regulação circadiana do ciclo sono-vigília: possuímos relógios biológicos intrínsecos que determinam o padrão circadiano de alterações bioquímicas, fisiológicas e comportamentais. O principal sincronizador do ciclo sono-vigília é a luz por meio da estimulação e inibição da produção de uma substância denominada de melatonina. A secreção dessa substância em uma parte do cérebro denominada glândula pineal é modulada pela luz, tendo início com a redução da luminosidade natural do fim da tarde e interrompida pela luz da manhã. Assim, o ritmo circadiano, associado ao ciclo claro-escuro, diz ao corpo o momento ideal para dormir: a temperatura corporal diminui e processos metabólicos desaceleram. O padrão do ciclo sono-vigília modifica-se desde o nascimento até a vida adulta. Recém-nascidos apresentam episódios curtos de vigília entre os períodos de sono e somatória desses episódios levam a um tempo de sono total maior que os adultos. Apesar da variabilidade individual do ritmo circadiano, a maioria das crianças apresenta um ritmo estabelecido ao final do primeiro ano de vida, com um padrão semelhante ao do adulto. Assim, durante a infância ocorre uma progressiva redução do tempo total de sono, o qual passa a se concentrar no período noturno. Na adolescência ocorrem novas mudanças no ciclo sono-vigília: há o atraso e uma a duas horas no momento de início e de final do sono pelas alterações hormonais que ocorrem na puberdade. Esse atraso de fase é mais acentuado entre os meninos, que costumam ser mais vespertinos. A Fundação Nacional do Sono dos Estados Unidos da América preconiza dormir idealmente entre nove e onze horas por noite para crianças em idade escolar (de seis a treze anos) e oito a dez horas por noite para adolescentes (de quatorze a dezessete anos) para maximizar a saúde geral e bem-estar. Embora a quantidade ideal de sono por noite varie de uma pessoa para outra, as recomendações de duração do sono desempenham um papel importante na elaboração de políticas públicas, diretrizes e intervenções de comportamentos de sono saudáveis.

## DOENÇAS DO SONO

Distúrbios de sono são reportados frequentemente em crianças e adolescentes e sua frequência chega a 80% em algumas regiões do mundo. Contudo existe grande dificuldade na definição clara desses dados, pois existe grande variabilidade na complexa definição de “sono normal”, que pode variar em contextos regionais, culturais, ambientais e sociais. Os distúrbios do sonos mais comuns são:

- Insônia

Refere-se à dificuldade em iniciar e manter o sono associado a sintomas diurnos relacionado à redução do sono como irritabilidade, sonolência diurna, diminuição de memória e concentração. A queixa dos pais e responsáveis é de que a criança resiste para adormecer tem despertares noturnos frequentes ou são incapazes de dormirem sozinhas. Tem prevalência de 20 a 30%.

Nas crianças o principal fator são erros na higiene do sono, já na adolescência incluem-se outros fatores como problemas psiquiátricos (por exemplo, mais de 50% dos jovens com depressão têm insônia); história familiar de insônia, hábito de fumar, uso de bebidas alcoólicas e tempo de exposição prolongado à luminosidade das telas de computadores.

- Distúrbios respiratórios do sono

Entre eles incluem-se a roncopatia e a síndrome da apnéia obstrutiva do sono (SAOS), sendo que essa última tem uma prevalência próxima de 5% em crianças.

Roncopatia ou o ato de rressonar durante o sono consiste na produção de som rouco ou áspero vindo do nariz ou da boca que ocorre quando a respiração é parcialmente obstruída durante o sono.

A SAOS é a obstrução completa ou parcial das vias aéreas superiores, como o nariz e a garganta, durante o sono e que interrompe a ventilação normal. Ocorre com maior frequência nos pré-escolares, entre três e oito anos, faixa etária na qual o aumento das amígdalas e da adenoide é mais comum. Ela pode ter consequências graves como retardo do crescimento pondero-estatural, alterações do comportamento, prejuízo do aprendizado e de outras funções cognitivas da criança.

- Parassonias

Englobam comportamentos episódicos desagradáveis que ocorrem no início, e durante o sono ou ao despertar. Sonambulismo, terror noturno e pesadelos são exemplos de parassonias.

O sonambulismo é caracterizado por episódios de despertares parciais com comportamentos motores como andar, falar ou se sentar na cama. A criança não se recorda do episódio após o acontecimento.

O terror noturno consiste igualmente nesses despertares parciais, mas, diferentemente do sonambulismo, são caracterizados por despertar súbito, acompanhado por gritos e fúrias e atitude de pavor, podendo acarretar aumento da frequência cardíaca, sudorese e rubor de pele. Já no pesadelo a criança acorda assustada e relata histórias de conteúdo desagradável e ameaçador; raramente incluem gritos e falas.

- Distúrbios do movimento relacionados com o sono

Representado principalmente pela chamada síndrome das pernas inquietas, que envolve a vontade irresistível de mover corpo e membros e sensações como formigamento e dolorimento geralmente anormais nas pernas, braços ou ambos, estando as crianças sentadas ou deitadas. Nestas situações há dificuldade para relaxar e dormir.

O sono tem função predominantemente reparadora, exercendo função de e de recuperação física e mental, além de contribuir para o desenvolvimento neuropsíquico do ser humano.

Vários estudos demonstram uma relação significativa entre a fragmentação do sono e a diminuição da capacidade cognitiva, principalmente quando se avalia o domínio do controle executivo, memória de trabalho e atenção.

A privação de sono, tanto parcial quanto total, também prejudica a formação inicial quanto a subsequente consolidação de memórias em crianças e adolescentes. As informações aprendidas são mais eficientemente memorizadas, após um período adequado de sono e provavelmente relacionadas ao estágio de sono denominado REM no qual as informações consolidadas a longo prazo. Portanto, a privação de sono ou mesmo um sono de má qualidade podem comprometer os processos de memorização e de raciocínio lógico

Uma pesquisa realizada no Canadá demonstrou que 25% dos indivíduos que cursavam o ensino fundamental apresentaram desordens de sono durante a infância e essa prevalência aumentou quando à elas se associavam doenças crônicas, psiquiátricas ou do neurodesenvolvimento. O sono insuficiente é prejudicial ao desenvolvimento neuropsicomotor, da infância à adolescência, fato que foi demonstrado por meio de avaliações do humor, do desempenho e rendimento escolares, e habilidades cognitivas. Cerca de 11% dos meninos e meninas com restrições no sono demonstraram comportamento depressivo mais evidente quando foram comparados com seus pares que apresentavam sono regular. As crianças com número total de horas insatisfatórias de sono, obtiveram predominantemente notas médias que excelentes, em comparação com as crianças com horas de sono satisfatórias. Em testes cognitivos de resolução de problemas, crianças com média de três horas de sono a menos que o grupo controle tiveram 12% a mais de respostas erradas.

Os distúrbios persistentes para iniciar ou manter o sono aumentam o risco para o baixo desempenho acadêmico. Este fato foi demonstrado em uma coorte de escolares na Noruega que avaliou o desempenho acadêmico de quase 4 mil escolares quando elas tinham 7-9 anos e posteriormente aos 11-13 anos. Concluiu-se que a persistência do distúrbio do sono esteve associado comprometimento cognitivo. Assim, os efeitos negativos de distúrbios de sono persistentes sugerem que mais ênfase deve ser colocada em intervenções preventivas em crianças em idade escolar.

Na adolescência o sono também exerce um papel fundamental na função cognitiva e ao bem-estar mental. O sono e o desenvolvimento cerebral estão bidirecionalmente relacionados, ou seja, a maturação do cérebro é refletida no eletroencefalograma e o sono desempenha papel na formação do cérebro. Muitos estudos mostram que sono insuficiente está associado a mau funcionamento emocional em adolescentes sem transtornos psiquiátricos diagnosticados. Menor número de horas de sono de qualidade está associado a mais sintomas depressivos, sentimentos de desesperança e maior ansiedade.

O sono na adolescência auxilia no aprendizado, memória, atenção, cognição e processamento emocional. Adolescentes necessitam entre 8 e 10 horas de sono mas

mudanças nos sistemas biológicos que regulam o sono resultam em horários tardios para adormecer, enquanto os horários de acordar, associados aos horários de início das atividades na escola, permanecem inalterados ou mudam para mais cedo. Isso resulta em um padrão de sono insuficiente crônico para muitos adolescentes. Essa redução é agravada pelo uso abusivo de celulares e jogos eletrônicos que interferem negativamente na produção de melatonina pelo excesso de estímulo cerebral e exposição à luz das telas destes dispositivos. Consequentemente, o caráter crônico do sono insuficiente mal programado, endêmico entre os adolescentes, é preocupante.

Em resumo, um conjunto de sintomas associados à má qualidade do sono interfere no desempenho escolar, comprometendo o processo educacional, sendo que os principais apresentados pelas crianças com dificuldades referentes ao sono são: irritabilidade, déficit de atenção, instabilidade de humor e dificuldade de socialização. São necessárias intervenções para diagnosticar e tratar precocemente crianças e adolescentes com distúrbios do sono, evitando suas consequências tanto no desempenho escolar quanto emocionais e comportamentais.

## DIAGNÓSTICO DOS DISTÚRBIOS DO SONO

O professor acompanha seus alunos diariamente, conhecendo seus comportamentos e hábitos. Como é importante diagnosticar distúrbios do sono, uma vez que podem gerar prejuízos no desenvolvimento da criança. Ele pode contribuir com a aplicação de um questionário destinado a identificar indivíduos com suspeita desses distúrbios.

O Questionário de Hábitos de Sono das Crianças (CSHQ), foi originalmente desenvolvido por pesquisadores americanos para avaliar o comportamento do sono em crianças em idade escolar, já validado em português para ser respondido pelos pais. As perguntas foram selecionadas para incluir os sintomas dos distúrbios do sono infantil mais comuns. As perguntas foram agrupadas conceitualmente em oito subescalas, refletindo os seguintes domínios do sono: resistência em ir para a cama; início do sono; duração do sono; ansiedade do sono; despertares noturnos; parassonias; distúrbios respiratórios do sono; e sonolência diurna. A frequência desses sintomas é classificada em uma escala de três pontos, como “habitualmente” (cinco a sete vezes por semana, totalizando três pontos), “às vezes” (duas a quatro

vezes por semana, totalizando dois pontos) ou “raramente” (0 a uma vez por semana, totalizando um ponto). Quanto maior a pontuação, maior a chance de suspeita da presença desses distúrbios.

## QUESTIONÁRIO DE HÁBITOS DE SONO DAS CRIANÇAS (CSHQ)

Favor marcar um “x” no quadrado que corresponde à frequência que o sintoma ocorre.

HORA DE DEITAR		pontuação: (3) (2) (1)		
Durante a semana: ___ horas e ___ minutos		No fim de semana: ___ horas e ___ minutos		
A criança...	Habitualmente (5 a 7 vezes por semana)	Às vezes (2 a 4 vezes por semana)	Raramente (uma vez ou nunca)	
Deita-se sempre à mesma hora (R)(1)	( )	( )	( )	
Depois de se deitar, demora até 20 minutos a adormecer (R)(2)	( )	( )	( )	
Adormece sozinha na sua própria cama (R)(3)	( )	( )	( )	
Adormece na cama dos pais ou dos irmãos (4)	( )	( )	( )	
Precisa de um dos pais no quarto para adormecer (5)	( )	( )	( )	
“Luta” na hora de deitar (chora, recusa-se a ficar na cama, etc.)(6)	( )	( )	( )	
Tem medo de dormir no escuro (7)	( )	( )	( )	
Tem medo de dormir sozinha (8)	( )	( )	( )	
<b>COMPORTAMENTO DURANTE O SONO</b>				
Tempo total de sono diário: _____ horas e _____ minutos (considerando o sono da noite e as sestas)				
A criança...	Habitualmente (5-7 vezes)	Às vezes (2-4 vezes)	Raramente (0-1 vez)	
Dorme pouco (9)	( )	( )	( )	
Dorme o que é necessário (R)(10)	( )	( )	( )	
Dorme o mesmo número de horas todos os dias (R)(11)	( )	( )	( )	
Molha a cama à noite (crianças com 4 ou mais anos) (12)	( )	( )	( )	
Fala a dormir (13)	( )	( )	( )	
Tem sono agitado, mexe-se muito a dormir (14)	( )	( )	( )	
Anda a dormir, à noite (sonambulismo) (15)	( )	( )	( )	
Vai para a cama dos pais, irmãos, etc., a meio da noite (16)	( )	( )	( )	
Range os dentes durante o sono (17)	( )	( )	( )	
Ressona alto (18)	( )	( )	( )	
Parece parar de respirar durante o sono (19)	( )	( )	( )	
Ronca ou tem dificuldade em respirar durante o sono (20)	( )	( )	( )	
Tem dificuldade em dormir fora de casa (na casa de familiares, nas férias, etc.) (21)	( )	( )	( )	
Acorda durante a noite a gritar a sua incontrolável (22)	( )	( )	( )	
<b>ACORDAR DURANTE A NOITE</b>				
Acorda uma vez durante a noite (24)	( )	( )	( )	
Acorda mais de uma vez durante a noite (25)	( )	( )	( )	
<b>ACORDAR DE MANHÃ</b>				
Hora de acordar nos dias de semana: ___ horas e ___ minutos		no fim de semana: ___ horas e ___ minutos		
A criança...	Habitualmente (5-7 vezes)	Às vezes (2-4 vezes)	Raramente (0-1 vez)	
De manhã, acorda por si própria (R)(26)	( )	( )	( )	
Acorda mal-humorada (27)	( )	( )	( )	
De manhã, é acordada pelos pais ou irmãos (28)	( )	( )	( )	
Tem dificuldade em sair da cama de manhã (29)	( )	( )	( )	
Demora a ficar bem acordada (30)	( )	( )	( )	
<b>SONOLÊNCIA DURANTE O DIA</b>				
Parece cansada (31)	( )	( )	( )	
Na semana passada, a criança pareceu sonolenta em alguma destas situações?	Não ficou sonolenta (1)	Ficou muito sonolenta (2)	Adormeceu (3)	
A ver televisão (32)	( )	( )	( )	
A andar de carro (33)	( )	( )	( )	

## O QUE FAZER QUANDO EU DESCONFIO QUE MEU ALUNO TEM UM DISTÚRBO DO SONO

Se algum aluno apresentou questionários CSHQ alterado, queixa de sono insuficiente ou apresenta sintomas de distúrbios do sono em casa ou na escola, como sonolência diurna excessiva e alterações de humor é de extrema importância a intervenção da família e do professor. Portanto, oriente a família a procurar um médico especialista em Medicina do Sono ou pediatra, caso não haja especialistas do sono em sua cidade.

### HIGIENE DO SONO

Como já foi dito anteriormente, os distúrbios do sono podem ter um grande impacto no desenvolvimento e na aprendizagem da criança. Nesse contexto, a higiene do sono é fundamental para evitar a privação do sono e prevenir transtornos a ela associados. Consiste em uma série de medidas que auxiliam na adequação em uma noite de sono reparador.

No ambiente escolar é de fundamental importância o professor conversar sobre higiene do sono tanto em aula com os alunos, quanto durante as reuniões de pais. Nessas ocasiões, reforça-se então que a higiene do sono é função dos pais e que a adoção é de suma importância para gerar benefícios no que tange à melhoria da qualidade do sono em crianças e adolescentes. Os educadores devem ensinar higiene do sono e incentivar suas práticas por meio de dinâmicas e atividades pedagógicas envolvendo crianças e adolescentes, obtendo assim por meio da colaboração mútua entre família e escola a melhoria dos hábitos e comportamentos envolvendo o processo de adormecer.

#### Orientações de higiene do sono

##### *Até 1 ano*

Crianças até 1 ano dependem exclusivamente da interação com os pais. Assim, a orientação da higiene do sono deve ser oferecida a família. Rotinas regulares na hora de dormir podem evitar problemas futuros.

- Manter uma rotina para cochilos diurnos; evitar cochilos no final da tarde.
- Criar uma rotina para a hora de dormir como tomar um banho morno, colocar pijama, escovar os dentes, ler histórias, rezar

- Colocar a criança na cama ainda acordada.
- Criar ambiente que induza ao sono, tais como luz fraca, ausência de ruídos e estímulos.

#### *De 1 a 13 anos*

Nessa idade é fundamental anunciar que é chegada a hora de dormir. A criança deve guardar seus brinquedos, colocar pijama, tomar leite ou fazer uma refeição leve e escovar os dentes. A rotina antes de dormir deve incluir atividades relaxantes.

- Evitar cochilos ao final da tarde.
- Criar ambiente que leve ao sono com luz fraca, sem ruídos e estímulos que prejudiquem o relaxamento.
- Evitar bebidas potencialmente estimulantes (chocolate, refrigerantes e medicamentos que contêm cafeína)
- Coibir o hábito de adormecer bebendo leite ou assistindo TV.

#### *Adolescentes*

- Manter o mesmo horário para dormir e despertar todos os dias, inclusive finais de semana.
- Evite cochilos após as 16 horas
- Evitar bebidas (chocolate, refrigerante, café) e medicações que contenham cafeína.
- Evitar bebidas alcoólicas e cigarro.
- Expor à luz forte todas as manhãs ao acordar para ajudar a reajustar seu relógio interno para um horário anterior que pode ajudá-lo a adormecer mais cedo.
- Criar ambiente que leve ao sono, sem exposição à televisão, computador e jogos eletrônicos e luminosidade noturna excessiva à noite antes de dormir para evitar que seu relógio interno se mova para mais tarde.
- Evitar atividades físicas antes de dormir e reservar um tempo para relaxar por cerca de 30 minutos antes de dormir.

#### REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Boscolo, R. A., Sacco, I. C., Antunes, H. K., Mello, M. T. D., & Tufik, S. Avaliação do padrão de sono, atividade física e funções cognitivas em adolescentes escolares. *Revista portuguesa de ciências do desporto* 2007;7(1), 18-25

Hale, L., Berger, L. M., Le Bourgeois, M. K., & Brooks-Gunn, J. Social and demographic predictors of preschoolers' bedtime routines. *Journal of developmental and behavioral pediatrics: JDBP* 2009; 30(5), 394

Liu, J., Liu, X., Ji, X., Wang, Y., Zhou, G., & Chen, X. Sleep disordered breathing symptoms and daytime sleepiness are associated with emotional problems and poor school performance in children. *Psychiatry research* 2016; 242, 218-225

Owens, J. Classification and epidemiology of childhood sleep disorders. Primary care: clinics in office practice. *Primary Care: clinics in office practice* 2008;35(3):533-46

Paiva, T., & Rebelo-Pinto, H. Clínica do sono da criança e do adolescente. Paiva T, Andersen M, Tufik S, *O Sono e a Medicina do Sono*. Sao Paulo: Ed. Manole 2014; 599-624

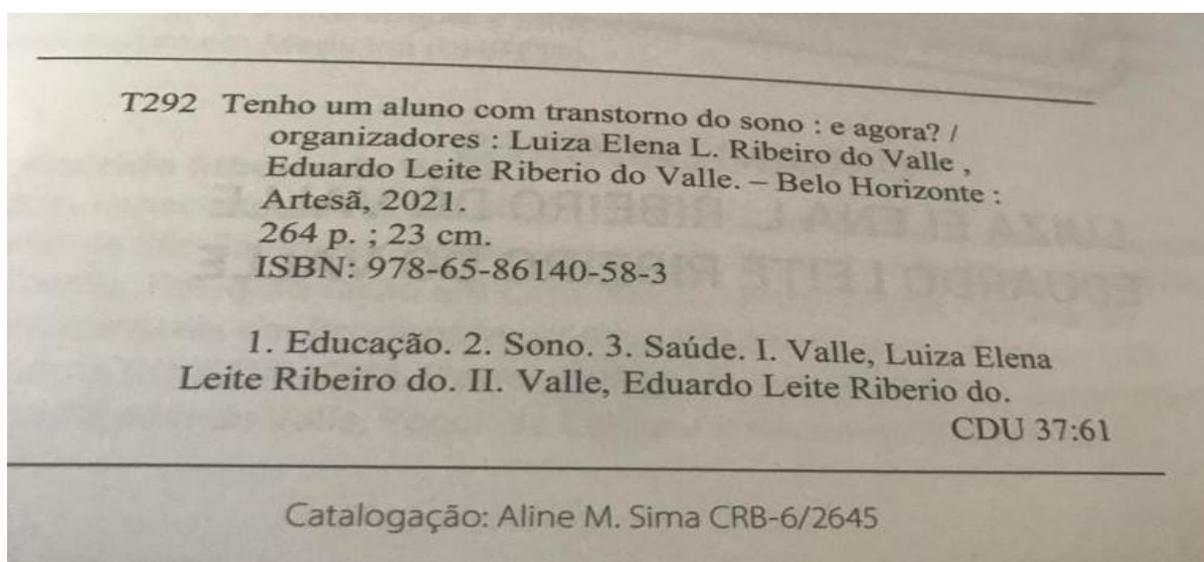
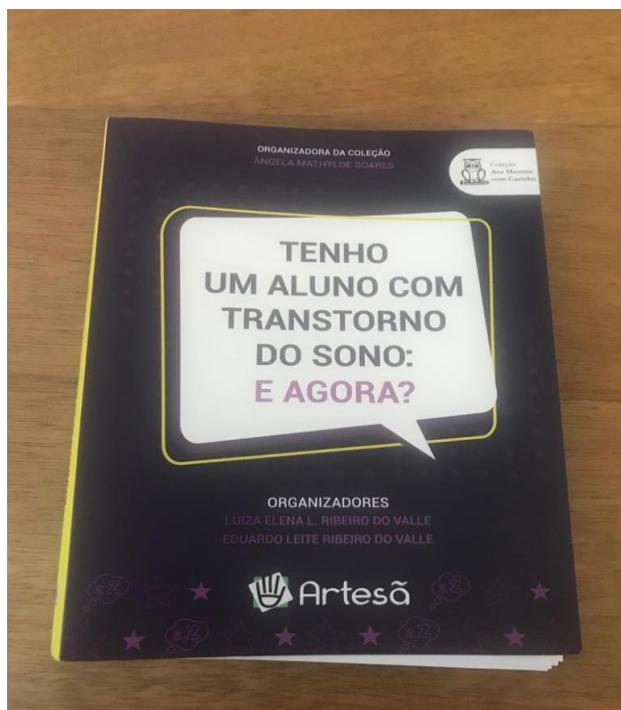
Paruthi, S., Brooks, L.J., D'Ambrosio, C., Hall, W.A., Kotagal, S., Lloyd, R.M., Malow, B.A., Maski, K., Nichols, C., Quan, S.F., Rosen, C.L., Troester, M.M., Wise, M.S. Consensus Statement of the American Academy of Sleep Medicine on the Recommended Amount of Sleep for Healthy Children: Methodology and Discussion. *J Clin Sleep Med*. 2016;12(11):1549-1561

Pires, P.J.S., Mattiello, R., Lumertz, M.S., Morsch, T.P., Fagundes, S.C., Nunes, M.L., Gozal, D., Renato T. Validação da versão brasileira do questionário Pediatric Obstructive Sleep Apnea Screening Tool. *Jornal de Pediatria*.2019; 95(2), 231-237

Stormark, K.M., Fosse, H.E., Pallesen, S., Hysing, M. The association between sleep problems and academic performance in primary school-aged children: Findings from a Norwegian longitudinal population-based study. *PLoS One*. 2019; 7,14(11):0224139  
Tarokh, L., Saletin, J.M., Carskadon, M.A. Sleep in adolescence: Physiology, cognition and mental health. *Neurosci Biobehav Ver*. 2016;70:182-188

Tikotzky, L., & Shaashua, L. Infant sleep and early parental sleep-related cognitions predict sleep in pre-school children. *Sleep medicine*. 2012;13(2), 185-192

ANEXO IV  
CAPA E CATALOGAÇÃO DO LIVRO



## Material Suplementar I

### Questionário aplicado na pesquisa

#### Questionário

Data da avaliação: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_\_

**Nome do participante:** \_\_\_\_\_

Sexo: ( ) Masculino ( ) Feminino Data de nascimento: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_

Cor da pele: ( ) parda ( ) branca ( ) preta

**Nome da mãe:** \_\_\_\_\_ Telefone: \_\_\_\_\_

Profissão: \_\_\_\_\_ Data de nascimento: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_

Cor da pele: ( ) parda ( ) branca ( ) preta

Escolaridade:

- |                                   |                                |
|-----------------------------------|--------------------------------|
| ( ) Lê e escreve                  | ( ) Ensino médio completo      |
| ( ) Ensino Fundamental incompleto | ( ) Ensino superior incompleto |
| ( ) Ensino Fundamental Completo   | ( ) Ensino Superior Completo   |
| ( ) Ensino médio incompleto       |                                |

**Nome do pai:** \_\_\_\_\_ Telefone: \_\_\_\_\_

Profissão: \_\_\_\_\_ Data de nascimento: \_\_\_\_/\_\_\_\_/\_\_\_\_

Cor da pele: ( ) parda ( ) branca ( ) preta

Escolaridade:

- |                                   |                                |
|-----------------------------------|--------------------------------|
| ( ) Lê e escreve                  | ( ) Ensino médio completo      |
| ( ) Ensino Fundamental incompleto | ( ) Ensino superior incompleto |
| ( ) Ensino Fundamental Completo   | ( ) Ensino Superior Completo   |
| ( ) Ensino médio incompleto       |                                |

#### Renda familiar

- |                               |                                |
|-------------------------------|--------------------------------|
| ( ) Até um salário mínimo     | ( ) De 5 a 10 salários mínimos |
| ( ) De 1 a 2 salários mínimos | ( ) Mas de 10 salários mínimos |

( ) De 2 a 5 salários mínimos

Número de pessoa na família: \_\_\_\_\_

Criança mora com os pais? ( ) Sim ( ) Não

Criança usa algum medicamento com frequência? ( ) Sim ( ) Não

Quais? \_\_\_\_\_

Apresenta alguma outra doença? Qual? \_\_\_\_\_

Já foi submetida a cirurgia de amígdalas e/ou adenóide? ( ) sim ( ) não

Usa celulares ou outros aparelhos eletrônicos antes de dormir? ( ) sim ( ) não

Por quanto tempo?

Qual o horário que a criança costuma dormir?

Qual o horário que a criança costuma acordar?

### EXAME FÍSICO CRIANÇA

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

Peso: \_\_\_\_\_ Kg Altura: \_\_\_\_\_ cm

#### Ectoscopia:

Fácies: ( ) Normal ( ) Respirador oral

#### Oroscopia:

Palato: ( ) normal ( ) ogival

Tonsilas: Grau ( ) 1 ( ) 2 ( ) 3 ( ) 4

Mordida: Classe ( ) 1 ( ) 2 ( ) 3

Mallampati: ( ) 1 ( ) 2 ( ) 3 ( ) 4

Videonaso \_\_\_\_\_

### EXAME FÍSICO MÃE

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

Peso: \_\_\_\_\_ Kg Altura: \_\_\_\_\_ cm

#### Ectoscopia:

Fácies: ( ) Normal ( ) Respirador oral

#### Oroscopia:

Palato: ( ) normal ( ) ogival

Tonsilas: Grau     1     2     3     4  
 Mordida: Classe  1     2     3  
 Mallampati:      1     2     3     4

**Videonaso** \_\_\_\_\_

### EXAME FÍSICO PAI

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

Peso: \_\_\_\_\_ Kg Altura: \_\_\_\_\_ cm

#### **Ectoscopia:**

Fácies:  Normal     Respirador oral

#### **Oroscopia:**

Palato:             normal             ogival  
 Tonsilas: Grau    1     2     3     4  
 Mordida: Classe  1     2     3  
 Mallampati:      1     2     3     4

**Videonaso** \_\_\_\_\_

## Material Suplementar II – Termo de Ciência e Consentimento

### Termo de Consentimento Livre e Esclarecido

Nome do projeto – “Avaliação dos Aspectos Físico-constitucionais da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono: Estudo Prospectivo em Pais e Filhos”

Nome do participante: \_\_\_\_\_

Data de nascimento: \_\_\_\_\_ Idade: \_\_\_\_\_ CPF: \_\_\_\_\_

Endereço: \_\_\_\_\_

Finalidade e objetivos – Você e seu filho são convidados a participar da pesquisa que tem o nome de “Avaliação dos Aspectos Físico-constitucionais da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono: Estudo Prospectivo em Pais e Filhos”. A pesquisa pretende verificar quais os padrões de morfologia crânio facial isto é, medidas da face e de composição corporal correlacionados a SAOS ( síndrome da apneia obstrutiva do sono) são hereditários. Esta pesquisa pode ajudar a detectar precocemente fatores relacionados à SAOS e tratá-los, evitando o aparecimento da doença nas crianças.

Se concordar em participar, você e seus filhos passarão por alguns procedimentos:

Vocês passarão por uma entrevista e responderão a dois questionários (Pittsburg e Epworth).

Será realizado um exame da cavidade oral e serão feitas medidas de peso, altura e de circunferência cervical e abdominal e os exames polissonografia respiratória e videonasolaringoscopia e uma fotografia digital da face.

A partir disso, os resultados serão avaliados e irão compor a pesquisa.

---

Prova comprobatória da responsabilidade:

Riscos e benefícios pela participação do estudo: fui informado (a) que os riscos pela participação se referem ao constrangimento em responder o questionário e realização de exame físico, à quebra de sigilo e ao incômodo na realização dos exames polissonografia e videonasolaringoscopia. Para minimizar estes riscos, fui informado (a) que a aplicação do questionário e exame físico serão realizados em um consultório médico reservado e por um único examinador, mantendo a privacidade e discricção. Em nenhum dos exames é utilizado material perfurante ou invasivo, também fui informado que será aplicado um anestésico tópico para a realização da videonasolaringoscopia e que todo o material utilizado é esterelizado seguindo as normas técnicas da Vigilância Sanitária. O termo de sigilo será assinado pelos pesquisadores, nomes não serão mencionados na pesquisa, os questionários ficarão sobre guarda segura e controlado pelos pesquisadores e que, a qualquer momento poderei esclarecer dúvidas sobre os procedimentos. Os benefícios resultantes deste estudo podem ajudar a detectar

precocemente fatores relacionados à SAOS e tratá-los, evitando o aparecimento da doença nas crianças.

Assim, eu, \_\_\_\_\_ manifesto aqui que concordo em participar e concordo com a participação de meu

filho \_\_\_\_\_ do estudo intitulado “Avaliação dos Aspectos Físico-constitucionais da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono: Estudo Prospectivo em Pais e Filhos” sob responsabilidade da Universidade Federal de Minas Gerais, e afirmo de que fui informado (a) de que para participar deste estudo, aceito a realização no meu filho do exame físico, e exames de polissonografia e videonasolaringoscopia.

Afirmo também que fui informado (a) de que poderei fazer, a qualquer momento, perguntas para esclarecimentos de dúvidas a respeito da pesquisa, de que a participação no estudo é totalmente voluntária e de que poderei deixar de participar do estudo a qualquer momento sem que isto tenha qualquer repercussão ou impedimentos em cuidados ou tratamentos que recebo nos serviços de saúde do sistema único de saúde (SUS).

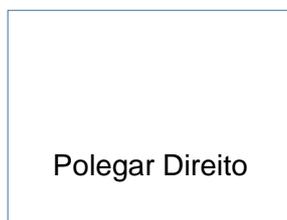
Fui informado (a) ainda, que as informações serão tratadas com o mais absoluto sigilo e confidencialidade e de que o pesquisador manterá estes dados arquivados durante um período mínimo de 5 anos a contar da data inicial. Meu filho foi informado da participação da pesquisa através do TALES - termo de assentimento, assinado por ele.

Estou ciente de que, para esclarecer dúvidas, posso entrar em contato nos endereços e telefones abaixo descritos e estando de acordo com este termo e ciente de que ficarei com uma via do mesmo, firmo aqui:

Nome: \_\_\_\_\_ Data: \_\_\_\_\_

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

Caso não saiba ler e/ou escrever:



COEP- UFMG

Av. Presidente Antônio Carlos, 6627 2o Ad Sl

2005 Belo Horizonte - MG

Tel: (31)3409-4592 E-mail: coep@prpq.ufmg.br

## **Material Suplementar III – Termo de Assentimento**

### **Termo de assentimento para criança e adolescente**

O termo de assentimento não elimina a necessidade de fazer o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE) que deve ser assinado pelo responsável ou representante legal do menor de 18 anos ou legalmente incapaz.

Você está sendo convidado para participar da pesquisa “Avaliação dos Aspectos Físico-constitucionais da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono: Estudo Prospectivo em Pais e Filhos”

Seus pais permitiram que você participe.

Queremos saber se na doença chamada Apneia Obstrutiva do sono os pais e filhos têm semelhança na face e nas medidas do corpo.

As crianças que irão participar desta pesquisa têm de seis a doze anos de idade.

Você não precisa participar da pesquisa se não quiser, é um direito seu e não terá nenhum problema se desistir.

A pesquisa será feita no Centro de Especialidades Médicas da UFSJ, onde as crianças serão medidas, farão uma foto e dois exames: uma filmagem do nariz ( videonasolaringoscopia ) e um exame do sono em sua própria casa ( polissonografia) . Estes exames são considerados seguros, mas é possível ocorrer um desconforto ao dormir e na filmagem um incômodo ao colocar o aparelho no nariz. Caso aconteça algo errado, você pode nos procurar pelos telefones ( 37) 3212 6960 da pesquisadora Luciana Menezes Nogueira Martins

Mas há coisas boas que podem acontecer como saber se você ou seus pais têm a apneia obstrutiva do sono e ajudar no tratamento, além de ajudar outras crianças e seus pais com esta doença.

Ninguém saberá que você está participando da pesquisa; não falaremos a outras pessoas, nem daremos a estranhos as informações que você nos der. Os resultados da pesquisa vão ser publicados, mas sem identificar as crianças que participaram.

Quando terminarmos a pesquisa os dados que tivemos serão divulgados em revistas médicas.

Se você tiver alguma dúvida, você pode me perguntar. Eu escrevi os telefones na parte de cima deste texto.

=====

CONSENTIMENTO PÓS INFORMADO

Eu \_\_\_\_\_ aceito participar da pesquisa .“Avaliação dos Aspectos Físico-constitucionais da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono: Estudo Prospectivo em Pais e Filhos”

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 e que ninguém vai ficar furioso.

Os pesquisadores tiraram minhas dúvidas e conversaram com os meus responsáveis.

Recebi uma cópia deste termo de assentimento e li e concordo em participar da pesquisa.

Divinópolis, \_\_\_\_ de \_\_\_\_\_ de \_\_\_\_\_.

\_\_\_\_\_  
Assinatura do menor

\_\_\_\_\_  
Assinatura do(a) pesquisador(a)