

SUÉLEN ALVES TEIXEIRA

**SENSO DE COERÊNCIA MATERNO E ALTERAÇÕES DENTÁRIAS DE
PACIENTES COM OSTEOGÊNESE IMPERFEITA: UM ESTUDO PAREADO**

**Faculdade de Odontologia
Universidade Federal de Minas Gerais
Belo Horizonte
2014**

SUÉLEN ALVES TEIXEIRA

**SENSO DE COERÊNCIA MATERNO E ALTERAÇÕES DENTÁRIAS DE
PACIENTES COM OSTEOGÊNESE IMPERFEITA: UM ESTUDO PAREADO**

Dissertação apresentada ao Colegiado do Programa de Pós-Graduação da Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Minas Gerais, como requisito parcial para a obtenção do título de Mestre em Odontologia

Área de Concentração: Saúde Coletiva

Orientadora: Profa. Dra. Ana Cristina Borges de Oliveira

Coorientadora: Profa. Dra. Eugênia Ribeiro Valadares

**Faculdade de Odontologia
Universidade Federal de Minas Gerais
Belo Horizonte 2014**

FICHA CATALOGRÁFICA

T266s Teixeira, Suélen Alves.
2014 Senso de coerência materno e alterações dentárias de
T pacientes com osteogênese imperfeita: um estudo pareado /
 Suélen Alves Teixeira. – 2014.

 95 f. : il.

 Orientadora: Ana Cristina Borges de Oliveira.
 Co-orientadora: Eugênia Ribeiro Valadares.

 Dissertação (Mestrado) – Universidade Federal de Gerais,
 Faculdade de Odontologia.

 1. Osteogênese imperfeita. 2. Assistência odontológica para
 pessoas com deficiência. I. Oliveira, Ana Cristina Borges de.
 II. Valadares, Eugênia Ribeiro. III. Universidade Federal de Minas
 Gerais. Faculdade de Odontologia. IV Título.

BLACK – D047

DEDICATÓRIA

Dedico este trabalho à minha família, que sempre me apoiou, incentivou e deixou de lado os próprios sonhos para viver esse comigo. Aos meus pais, base de tudo, nunca mediram esforços para proporcionar a minha felicidade. A minha amada irmã Sabrina e ao seu querido Alexandre, porque souberam ser tolerantes, compreensivos e pacientes me apoiando sempre. Aos amigos pelo carinho e pelo lindo papel de tornar meus momentos mais leves e divertidos. Amo vocês!

AGRADECIMENTOS

A Deus pelos momentos de felicidade, que iluminam e me dão força para seguir a minha caminhada.

Agradeço imensamente as minhas orientadoras Profa. Dra. Ana Cristina Borges de Oliveira e Profa. Dra. Eugênia Ribeiro Valadares.

Ana Cristina Borges de Oliveira, minha orientadora, que se portou como só o fazem as mestras, exemplo de profissional e pessoa admirável. Você que me inseriu nesse mundo de estudos, pesquisas e busca constante pelo conhecimento. Me moldou na academia e na prática clínica buscando o melhor de mim sem deixar que eu fraquejasse ou desistisse nos momentos mais difíceis. Permitiu que eu sugasse suas maiores virtudes como mestre; toda sua paciência em ensinar, sabedoria ao escrever e olhar crítico ao corrigir. Obrigada por me adotar nessa jornada, por me incentivar e me ajudar a construir. Você lapidou em mim não só a área acadêmica, mas aperfeiçoou minha prática profissional e me fez conhecer um mundo muito especial. Trabalhar, estudar e admirar os pacientes com necessidades especiais me faz sentir não só uma profissional melhor, mas uma pessoa melhor. Obrigada pelos ensinamentos, carinho e por estar sempre ao meu lado!

Eugênia Ribeiro Valadares, minha co-orientadora, um presente que veio na hora certa. Humildade, simplicidade e inteligência são características que me vem em mente logo quando penso em você. Profissional exemplar e incansável quando o assunto é destinado a pacientes que a envolvem. Aprendi muito ao vivenciar seu cuidado e carinho com todos que, de certa forma, dependem de você. Obrigada pela disponibilidade de tempo para conduzir este estudo, pela ajuda imensurável, pelo carinho e por aceitar embarcar conosco nesses dois anos de trabalho com a odontologia. Serei eternamente grata.

Ao Dr. Túlio Canella Bezerra Carneiro que hoje posso considerar um professor amigo. Você abriu portas que, sem elas, jamais teria conseguido chegar até aqui. Obrigada por compartilhar seus conhecimentos, sua simplicidade, seu carinho e seus pacientes maravilhosos. Não mediu esforços para me socorrer e dar suporte no que foi preciso ao longo desses dois anos. Muito obrigada!

Aos queridos familiares dos pacientes do Setor de Ortopedia e Pediatria do Hospital das Clínicas de Minas Gerais pela delicadeza e sensibilidade no compartilhamento desse meu aprendizado.

Expresso também minha gratidão e solidariedade aos pacientes do Setor de Ortopedia e Pediatria do Hospital das Clínicas da UFMG, que contribuíram de forma fundamental para que este estudo fosse possível. Obrigada pela paciência, doação e carinho.

À amiga Paula Carolina Mendes Santos pela companhia e apoio durante a difícil tarefa de construir esse estudo.

Às amigas de mestrado Tahyná e Juliana, pelo carinho do dia a dia, pela companhia e apoio, sempre com palavras de incentivo e acreditando que tudo seria possível. Obrigada por compartilharem momentos que jamais esquecerei!

Muito obrigada aos colegas de turma e professores do Programa de Pós-Graduação da Faculdade de Odontologia da UFMG pelo convívio, receptividade e por todo o aprendizado.

Às secretárias do Colegiado de Pós-Graduação da Faculdade de Odontologia da UFMG e aos secretários do departamento de Odontologia Social e Preventiva, Simone, Jennifer e Admilson, por serem sempre solícitos.

Agradeço ao CNPq pelo suporte financeiro e apoio concedido para o desenvolvimento desse trabalho.

A todos que direta ou indiretamente favoreceram o meu trabalho.

Senso de coerência materno e alterações dentárias de pacientes com osteogênese imperfeita: um estudo pareado

RESUMO

Este estudo objetivou verificar o Senso de Coerência (SC), entre mães de pacientes com OI e sem OI, bem como as características bucais desses pacientes. Foi realizado um estudo transversal com 75 pais/responsáveis e crianças/adolescentes com e sem OI, na faixa etária de 1 a 21 anos, atendidas em um hospital universitário de Belo Horizonte, região sudeste do Brasil. As características bucais dos pacientes foram investigadas por meio de exame clínico. Os examinadores foram previamente calibrados para o exame clínico, sendo obtidos valores kappa entre 0,74 e 1,00. Os dados foram analisados por meio das análises univariada e bivariada, considerando-se uma confiabilidade de 95,0%. Esta pesquisa foi aprovada pelo Comitê de Ética em Pesquisa da UFMG, e será apresentada na forma de dois artigos científicos. O primeiro estudo verificou o SC, entre mães de crianças/adolescentes com OI e sem OI. Os pacientes foram examinados e as mães responderam a versão curta do instrumento do SC de Antonovsky (SC-13), bem como um questionário com itens relacionados aos aspectos individuais, comportamentais e socioeconômicos delas e dos filhos. As mães dos pacientes com OI (72,9%), de classe econômica menos favorecida (85,2%) e que classificaram a aparência dos dentes de seus filhos como péssima ou ruim (70,5%) apresentaram menor SC, sendo esses resultados estatisticamente significativos ($p < 0,05$). Os pacientes identificados com dentinogênese imperfeita (100,00%) e cárie dentária em um ou mais dentes (70,5%) são filhos pertencentes ao grupo de mães com menor SC, demonstrando resultados associados estatisticamente ($p < 0,005$). O SC foi associado com condição genética da criança/adolescente, classe econômica, percepção das

mães sobre a aparência dos dentes dos filhos e prevalência de dentinogênese imperfeita e cárie dentária das crianças/adolescentes. O segundo artigo objetivou verificar a associação entre as características sociodemográficas, comportamentais e dentárias e a presença de OI. Além do exame bucal dos pacientes, os pais/responsáveis responderam um questionário sobre aspectos individuais, socioeconômicos e comportamentais dos filhos. A idade média dos pacientes foi de 8,1 anos (\pm 4,4). Dentre eles, 52,0% foram identificados com OI (n = 39) e 48,0%, sem OI (n =36). Verificou-se uma associação estatística significativa entre a presença de OI e o fato do paciente ter recebido aleitamento materno ($p < 0,05$). Quanto às características clínicas, houve uma relação estatisticamente significativa entre a OI e a presença de dentinogênese imperfeita, defeito de desenvolvimento de esmalte, má oclusão e anomalias dentárias ($p < 0,05$). A cárie dentária e o traumatismo dentário não foram associados com a presença de OI ($p > 0,05$). A ausência de aleitamento materno, ou a presença dele por menos de seis meses, a presença de dentinogênese imperfeita, defeito de desenvolvimento de esmalte, má oclusão e anomalias dentárias foram associadas com a presença de OI nos pacientes.

Palavras-chave: Osteogênese imperfeita. Dentinogênese Imperfeita. Senso de Coerência. Assistência odontológica para pessoas com deficiências. Pacientes com deficiência.

Mother's Sense of Coherence and dental abnormalities in patients with osteogenesis imperfecta: a paired study

ABSTRACT

This study aimed to verify the perception of sense of coherence (SOC), among mothers of patients with and without OI, as well as the oral characteristics. A cross-sectional study with 75 parents/guardians and patients with and without OI, aged between 1 and 21 years in a university hospital in Belo Horizonte, in the southeast of Brazil. The oral characteristics of children/adolescents were investigated by clinical examination. The examiners were calibrated to the clinical examination, and obtained kappa values between 0.74 and 1.00. The data were analyzed by means of univariate and bivariate analyzes, considering a reliability level of 95.0%. The present study was approved by the Ethics Committee of the Federal University of Minas Gerais, and will be presented as two manuscripts. The first study analyzed the SOC, among mothers of patients with and without OI. Patients were examined and mothers answered the short version of the instrument SOC Antonovsky (SOC -13), as well as a questionnaire with items related to individual, behavioral and socioeconomic aspects of them and their children. Mothers of patients with OI (72.9%) from a lower social class (85.2%) and those that classified the appearance of their children's teeth as poor or bad (70.5%) exhibited lower sense of coherence, with statistically significant results ($p < 0.05$). Patients identified with Dentinogenesis Imperfecta (100.00%) and dental caries on one or more teeth (70.5%) were statistically associated with mothers with lower sense of coherence ($p < 0.005$). The SOC was associated with the OI, economic class, mother's perception of the appearance of their child's teeth and the prevalence of Dentinogenesis Imperfecta and dental caries among the

patients. The second article aimed to investigate the association between sociodemographic, behavioral and dental characteristics and the presence of OI. In addition to the oral examination of patients, parents/guardians answered a questionnaire on individual, socioeconomic and behavioral aspects of the children. The average age of patients was 8.1 years (± 4.4). Among them, 52.0 % were identified with OI (n=39) and 48.0 % without OI (n=36). There was a statistically significant association between the OI and the fact of the patients didn't have received breastfeeding, or have received up to six months ($p < 0.05$). Regarding clinical characteristics, there was a statistically significant relationship between the OI and the presence of Dentinogenesis Imperfecta, developmental defect of enamel, malocclusion and tooth abnormalities ($p < 0.05$). Dental caries and dental trauma were not associated with the presence of OI in children/adolescents ($p > 0.05$). The absence of breastfeeding, or its presence for six months, the presence of Dentinogenesis Imperfecta, developmental defect of enamel, malocclusion and dental anomalies were associated with the presence of OI in children and adolescents.

Key-words: Osteogenesis imperfecta. Dentinogenesis imperfecta. Sense of Coherence. Dental care for people with disabilities. Patients with disabilities.

LISTA DE ABREVIATURAS E SÍMBOLOS

| | |
|----------------------|------------------------------------------------------------------|
| ABEP | Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa |
| ABOI | Associação Brasileira de Osteogenesis Imperfecta |
| ATM | Articulação temporomandibular |
| BFS | Bifosfonato de Sódio |
| COEP | Comitê de Ética em Pesquisa |
| DDE | Defeito de desenvolvimento de esmalte |
| DI | Dentinogênese Imperfeita |
| EPI | Equipamento de Proteção Individual |
| FO-UFMG | Faculdade de Odontologia da Universidade Federal de Minas Gerais |
| HC | Hospital das Clínicas |
| H₀ | Hipótese nula |
| IBGE | Instituto Brasileiro de Geografia e Estatística |
| IHOS | Índice de Higiene Oral Simplificado |
| OI | Osteogênese Imperfeita |
| OIFE | <i>Osteogenesis Imperfecta Federation for Europe</i> |
| OMS | Organização Mundial de Saúde |
| SC | Senso de Coerência |
| SOC | <i>Sense of Coherence</i> |
| SPSS | <i>Statistical Package for Social Science</i> |
| UFMG | Universidade Federal de Minas Gerais |
| WHO | <i>World Health Organization</i> |
| X² | Teste Qui-Quadrado |

LISTA DE TABELAS

ARTIGO 1

| | |
|------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----|
| Table 1- Distribution of the sample according to the presence of OI (n=74)..... | 35 |
| Table 2- Distribution of the sample according the mothers' SOC and individual / behavioral characteristics (n=74)..... | 37 |
| Table 3- Distribution of the sample according the mothers' SOC and clinical characteristics (n=74)..... | 38 |

ARTIGO 2

| | |
|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----|
| Tabela 1- Distribuição das crianças e adolescentes de acordo com a presença de OI (N=75)..... | 55 |
| Tabela 2- Frequência absoluta e relativa das características das crianças e adolescentes de acordo com a prevalência de OI (n=75)..... | 56 |
| Tabela 3- Frequência absoluta e relativa das características clínicas das crianças e adolescentes de acordo com a prevalência de OI (N=75)..... | 57 |

LISTA DE GRÁFICOS

ARTIGO 2

Gráfico 1- Distribuição das crianças/adolescentes de acordo com o tipo de OI

(N=75)..... 53

SUMÁRIO

| | | |
|-----|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|----|
| 1 | CONSIDERAÇÕES INICIAIS | 16 |
| 1.1 | Etiologia da OI | 17 |
| 1.2 | Características gerais da OI | 18 |
| 1.3 | Classificação OI | 19 |
| 1.4 | Manifestações bucais da OI | 21 |
| 1.5 | Atenção odontológica dos indivíduos com OI | 23 |
| 1.6 | Senso de Coerência (SC) | 24 |
| 2 | JUSTIFICATIVA | 27 |
| 3 | ARTIGO 1 | 29 |
| 4 | ARTIGO 2 | 4 |
| 5 | CONSIDERAÇÕES FINAIS | 66 |
| 6 | REFERÊNCIAS GERAIS..... | 68 |
| | APÊNDICES..... | 76 |
| | APÊNDICE A: Termo de consentimento livre e esclarecido | |
| | APÊNDICE B: Questionário | |
| | APÊNDICE C: Ficha clínica | |
| | ANEXOS..... | 85 |
| | ANEXO A: Parecer do Comitê de Ética em Pesquisa (COEP) | |
| | ANEXO B: Senso de Coerência Materno | |
| | ANEXO C: Normas para publicação do periódico <i>Community Dentistry and Oral Epidemiology</i> | |
| | ANEXO D: Confirmação de submissão do artigo “ <i>Sense of Coherence between mothers of children/adolescents with and without Osteogenesis Imperfecta and</i> | |

associated oral characteristics” ao periódico *Community Dentistry and Oral Epidemiology*

1 CONSIDERAÇÕES INICIAIS

A Osteogênese Imperfeita (OI) é uma desordem rara que envolve um grupo heterogêneo de distúrbios hereditários do tecido conjuntivo, sendo o mais frequente o autossômico dominante. Apresenta diversas manifestações clínicas. A mais comum é a fragilidade óssea (Gorlin et al., 2001; Rauch e Glorieux, 2004; Rauch et al., 2006).

A fragilidade excessiva dos ossos, característica principal da doença, propicia o aparecimento de fraturas perante traumatismos mínimos ou, até mesmo, de forma espontânea. As formas mais graves da doença ocasionam fraturas ainda durante a vida intrauterina. Essas fraturas acabam por provocar a morte do feto antes do nascimento ou nas primeiras semanas de vida. Nas formas mais moderadas de osteogênese a criança consegue sobreviver. Costuma, no entanto, ser afetada por inúmeras fraturas durante o seu desenvolvimento, que provocam diversas deformações ósseas (membros arqueados, desvios da coluna vertebral, etc.) e de crescimento, deixando a criança com um tamanho inferior à média da população. Os casos mais leves normalmente são detectados apenas na adolescência (Assis et al., 2002; ; Rauch et al., 2006; 2010).

A OI é uma doença rara, atingindo 0,008% da população mundial. Este valor corresponde a cerca de 560.000 mil pessoas com OI, considerando-se uma população atual de aproximadamente 7 bilhões de pessoas no mundo (*Osteogenesis Imperfecta Federation for Europe-OIFE*, 2012). A incidência da doença é estimada em 1:10.000 a 1:15.000 nascidos vivos, independente do sexo ou raça (Sillence et al., 1979; Santili et al., 2005; *OIFE*, 2012). No Brasil não existem dados oficiais a respeito da distribuição da doença na população. Segundo informações da Associação Brasileira de *Osteogenesis Imperfecta*-ABOI, há uma projeção de que existem pelo menos 12.000 indivíduos com OI no país (ABOI, 2012).

1.1 Etiologia da OI

A OI é uma doença hereditária causada por uma alteração genética de tecido conjuntivo. Normalmente é transmitida por meio de um gene dominante, podendo também ser causada por uma mutação espontânea (Rauch et al., 2006; Maldonado et al., 2010).

Na maior parte dos casos a OI acontece devido a mutações no gene COL1A1 ou COL1A2, responsáveis por alterações quantitativas e/ou qualitativas na síntese do colágeno tipo I (O'Connell e Marini, 1999; Maldonado et al., 2010). Com isso, todos os tecidos ricos em colágeno, como córnea, esclera, dentina e tendões podem ser afetados, comprometendo o crescimento corporal (Ablin, 1998; Rauch et al., 2010).

O colágeno é uma proteína estrutural de extrema importância para o organismo. É constituído por estruturas complexas e por diversos tipos de macromoléculas, sendo que no organismo do ser humano são conhecidos 11 tipos de moléculas diferentes de colágeno. A mais abundante delas é o colágeno tipo I, que representa quase 90,0% do colágeno do corpo. Sua molécula é constituída por uma hélice tríplice constituída por duas cadeias idênticas A1, codificadas por um gene localizado no cromossomo 17 (COL1A1) e por uma cadeia A2, codificada por gene localizado no cromossomo 7 (COL1A2) (Maldonado et al., 2010; Rauch et al., 2010).

Mesmo sabendo que alterações do colágeno tipo I foram observadas em indivíduos com OI, ainda não se pode diferenciar os achados moleculares específicos para cada tipo da doença (Venturi et al., 2006; Maldonado et al., 2010). A informação sobre a correlação entre o genótipo e fenótipo ainda é limitada, principalmente porque o relatado de informação fenotípica ainda é apenas um esboço (Rauch et al., 2010). Um mesmo tipo de OI pode compreender diferentes anormalidades bioquímicas, bem como diferentes tipos de OI podem estar associadas com alterações genéticas semelhantes (Venturi et al., 2006; Maldonado et al., 2010).

A distribuição dos indivíduos com OI, por grupos distintos, pode ser útil para avaliar o prognóstico e para ajudar a medir os efeitos das condições terapêuticas (Rauch et al., 2004). No entanto, a classificação da doença ainda é incompleta, sendo que a variabilidade de expressão clínica vista em muitas famílias permanece sem explicação (Pallos et al., 2001). Por isso, estudos genéticos visam proporcionar uma base sólida para a classificação da OI (Pallos et al., 2001; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007; Rauch et al., 2010).

1.2 Características gerais da OI

A OI costuma provocar uma lassitude exagerada dos ligamentos e dos tendões. Essa alteração, somada a um número frequente de fraturas, aumenta os problemas de locomoção do indivíduo (Assis et al., 2002; Rauch et al., 2006; Huber, 2007). Além da fragilidade óssea exagerada, as crianças com OI podem apresentar outras alterações de menor gravidade. Uma delas, muito característica, refere-se a uma diminuição da espessura da esclerótica, que se torna um pouco azulado. A osteogênese também pode causar problemas de audição devido a um desenvolvimento defeituoso dos ossos do ouvido médio (Assis et al., 2002; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007).

Em muitos casos a OI está associada com algumas alterações dentárias. Dentre elas, destaca-se a dentinogênese imperfeita, que é uma condição genética que afeta a formação da dentina das dentições decíduas e permanentes (Rauch e Glorieux; 2004; Assunção et al., 2010).

1.3 Classificação OI

A partir de observações das características clínicas, genéticas e radiográficas, Sillence et al. (1979), classificaram a OI em quatro tipos.

Tipo I

É o tipo mais comum de OI, correspondendo a 70,0% dos casos identificados. É considerada uma forma branda da doença sendo o indivíduo acometido por fraturas ósseas pós-nascimento. Caracteriza-se pela presença de surdez precoce ou histórico familiar de perda de audição, hiperextensibilidade articular, escleróticas azuis, osteoporose, rosto em formato triangular e deformidades esqueléticas. De acordo com a presença de dentinogênese imperfeita, a OI tipo I é subdividida em dois tipos (Maldonado et al., 2010).

A OI tipo 1-A: não inclui dentinogênese imperfeita, diferentemente da OI tipo 1-B, em que se observa a dentinogênese imperfeita nas duas dentições, sendo a dentição permanente menos acometida (Levin et al., 1978; O'Connell e Marini, 1999).

Tipo II

É considerado o tipo mais raro e grave da doença. Os indivíduos afetados apresentam fragilidades ósseas graves, sendo a OI tipo II considerada letal durante o período pré-natal. Muitas vezes está associada a quadros de insuficiência pulmonar, cardíaca e pneumonia (Pallos et. al., 2001). Dentre as características clínicas apresentadas pelos recém-nascidos afetados destacam-se os ossos moles da calota craniana, a face triangular, a esclera azulada, as extremidades curtas e deformadas com múltiplas fraturas, marcada deformação angular de tibia e fraturas de fêmur (Sillence et al., 1979; O'Connell e Marini, 1999; Rauch e Glorieux, 2004). A grande maioria dos indivíduos com OI tipo II

vai a óbito ainda no primeiro dia ou mês de vida (Rauch e Glorieux, 2004). A incidência desse tipo de anomalia é de 6/100.000 nascidos vivos (ABOI, 2012).

Tipo III

É bastante comum (Sillence et al., 1979; O'Connell e Marini, 1999; Rauch e Glorieux, 2004). Indivíduos com OI tipo III apresentam características clínicas como fraqueza muscular intensa, deformação progressiva dos membros, limitação da mobilidade, início de perda auditiva, baixa estatura, escleras variáveis quanto à cor e dentinogênese imperfeita. Em alguns casos, devido à presença de deformações ósseas na base do crânio da população afetada pela OI tipo III, pode acontecer um quadro de compressão do tronco cerebral. Essa compressão causa complicações sérias como a tetraplegia, o comprometimento respiratório e a morte súbita do indivíduo (O'Connell e Marini, 1999; Rauch e Glorieux, 2004).

Tipo IV

Os indivíduos classificados como tipo IV apresentam fenótipos que não se encaixam perfeitamente nos tipos I e III (Huber, 2007). Estão presentes características clínicas como baixa estatura, diminuição da mobilidade, fraturas vertebrais e encurvamentos dos ossos longos. A cor de esclera normal foi considerada a principal característica apresentada pelo grupo OI tipo IV (Sillence et al., 1979).

Em um estudo de revisão sistemática realizado em 2014 por Sillence e Van Dijk na Austrália, propôs uma nova classificação da doença baseada em características clínicas. A nova nomenclatura da OI, subdividida em cinco tipos, propõe enfatizar a importância da fenotipagem a fim de diagnosticar, classificar e avaliar a gravidade da OI. Os tipos foram classificados em leve, moderado, grave, extremamente grave e letal.

1.4 Manifestações bucais da OI

Dentinogênese imperfeita

Em contraposição a diversidade das manifestações clínicas gerais e dos vários fenótipos apresentados, as pessoas com OI apresentam um quadro bucal clássico de dentinogênese imperfeita presente, na maioria dos casos, nas dentições decídua e permanente (Petersen e Wetzel, 1998; Huber, 2007).

A dentinogênese imperfeita corresponde a alterações de estrutura e composição da dentina (Pallos et al., 2001). Devido a uma alteração mesenquimal do tecido dental, a dentina é opalescente e translúcida. Os dentes afetados pela dentinogênese imperfeita apresentam uma coloração que varia do marrom-âmbar ao azul-cinza (Tsai et al., 2003; Rauch e Glorieux, 2004; Rauch et al., 2006). Pela fragilidade apresentada pelo tecido dentário, em muitos casos ocorrem fraturas dentárias. Por isso, há uma necessidade de reconstrução dos dentes para reparação estética e funcional (Rauch e Glorieux, 2004; Rauch et al., 2006; Huber, 2007). Radiograficamente os dentes afetados apresentam coroas com morfologia bulbosa, constrição cervical, raízes encurtadas e polpas obliteradas (Huber, 2007).

Estudos revelam três tipos de dentinogênese imperfeita. A primeira (tipo I) representa uma alteração dentária proveniente da mutação do colágeno tipo I, a chamada “dentinogênese da OI”. As dentinogêneses tipo II e III são atribuídas a mutações de genes que afetam proteínas da própria dentina, como por exemplo, dentina fosfoproteína e sialoproteína (Pallos et al., 2001; Dong et al., 2005; Kim et al., 2005; Huber, 2007).

Características oclusofaciais

Alguns estudos relataram uma prevalência maior de má oclusão Classe III de Angle nessa parcela da população, provavelmente causada por hipoplasia da maxila, associada ou não a uma hiperplasia mandibular (Kindelan et al., 2003; Waltimo-Sirén et al., 2005; Beltrame et al., 2009). Alterações oclusais como a mordida cruzada posterior e a mordida aberta anterior e posterior também são bastante prevalentes nos indivíduos com OI (Kindelan et al., 2003; Beltrame et al., 2009).

Waltimo-Sirén et al. (2005) realizaram a análise cefalométrica de 59 pacientes americanos com OI. Nos indivíduos com OI tipo I a cefalometria evidenciou uma medida linear menor do que aquela presente na população sem OI, indicando uma deficiência de crescimento craniofacial geral, mas sem nenhuma deformidade evidente. A análise cefalométrica mostrou que os indivíduos com OI tipo III e IV apresentavam atraso de crescimento pronunciado. Devido à deficiência de diferencial de crescimento e flexão das estruturas esqueléticas da cabeça, a forma craniofacial estava alterada. Segundo os autores, os defeitos de desenvolvimento na formação de dentes e no processo condilar foram identificados como as principais causas de prognatismo mandibular.

A perda da dimensão vertical pode ocorrer nas pessoas com dentina malformada, em consequência de um risco maior de desgaste dental e fraturas. Alterações morfológicas podem ser constatadas na articulação temporomandibular (ATM) de indivíduos com OI, mesmo que alterações funcionais não sejam evidentes, devido à etiologia multifatorial (O'Connel et al., 1999; Beltrame et al., 2009).

Cárie dentária e doença periodontal

As doenças cárie e periodontal não foram observadas como as mais frequentes nos indivíduos com OI quando comparados àquelas pessoas não comprometidos pela OI (O'Connell e Marini, 1999; Kindelan et al., 2003; Subramanian et al., 2008).

Segundo Huber (2007), o atendimento odontológico direcionado à população com OI é um fator de muita importância na busca e manutenção da saúde e do bem estar.

1.5 Atenção odontológica dos indivíduos com OI

Considerando-se as diversas alterações dentofaciais presentes nas crianças e adolescentes com OI, é importante que os profissionais de saúde, principalmente a equipe médica que assiste essa parcela da população, reconheçam as alterações dentofaciais presentes nesses indivíduos e orientem os pais/responsáveis a buscarem assistência odontológica para eles o mais cedo possível. Afinal, quanto mais precoce for iniciado o cuidado odontológico, menor será a sequela e maior será a qualidade de vida dessa parcela da população (Maldonado et al., 2010).

Antes de planejar e realizar o tratamento odontológico de um paciente com OI, é importante que o cirurgião-dentista seja informado pelo médico responsável sobre as condições clínicas do paciente em questão. Deve ser feita uma análise do comprometimento e gravidade da doença, considerando-se as necessidades e limitações do tratamento (Zola et al., 2000).

A fragilidade dos dentes com dentinogênese imperfeita, por quase só apresentarem esmalte em sua composição, deixa-os mais susceptíveis ao desgaste e aos traumatismos. Por isso, é importante que esses dentes sejam restaurados quanto á devolução de forma e função (Pallos et al., 2001; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007).

O tratamento odontológico, em condição de dentinogênese imperfeita, geralmente envolve a confecção de coroas artificiais nos dentes, principalmente nos dentes posteriores (Pallos et al., 2001; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007). Segundo os autores, tal medida ajuda a diminuir a deterioração dos dentes e manter a dimensão vertical apropriada entre a mandíbula e a maxila.

Para a dentição decídua, pode significar a colocação de coroas de aço inoxidável na parte posterior dos dentes e resina composta na parte anterior. Coroas podem ser necessárias para todos os dentes permanentes. Coroas de aço inoxidável e/ou resina composta podem ser usadas para manter a dimensão na região posterior durante o crescimento (Pallos et al., 2001; Huber, 2007).

1.6 Senso de Coerência (SC)

A pesquisa em saúde pública aumentou bastante o foco na influência dos determinantes sociais no processo saúde e doença (Watt, 2002). Em 1979, Antonovsky introduziu a teoria salutogênica como um fator importante na forma como as pessoas lidam com situações estressantes, mostrando que o indivíduo está em constante progressão e regressão do movimento saudável/doente (Antonovsky e Sagy, 1986; Antonovsky, 1993; Lindström e Eriksson, 2005; Oelofsen e Richardson, 2006).

A teoria salutogênica surgiu de acordo com o paradigma de promoção da saúde, em contraposição aos modelos curativista e preventivista, que tinham como foco a doença (Eriksson e Lindström, 2006; Lacerda et al., 2012). Antonovsky objetivou estudar, por meio dessa teoria, as origens da saúde (Antonovsky e Sagy, 1986; Antonovsky, 1993; Eriksson e Lindström, 2006; Lacerda et al., 2012). Relações sociais, históricos culturais de indivíduos adultos, experiências da infância, bem como predisposição genética, constituem a base para o SC. Acredita-se que um SC alto seja um pré-requisito para se lidar com êxito em uma situação estressante, conduzindo, assim, a um maior bem estar (Antonovsky e Sagy, 1986; Antonovsky, 1993).

O conceito central da teoria salutogênica foi denominado senso de coerência (SC), que é composto teoricamente por três dimensões que atuam conjuntamente: compreensão (capacidade da pessoa para entender o que acontece ao seu redor), gestão (extensão com

que o indivíduo se sente capaz de gerir a situação) e significado (capacidade que o indivíduo possui para encontrar sentido na situação) (Antonovsky e Sagy, 1986; Antonovsky, 1993; Freire et al., 2001; 2002; Lindström e Eriksson, 2005; Eriksson e Lindström, 2006; Bonanato et al., 2009a). Esses componentes permitem ao indivíduo enfrentar os estressores presentes na vida cotidiana (Lindström e Eriksson, 2005; Oelofsen e Richardson, 2006).

Antonovsky buscou investigar como e porque algumas pessoas permanecem em um estado classificado pela sociedade como “bom” mesmo após terem vivido e vivenciado situações de estresse intenso (Lindström e Eriksson, 2005; Eriksson e Lindström, 2006). O estudo do SC entre as populações é de grande importância. Representa a saúde do indivíduo além do conhecimento biológico e de outras áreas da ciência, evidenciando uma relação forte da saúde com a qualidade de vida (Freire et al., 2001; 2002; Watt, 2002; Lindström e Eriksson, 2005; Oelofsen e Richardson, 2006; Bonanato et al., 2009a).

O SC busca balancear o conceito de saúde e doença, de modo a quantificar o grau de adaptação das pessoas ao ambiente em que está inserido (Eriksson e Lindström, 2006; Oelofsen e Richardson, 2006; Bonanato et al., 2009b; Lacerda et al., 2012). Quanto maiores os valores apresentados pelo SC, mais os indivíduos mostram-se aptos para enfrentarem as dificuldades da vida e, portanto, manterem a própria saúde e qualidade nela inserida. Ele mostra se o indivíduo é capaz, mesmo apresentando características peculiares, de proporcionar de alguma forma uma proteção para a própria saúde (Freire et al., 2001; 2002; Lindström e Eriksson, 2005; Oelofsen e Richardson, 2006).

No intuito de quantificar e qualificar o SC, foi criado um questionário, composto por 29 questões, que aborda as três dimensões do SC (compreensão, gestão e significado). O instrumento permite analisar, separadamente, cada uma das dimensões (Antonovsky e Sagy, 1986; Antonovsky, 1993; Eriksson e Lindström, 2006).

Outras versões da escala de SC de Antonovsky foram propostas e utilizadas em diferentes populações, inclusive uma versão curta, com 13 questões, produzida e validada pelo próprio autor (SC-13) (Antonovsky, 1993; Freire et al., 2001; 2002; Olsson e Hwang, 2002; Lindström e Eriksson, 2005; Eriksson e Lindström, 2006; Bonanato et al., 2009a; b). O SC-13 foi validado no Brasil para ser utilizado em adultos (Freire et al., 2001; Bonanato et al., 2009a).

Os resultados demonstrados pelo SC destacam a influência direta das condições de vida da população sobre a motivação das pessoas para a adoção de comportamentos adequados à manutenção da saúde bucal (Freire et al., 2001; 2002; Oelofsen e Richardson, 2006; Bonanato et al., 2009a; b). Desta forma, o SC mostra-se como uma importante ferramenta na promoção de melhoras efetivas da saúde bucal da população, sendo um aliado no trabalho dos setores públicos apropriados (Bonanato et al., 2009a).

2 JUSTIFICATIVA

Considerando-se as diversas características dos indivíduos com OI, fica evidente a importância da assistência a esta parcela da população ser realizada por meio de uma abordagem integral e multidisciplinar ainda na infância. Um cuidado direto das crianças e adolescentes com OI, associado a uma boa interação da equipe de saúde com os pais/responsáveis é primordial na busca de uma boa qualidade de vida para esses indivíduos.

Um acompanhamento e uma aproximação adequada dos familiares dessas crianças, bem como dos profissionais da saúde que as assistem, só engrandecem a odontologia e a população por ela atendida, inclusive motivando a promoção de melhorias das políticas públicas de saúde e do suporte assistencial para estas crianças e familiares.

As informações acerca do estado de saúde e doença bucal das crianças e adolescentes com OI, a efetividade das intervenções planejadas para a melhoria da assistência, bem como do auxílio, cuidado e orientações para os cuidadores, principalmente para as mães dessas crianças, ainda são insuficientes.

Mesmo que as doenças bucais e alterações dentofaciais possam causar quadros de dor, infecções, complicações respiratórias e problemas mastigatórios e de fala, os cuidados com a saúde bucal são vistos como baixa prioridade, quando comparados aos cuidados médicos e sociais direcionados ao indivíduo com a OI. Essa realidade é desanimadora e necessita de mudanças. Por ser minoria dentro da população geral, o público acometido por necessidades especiais muitas vezes acaba sendo desconsiderado ou ignorado dentro das medidas implementadas por programas de saúde pública.

O estudo da saúde bucal de crianças com OI permite aprofundar a compreensão de aspectos a serem considerados no desenvolvimento de políticas de saúde destinados a essa população. O campo das pesquisas com indivíduos acometidos pela OI envolve

expectativas, valores e significados sobre uma condição ainda hoje marcada por estigmas. Além de se identificar a necessidade de dados sobre as alterações dentofaciais e aspectos ligados à atenção odontológica de crianças e adolescentes com OI, torna-se relevante conhecer os sentidos atribuídos pelas mães em relação à saúde geral e bucal do filho afetado por esta anomalia genética.

Na tentativa de compreender o modo como essas mães conseguem adaptar-se às dificuldades e desafios associados ao cuidado de uma criança com deficiência ou doença crônica, diversos estudos mensuraram o SC dos pais (Hedov et al., 2002; Olsson e Hwang, 2002; Oelofsen e Richardson, 2006; Bonanato et al., 2009a; 2009b). Por isso, identificar o grau de estresse dessas mães em relação à vida será de grande valia para se estudar a forma de abordar estas mães quanto aos cuidados necessários com essas crianças e adolescentes.

Esse é o ponto de partida para a promoção da saúde bucal deste grupo, bem como para uma atuação multidisciplinar mais efetiva, viabilizando a prática de uma política mais democrática e adequada a essas pessoas.

3 ARTIGO 1

Mother's Sense of Coherence and dental abnormalities in patients with osteogenesis imperfecta: a paired study

Artigo submetido ao periódico *Community Dentistry and Oral Epidemiology*

(Qualis A1 - Odontologia / Fator de impacto: 1,79)

ABSTRACT

Objective: To investigate the Sense of Coherence (SOC), among mothers of patients with and without osteogenesis imperfecta (OI), as well as the oral characteristics. **Methods:** The sample was composed of 74 pairs of mothers and patients with and without OI, aged between one and 19 years, who were attending the Orthopedic and Pediatric ambulatory of a university hospital in Belo Horizonte, in the southeast of Brazil. The mothers completed the short version of Antonovsky's SOC instrument (SC-13) and a questionnaire with items for individual, behavioral and socioeconomic aspects related to themselves and their children. The oral characteristics of the children/adolescents were determined in a clinical examination. The examiners were previously calibrated for the clinical examination. The Kappa values obtained ranged from 0.74 to 1.00. The data were analyzed using bivariate and multivariate analysis, considering a reliability level of 95.0%. The present study was approved by the Human Research Ethics Committee of the Federal University of Minas Gerais. **Results:** Mothers of patients with OI (72.9%) from a lower economic class (85.2%) and those that classified the appearance of their children's teeth as poor or bad (70.5%) exhibited lower sense of coherence, with statistically significant results ($p < 0.05$). Patients identified with dentinogenesis imperfecta (100.00%) and dental caries on one or more teeth (70.5%) were statistically associated with mothers with greater stress levels ($p < 0.005$). **Conclusion:** The SOC was associated with the genetic condition of the child/adolescent, economic class, the mother's perception of the appearance of their child's teeth and the prevalence of dentinogenesis imperfecta and dental caries among the children/adolescents.

Keywords: Osteogenesis imperfecta, sense of coherence, dental care for people with disabilities, patients with disabilities.

INTRODUCTION

Osteogenesis Imperfecta (OI) is a rare disorder that involves a heterogeneous group of hereditary disorders of the conjunctive tissue. The disease affects one individual in every 10,000 to 20,000 births, regardless of gender or race (1-3).

OI exhibits different clinical manifestations, the most common of which is bone fragility (2, 4). Other characteristics observed include a decrease in scleral thickness, the defective development of the bones of the middle ear, leading to deafness, as well as dental abnormalities, the most common of which is dentinogenesis imperfecta (2-4).

In the vast majority of cases, when a family has a child with a chronic illness or disability, the routine of family members, especially the mother, is considerably altered, (5-7). Due to the commitments and care required for a special child, daily domestic tasks need to be reorganized and reallocated among the family members (5-7).

Public health research has significantly increased the focus on the effect of social determinants on the health and illness process (8-10). In 1979, Antonovsky introduced the salutogenic theory of a Sense of Coherence (SOC) as a significant factor in how people deal with stressful situations (11,12).

The social, historical and cultural relationships of people constitute the basis of their SOC, which involves three components: comprehension (capacity of the individual to understand what is happening around them); management capacity (measures how capable the individual feels about managing situations) and meaning (capacity of the individual to find meaning in the situation) (6, 11-15).

In an attempt to understand how parents can adapt to the difficulties and challenges associated with caring for a child with a chronic illness or disability, a number of studies have measured the SOC of parents (6, 16, 17). When compared with the scores of parents

of normal and healthy children, parents of disabled children have exhibited greater levels of stress and psychological suffering associated with their children (6, 14, 17).

Although oral diseases and dentofacial abnormalities can cause pain, infections, respiratory problems, chewing difficulties and speaking difficulties, oral health care is still seen as a low priority when compared with the medical care provided for individuals with OI. Considering that the SOC is considered a psychosocial predictor (17), knowledge of the association between the SOC and the dental condition enables the formulation of preventative measures and adequate interventions for children and adolescents, particularly those with OI.

The results obtained by the SOC highlighted the direct influence of the living conditions of the population on the motivation of people to adopt adequate behavior to maintain their oral health (10, 11, 18-21).

In view of the scarcity of studies assessing the oral health status of individuals with OI, and in an attempt to obtain more data for the opening of a new field of dentistry in relation to OI and public health, the aim of the present study was to investigate the self-perception of maternal stress, using the SOC, among mothers of children/adolescents with and without OI, as well as the oral characteristics of these children/adolescents. It was hypothesized that the children/adolescents of mothers with lower SOC scores are more likely to suffer from OI and oral health problems than children of mothers with higher SOC scores.

MATERIALS AND METHODS

A cross-sectional study was conducted with 74 patients aged between 1 and 19 years (with and without OI) and their respective mothers. Data collection was conducted in orthopedic and pediatric ambulatory of a university hospital in Belo Horizonte in the

southeast of Brazil. The choice of the locations aimed to select convenience samples, in other words, non-random samples. People who make up a non-random sample are selected based on a value judgment, and not due to statistical randomness. Thus, they are made up of more accessible people (22).

Possible participants were invited to be involved in the present study while they waited for appointments in outpatient ambulatories. The research was explained and an individual statement of informed consent was supplied to the mothers. Those that agreed to participate were invited to a separate room to answer the questionnaire and have their child's oral cavity examined. The present study was approved by Human Research Ethics Committee of the Federal University of Minas Gerais, Brazil.

Data Collection

The data were collected by means of a questionnaire, administered to mothers in interview form, and a clinical examination for the presence of malocclusion, oral hygiene, dentinogenesis imperfecta and dental caries (23). The questionnaire addressed the following variables: age (mother/patient); gender; economic class; mother's education; genetic alteration; frequent use of medication; history of surgery; dental experience and opinion about the appearance of the child's teeth.

The mother's SOC was measured using the short version of the instrument (SOC-13), which consists of 13 items with answer options. This version was validated in Brazil (19, 21). The total score can range from 13 to 65 points. The highest values correspond to a greater capacity for adaptation to stress. The SOC was categorized as being higher or lower than the median.

Information about OI was obtained through the medical records of the children. A clinical form was used to make notes related to the clinical examination of the child.

Dentinogenesis imperfecta was identified in terms of its presence or absence among those examined (2). The Simplified Oral Hygiene Index (OHI-S) was used to assess oral hygiene (24). With regards to dental caries, the diagnostic criteria for carious lesions were based on the definition of the World Health Organization (25): 1) healthy tooth (no evidence of a cavitated caries lesion); 2) tooth decay (presence of cavitated carious lesion).

The clinical examination of the child took place after the mother had completed the questionnaire. It was performed under artificial illumination (Petzl Zoom head lamp®, Petzl America, Clearfield, UT, USA) and the examiners used appropriate individual cross infection protection equipment. Mouth mirrors (PRISMA®, São Paulo, Brazil) and gauzes were packed and sterilized in sufficient quantities for each day of work. The exams were carried out by the researchers (SAT and PCMS).

A pilot study and calibration were carried out prior to the main study. This intra and inter-examiner calibration included a theoretical discussion regarding the diagnosis of dentinogenesis imperfecta, malocclusion and dental caries, training with slides and clinical examinations of the participants (25, 26). The kappa values obtained were between 0.74 and 1.00 (27).

The data were analyzed using the Statistical Package for Social Sciences (SPSS for Windows, version 21.0, SPSS Inc, Chicago, IL, USA). Univariate analysis was first carried out. The chi-squared test was used to determine associations between the dependent variable (SOC) and the independent variables (age-mother/patient, gender, economic class, mother's education, genetic alteration, frequent use of medication, history of surgery, dental experience and opinion about the appearance of the child's teeth, the presence of malocclusion, oral hygiene, dentinogenesis imperfecta and dental caries) ($p < 0.05$).

Groups were paired based on gender and age in order to make them homogenous and achieve reliable results, thereby eliminating the effects of confounding variables.

RESULTS

The sample included 74 mothers and patient. Of these, 50.0% were diagnosed with OI (n=37) and 50.0% had no genetic alteration (n=37). The average age of the children was 7.1 years (± 4.4) and the median was 6.5 years.

Table 1 shows that when associating the two paired variables (gender and age) with the condition of the patients, the results contained no statistically significant associations ($p > 0.05$). No significant associations were found between the groups for economic class or the mother's education ($p > 0.05$).

Table 1- Distribution of the sample according to the presence of OI (n=74).

| INDEPENDENTS VARIABLES | GROUP | | | P value ^a | Odds Rattio (CI) ^b |
|-----------------------------------|------------------|---------------------|---------------------|-------------------------|-------------------------------------------|
| | With OI n (%) | Whitout OI n (%) | Total n (100.0%) | | |
| CHILDREN / ADOLESCENTS | | | | | |
| Sex | | | | | |
| Male | 23 (48.9) | 24 (51.1) | 47 | 0.801 | 0.89 (0.34-2.29) 1 |
| Female | 14 (51.9) | 13 (48.1) | 27 | | |
| Age (years) | | | | | |
| 1-5 | 14 (45.2) | 17 (54.8) | 31 | 0.522 | 0.72 (0.26-1.97) 0.70 (0.19-2.58) 1 |
| 6-11 | 16 (53.3) | 14 (46.7) | 30 | | |
| 12-19 | 7 (53.8) | 6 (46.2) | 13 | | |
| Economic Class | | | | | |
| Less Favored (D+E) | 14 (51.9) | 13 (48.1) | 27 | 0.801 | 1.12 (0.43-2.89) 1 |
| Most Favored (A+B+C) | 23 (48.9) | 24 (51.1) | 47 | | |
| MOTHERS | | | | | |
| Education (years) | | | | | |
| < 8 | 19 (61.3) | 12 (38.7) | 31 | 0.111 | 2.19 (0.85-5.64) 1 |
| ≥ 8 | 18 (41.9) | 25 (58.1) | 43 | | |

^aX² Test (5% significance level) / ^bCI: Confidence Intervals

Bivariate analysis showed that the SOC values of the mothers were statistically influenced by the genetic condition of the child/adolescent ($p=0.04$), economic class ($p=0.001$) and the mother's perception of the appearance of the child's teeth ($p=0.04$). The majority of the mothers of children/adolescents with OI (72.9%), as well as those classified

as lower economic class (82.5%) and those who labeled the appearance of their child's teeth as poor or bad (70.5%), exhibited lower SOC values (Table 2).

Table 2- Distribution of the sample according the mothers' SOC and individual / behavioral characteristics (n=74).

| INDEPENDENTS VARIABLES | MOTHERS' SOC | | Total n (100.0%) | P value ^a | Odds Ratio (CI) ^b |
|--------------------------------------------|-------------------------|-------------------------|---------------------|-------------------------|---------------------------------|
| | SOC (21-38) n (%) | SOC (39-53) n (%) | | | |
| CHILDREN / ADOLESCENTS | | | | | |
| Genetic condition | | | | | |
| With OI | 27 (72.9) | 10 (27.1) | 37 | 0.04 | 2.13 (1.61-2.35) |
| Without OI | 17 (45.9) | 20 (54.1) | 37 | | 1 |
| Sex | | | | | |
| Male | 30 (63.8) | 17 (36.2) | 47 | 0.48 | 1.41 (0.53-3.70) |
| Female | 15 (55.6) | 12 (44.4) | 27 | | 1 |
| Age (years) | | | | | |
| 1-5 | 19 (61.3) | 12 (38.7) | 31 | 0.98 | 1.05 (0.37-2.94) |
| 6-11 | 18 (60.0) | 12 (40.0) | 30 | | 0.99 (0.26-3.74) |
| 12-19 | 8 (61.5) | 5 (38.5) | 13 | | 1 |
| Frequent use of medications | | | | | |
| Yes | 20 (54.1) | 17 (45.9) | 37 | 0.23 | 0.56 (0.22-1.45) |
| No | 25 (67.6) | 12 (32.4) | 37 | | 1 |
| Realized some surgery | | | | | |
| Yes | 18 (69.2) | 8 (30.8) | 26 | 0.27 | 1.75 (0.63-4.80) |
| No | 27 (56.3) | 21 (43.8) | 48 | | 1 |
| Dental experience | | | | | |
| Present | 28 (60.9) | 18 (39.1) | 46 | 0.98 | 1.00 (0.38-2.63) |
| Absent | 17 (60.7) | 11 (39.3) | 28 | | 1 |
| MOTHERS | | | | | |
| Age (years) | | | | | |
| ≤ 35 | 24 (58.5) | 17 (41.5) | 41 | 0.65 | 0.80 (0.31-2.07) |
| > 35 | 21 (63.6) | 12 (36.4) | 33 | | 1 |
| Education (years) | | | | | |
| < 8 | 20 (64.5) | 11 (35.5) | 31 | 0.57 | 1.30 (0.50-3.39) |
| ≥ 8 | 25 (58.1) | 18 (41.9) | 43 | | 1 |
| Economic Class | | | | | |
| Less Favored (D+E) | 23 (82.5) | 4 (14.8) | 27 | 0.001 | 6.53 (1.95-21.83) |
| Most Favored (A+B+C) | 22 (46.8) | 25 (53.2) | 47 | | 1 |
| Appearance of the child's teeth | | | | | |
| Poor / Bad | 31 (70.5) | 13 (29.5) | 44 | 0.04 | 2.72 (1.03-7.16) |
| Good / Excellent | 14 (46.7) | 16 (53.3) | 30 | | 1 |

^aX² Test (5% significance level) / ^bCI: Confidence Intervals

A significant association was also found between the mother's SOC and the prevalence of dentinogenesis imperfecta (p<0.001) and dental caries (p=0.04) (Table 3).

All of the individuals identified with dentinogenesis imperfecta were children of mothers with low SOC values (100.0%) and belonged to the group of children/adolescents with OI. Among those children examined with caries, the majority of the mothers exhibited low SOC values (70.5%).

Table 3- Distribution of the sample according the mothers' SOC and clinical characteristics (n=74).

| INDEPENDENTS VARIABLES | MOTHERS' SOC | | Total n (100.0%) | P value ^a | Odds Rattio (CI) ^b |
|-----------------------------------------------|-------------------------|-------------------------|---------------------|------------------------------|----------------------------------|
| | SOC (21-38) n (%) | SOC (39-53) n (%) | | | |
| CHILDREN / ADOLESCENTS | | | | | |
| Dentinogenesis imperfecta | | | | | |
| Present | 13 (100.0) | 0 | 13 | <0.001^c | ----- |
| Absent | 24 (39.3) | 37 (60.7) | 61 | | |
| Malocclusion | | | | | |
| Present | 30 (61.2) | 19 (38.8) | 49 | 0.91 | 1.05 (0.39-2.81) |
| Absent | 15 (60.0) | 10 (40.0) | 25 | | |
| Oral hygiene | | | | | |
| Adequate | 24 (70.6) | 10 (29.4) | 34 | 0.11 | 2.17 (0.82-5.69) |
| Inadequate | 21 (52.5) | 19 (47.5) | 40 | | |
| Number of teeth with dental caries | | | | | |
| ≥ 1 | 31 (70.5) | 13 (29.5) | 44 | 0.04 | 2.72 (1.03-7.16) |
| Zero | 14 (46.7) | 16 (53.3) | 30 | | |

^aX² Test (5% significance level) / ^bCI: Confidence Intervals / ^cFisher's Test

DISCUSSION

Due to cultural and traditional reasons, mothers assume the responsibility for the daily care of their son (7, 10). Therefore, identifying the mother's stress levels is of great importance in order to discover how best to approach these mothers in terms of the care required for the oral health of their children.

The impact of a disability in a child is a painful process for mothers who are unprepared to deal with the type of care the son requires (27). According to several authors, a high SOC value demonstrates a successful acceptance of a stressful situation, leading to an improvement in well-being and general health (6, 10-12, 14-17, 20).

The present study demonstrated that a lower SOC value among mothers was associated with the genetic condition of their sons. This result is probably associated with the fact that most mothers of patients with OI usually dedicate a significant amount of their time to the care of the child, when compared to mothers of healthy children with no disabilities. A mother of a patient with OI often experiences stressful situations on a daily basis, including visits to hospitals and emergency services for corrective surgery related to frequent fractures of the child's bones. Consequently, they do not have enough time to care for themselves. According to several authors, the maternal SOC is directly related to the general state of son (6, 15-17, 28, 29).

A study conducted in the United Kingdom used the SOC to measure the familiar stress levels of 59 families with children who had developmental defects and 45 families with normal, healthy children. The parents of children with a developmental disability exhibited high stress levels and lower SOC values than other parents (17). Items such as extra demands on time, limited family activities, lack of sleep and feelings of physical and emotional exhaustion were perceived as more stressful for mothers of children with Down syndrome (DS) than mothers of healthy children in Sweden (29).

Regardless of genetic condition, the data shows that the maternal SOC was also statistically associated with the economic class of the families, the mother's perception of the appearance of the child's teeth and the prevalence of dental caries among patients.

Mothers whose son were classified in a lower economic class exhibited lower maternal SOC values, indicating a greater degree of stress. It is believed that this significant association was found because the financial situation is a determining factor for most social acts, including living conditions, work, health, mobility and the number of children to be sustained. Another important point in relation to health is the fact that people with more acquisitive power usually have a better quality of life. A study conducted in five

Nordic countries, with a sample of more than 9,000 parents/children, demonstrated that high SOC values, in other words, low stress levels, were obtained by those who belong to the higher social classes (28). According to the authors, parents with less acquisitive power find it more difficult to deal with stress factors, such as family sustenance, children's education, household tasks and work activities.

With regards to the mother's perception of the appearance of the son's teeth, the majority of the lowest maternal SOC values were found among mothers who had a negative perception of their son's teeth. This could be associated with two factors: dentinogenesis imperfecta, an oral condition exhibited by the vast majority of patients with OI; and the oral condition of the patient. It is possible that the color alteration found on the teeth of children/adolescents with dentinogenesis imperfecta has contributed to the fact that the mothers reported a negative perception of the esthetics of their children's teeth.

With regards to the oral condition of the children, the mothers often did not have adequate information about the care required for their son's teeth, which consequently developed oral diseases, especially dental caries. Furthermore, during the period of adolescence, the responsibility of dental care is left entirely to the adolescent who, often, does not worry about oral hygiene and does not allow their parents to take care of them. In a study developed in the USA with 530 parents and adolescents, the mothers reported a negative perception of the oral condition of their children and the adolescents were not receptive to dental treatment and prevention guidelines (30).

With regards to the clinical examination performed on the patients, it was confirmed that all of the individuals diagnosed with dentinogenesis imperfecta belonged to mothers with low SOC values. Dentinogenesis imperfecta corresponds to abnormalities in the structure and composition of dentin (31). Due to a mesenchymal alteration in the dental tissue, the dentin becomes opalescent and translucent. Teeth affected by dentinogenesis

imperfecta have a coloration that ranges from brown-amber to blue-gray (2). It is likely that the presence of dentinogenesis imperfecta in children/adolescents causes mothers to worry and stress since they identify dentinogenesis as one more problem for their children.

The present study also confirmed that lower maternal SOC values were statistically associated with the presence of one or more teeth with carious lesions in children/adolescents. This result probably occurred due to the lack of access to information about the importance of cleaning children's teeth and oral healthcare. According to several authors, the SOC influences the resources used to deal with stressful situations, which usually affect habits of prevention and health (6, 10-13, 15-17, 20).

Freire et al. (18) and Bonanato et al. (10) also reported that lower SOC values were found among mothers of children who exhibited a greater prevalence of dental caries. The authors confirmed the importance of the parent's knowledge about oral health in order to attain satisfactory oral hygiene for their children.

With regards to oral diseases, one of the most common manifestations in the Brazilian population is dental caries. This is a multifactorial disease associated with individual characteristics, bacterial agents and environmental factors (32). As well as pain, dental caries can have a negative impact on family life and may be associated with psychosocial variables, such as the SOC (10).

In relation to children and adolescents with OI, this result may have occurred due to the difficulty of these mothers in carrying out many daily tasks due to their children's illness. Mothers can end up not caring about their own oral condition. According Barbosa et al. (27), mothers of children with developmental defects are more stressed than mothers of normal and healthy children due to the extra daily tasks that prevent them from looking after themselves.

Interventions aimed at improving or maintaining the oral health of children/adolescents should take the family environment into consideration. The care and orientation of the family, in terms of information about health, the importance of adequate oral hygiene and the consequences of harmful habits to oral health, are fundamentals to the healthcare of children and adolescents. For the mother of a son with OI, this care should be even greater, given that studies have shown that mothers of disabled children require more time to look after their child as a result of the child's limitations. Therefore, they need to create a structure within the family environment that supports general and oral health care (5-7).

A possible limitation of the present study is that it was difficult to access OI patients in the city. Since it is a rare disease, this resulted in a convenience sample of individuals who attended an orthopedic center of reference. Another possible limitation of the present study is the fact that it was the parents who answered the questionnaires (proxies), which consequently did not clearly reflect the feelings and conditions of the children/adolescents.

It is important to assess the SOC in all groups of patients to better understand the impact of diseases and socioeconomic factors on the patient's lives, as well as to plan appropriate treatment according to the profile of each population. Preventative and multidisciplinary care for OI patients are fundamental. It is important that there is recognition among professionals who work with this population, especially health professionals, of the importance of odontology as a means of establishing better living conditions for these individuals and their families. Health teams and caregivers need to perceive the oral cavity as an integral part of the individual, providing the necessary oral health care.

CONCLUSION

The majority of mothers with son diagnosed with OI exhibited low SOC scores and mothers of lower economic class exhibited lower SOC values. Among mothers who classified the appearance of their children's teeth as poor or bad, the majority exhibited lower SOC values.

A greater number of mothers whose children were diagnosed with one or more carious lesions exhibited lower SOC values.

ACKNOWLEDGEMENT

The authors thank the National Council of Scientific and Technological Development (CNPq) for financial support.

REFERENCES

1. Sillence DO, Senn A, Danks DM. Genetic heterogeneity in osteogenesis imperfecta. *J Med Genet* 1979; 16:101-16.
2. Rauch F, Glorieux FH. Osteogenesis imperfecta. *Lancet* 2004; 363:1377-85
3. Osteogenesis Imperfecta Federation Europe-OIFE. 2012. Available at: <<http://www.oife.org/index.php/EN>>. Access: 08 Nov. 2012.
4. Gorlin RJ, Cohen Jr MM, Hennekam RCM. Syndromes Affecting Bone: The Osteogenesis Imperfectas. In: *Syndromes of the Head and Neck*. Oxford: Oxford University Press, 2001:178-91.
5. Gonzales S, Steinglass P, Reiss D. Putting the illness in its place: discussion groups for families with chronic medical illness. *Fam Process* 1989; 28:69-87.
6. Olsson MB, Hwang CP. Sense of coherence in parents of children with different

- developmental disabilities. *J Intellect Disabil Res* 2002; 46:548-59.
7. Oliveira AC, Pordeus IA, Luz CL, Paiva SM. Mothers' perceptions concerning oral health of children and adolescents with Down syndrome: a qualitative approach. *Eur J Paediatr Dent* 2010; 11:27-30.
 8. Watt RG. Emerging theories into the social determinants of health: Implications for oral health promotion. *Community Dent Oral Epidemiol* 2002; 30:241-7.
 9. Newton JT, Bower EJ. The social determinants of oral health: new approaches to conceptualizing and researching complex causal networks. *Community Dent Oral Epidemiol* 2005; 33:25-34.
 10. Bonanato K, Paiva SM, Pordeus IA, Ramos-Jorge ML, Barbabela D, Allison PJ. Relationship between mother's sense of coherence and oral health status of preschool children. *Caries Res* 2009; 43:103-9.
 11. Antonovsky A. The structure and properties of the sense of coherence scale. *Soc Sci Med* 1993; 36:725-33.
 12. Antonovsky H, Sagy S. The development of a sense of coherence and its impact on responses to stress situations. *J Soc Psychol* 1986; 126:213-25.
 13. Lindström B, Eriksson M: Salutogenesis. *J Epidemiol Community Health* 2005; 59:440-2.
 14. Dabrowska A. Sense of coherence in parents of children with cerebral palsy. *Psychiatr Pol* 2007; 41:189-201.
 15. da Silva AN, Mendonça MH, Vettore MV. The association between low socioeconomic status mother's Sense of Coherence and their child's utilization of dental care. *Community Dent Oral Epidemiol* 2011; 39:115-26.
 16. Hedov G, Annere'n G, Wikblad K. Swedish parents of children with Down's

- syndrome: parental stress and sense of coherence in relation to employment rate and time spent in child care. *Scand J Caring Sci* 2002; 16:424-30.
17. Oelofsen N, Richardson P. Sense of coherence and parenting stress in mothers and fathers of preschool children with developmental disability. *J Intellect Dev Disabil* 2006; 31:1-12.
 18. Freire MC, Hardy R, Sheiham A. Mothers' sense of coherence and their adolescent children's oral health status and behaviors. *Community Dent Health* 2002; 19:24-31.
 19. Freire MC, Sheiham A, Hardy R. Adolescents' sense of coherence, oral health status and oral health related behaviors. *Community Dent Oral Epidemiol* 2001; 29:204-12.
 20. Eriksson M, Lindström B. Antonovsky's sense of coherence scale and the relation with health: a systematic review. *J Epidemiol Community Health* 2006; 60:376-381.
 21. Bonanato K, Branco DB, Mota JP, Ramos-Jorge ML, Paiva SM, Pordeus IA, Kaeppler KC. Trans-cultural adaptation and psychometric properties of the 'sense of coherence scale' in mothers of preschool children. *R Interam Psicol* 2009; 43:144-53.
 22. Freedman D, Pisani R, Purves RA. *Statistics*. 3 ed. NewYork: W.W. Norton, 1998:578 p.
 23. Oliveira AC, Paiva SM, Campos MR, Czeresnia D. Factors associated with malocclusions in children and adolescents with Down syndrome. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2008; 133:489e1-8.
 24. Greene JC, Vermillion JR. The simplified oral hygiene index *J Am Dent Assoc*

- 1964; 68:7-13.
25. WHO. World Health Organization. Oral health surveys: basics methods. 4 ed. Geneva: World Health Organization, 1997:66p.
 26. Rigby AS. Statistical methods in epidemiology. Towards an understanding of the kappa coefficient. *Disabil Rehabil* 2000; 22:339-44.
 27. Barbosa AGM, Chaud MN, Gomes MMF. Experiences of mothers of disabled children: a phenomenological study. *Acta Paul Enferm* 2008; 21:46-52.
 28. Groholt EK, Stigum H, Nordhagen R, Kohler L: Is parental sense of coherence associated with child health? *Eur J Public Health* 2003; 13:195-201.
 29. Hedov G, Annere'n G, Wikblad K. Self-perceived health in Swedish parents of children with Down's syndrome. *Qual Life Res* 2000; 9:415-22.
 30. Weyant RJ, Manz M, Corby P, Rustveld L, Close J. Factors associated with parents and adolescents perceptions of oral health and need for dental treatment. *Community Dent Oral Epidemiol* 2007; 35:321-30.
 31. Pallos D, Hart PS, Corteli JR, Vian S, Wright JT, Korkko J, Brunoni D, Hart TB. Novel COL1A1 mutation (G599C) associated with mild osteogenesis imperfecta and dentinogenesis imperfect. *Arch Oral Biol* 2001; 46:459-70.
 32. Shanmugam KT, Mashtan KMK, Balachander N, Sudha Jimson, Sarangarajan R. Dental Caries Vaccine - A Possible Option?. *J Clin Diagn Res* 2013; 7:1250-3.
-

3 ARTIGO 2**Fatores associados à presença de Osteogênese Imperfeita: características
sociodemográficas, comportamentais e dentárias**

Artigo submetido ao periódico..... (*a definir*)

(Qualis / Fator de impacto:)

RESUMO

Objetivo: Verificar a associação entre as características sociodemográficas, comportamentais e dentárias e a presença de OI. **Métodos:** Foi realizado um estudo transversal com 75 pais/responsáveis e pacientes com e sem OI, na faixa etária de 2 a 21 anos, nos ambulatórios de Ortopedia e Pediatria de um hospital universitário de Belo Horizonte, região sudeste do Brasil. Os pais/responsáveis responderam um questionário sobre aspectos sociodemográficos e comportamentais dos filhos. As características bucais das crianças/adolescentes foram investigadas por meio de exame clínico. As examinadoras foram previamente calibradas, sendo obtidos valores kappa entre 0,74 e 1,00. Os dados foram analisados por meio das análises univariada e bivariada, considerando-se uma confiabilidade de 95,0%. Esta pesquisa foi aprovada pelo Comitê de Ética em Pesquisa da UFMG. **Resultados:** A idade média dos pacientes foi de 8,1 anos ($\pm 4,4$). Dentre eles, 52,0% foram identificados com OI ($n = 39$) e 48,0%, sem OI ($n = 36$). Verificou-se uma associação estatística significativa entre a presença de OI e o fato de não ter recebido aleitamento materno ou tê-lo recebido por menos de 6 meses ($p < 0,05$). Quanto às características clínicas, houve uma relação estatisticamente significativa entre a condição genética e a presença de dentinogênese imperfeita, defeito de desenvolvimento de esmalte, má oclusão e anomalias dentárias ($p < 0,05$). A cárie dentária e o traumatismo dentário não foram associados com a presença de OI ($p > 0,05$). **Conclusão:** A ausência de aleitamento materno, ou a presença dele por menos de seis meses, a presença de dentinogênese imperfeita, defeito de desenvolvimento de esmalte, má oclusão e anomalias dentárias foram associadas à presença de OI.

Palavras-chave: Osteogênese imperfeita. Dentinogênese imperfeita. Assistência odontológica para pessoas com deficiências. Pessoas com deficiência.

INTRODUÇÃO

A Osteogênese Imperfeita (OI) caracteriza-se pela fragilidade óssea e suscetibilidade variada a fraturas. É uma doença de origem genética que se apresenta por meio de um distúrbio hereditário do tecido conjuntivo, sendo a estrutura e função do colágeno do tipo I afetados. É determinada em cerca de 90,0% dos pacientes por mutações nos genes COL1A1 e COL1A2 (Pallos et al., 2001; Santilli et al., 2005; Rauch et al., 2006; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013).

A doença é considerada rara, afetando um indivíduo em cada 10.000 a 20.000 nascidos vivos, independente do sexo ou raça (Sillence et al., 1979; Rauch e Glorieux, 2004; Teixeira et al., 2008; *Osteogenesis Imperfecta Federation Europe-OIFE*, 2012). A OI costuma provocar uma lassitude exagerada dos ligamentos articulares e dos tendões musculares. Essa alteração, somada a um número frequente de fraturas, aumenta os problemas de locomoção do indivíduo (Gorlin et al., 2001; Malmgren e Norgren, 2002; Rauch e Glorieux, 2004; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013).

Classicamente os indivíduos com OI tem fragilidade óssea aumentada, com tendência a fraturas, mas também podem apresentar outras alterações de menor gravidade. Uma delas, muito característica, refere-se a uma diminuição da espessura da esclerótica, que se torna um pouco azulada. Devido a um desenvolvimento defeituoso dos ossos do ouvido médio, também podem estar presentes problemas de audição. A OI também está associada com algumas alterações dentárias, destacando-se a dentinogênese imperfeita (DI), que afeta a formação da dentina nas dentições decíduas e/ou permanentes (Malmgren e Norgren, 2002; Rauch e Glorieux, 2004; Teixeira et al., 2008; Assunção et al., 2010; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013; Surendra et al., 2013). A OI costuma provocar uma lassitude exagerada dos ligamentos articulares e dos tendões musculares. Essa alteração, somada a um número frequente de fraturas, aumenta os problemas de locomoção do

indivíduo (Gorlin et al., 2001; Malmgren e Norgren, 2002; Rauch e Glorieux, 2004; Teixeira et al., 2008; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013).

A OI divide-se em quatro tipos básicos, descritos por Sillence et al. (1979). O tipo I é considerado a forma mais branda da doença, sendo as deformidades dos membros discretas e a altura dos pacientes praticante normal. É o tipo mais comum da doença, com 70,0% dos casos identificados. O tipo II é a forma mais rara, porém considerada letal durante o período pré-natal. O tipo III é a forma sobrevivente com maior gravidade. As deformidades presentes nos membros inferiores e superiores são significativas. O indivíduo afetado apresenta escoliose e dificuldades para locomoção. Por isso necessita, muitas vezes, de cadeira de rodas. O indivíduo afetado também apresenta fraqueza muscular intensa, baixa estatura, início de perda auditiva e DI. Na OI tipo IV o paciente possui características que não se encaixam nos tipos I e III da doença. A gravidade da doença é moderada. A cor da esclera normal é a principal característica apresentada por esse grupo (Sillence et al., 1979; Rauch e Glorieux, 2004).

A DI é uma condição genética hereditária de desenvolvimento dos dentes, podendo ocorrer isolada ou associada à OI. Ocorrem alterações da estrutura e composição da dentina (Pallos et al., 2001; Malmgren e Norgren, 2002; Teixeira et al., 2008; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013; Surendra et al., 2013). Os dentes afetados apresentam uma coloração que varia do marrom-âmbar ao azul-cinza (Tsai et al., 2003; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007; Surendra et al., 2013). Radiograficamente os dentes afetados apresentam coroas com morfologia bulbosa, constrição cervical, raízes encurtadas e polpas obliteradas (Malmgren e Norgren, 2002; Huber, 2007; Teixeira et al., 2008; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013; Surendra et al., 2013).

O tratamento das pessoas com OI fundamenta-se na abordagem multidisciplinar, clínica e cirúrgica. Visando aprimorar a atenção odontológica direcionada a essa parcela da

população, o objetivo desse estudo foi verificar a associação entre as características sociodemográficas, comportamentais e dentárias e a presença de OI em crianças e adolescentes.

MATERIAIS E MÉTODOS

Foi realizado um estudo transversal com 75 pacientes na faixa etária de 2 a 21 anos com OI e sem OI. A coleta de dados foi realizada nos ambulatórios de Ortopedia (pacientes com OI) e Pediatria (pacientes sem OI) de um hospital universitário de Belo Horizonte, região sudeste do Brasil. A escolha dos locais objetivou selecionar amostras de conveniência, ou seja, não aleatórias. As pessoas que fazem parte de amostras não-aleatórias são selecionadas por um julgamento de valor, e não por questões de aleatoriedade estatística, sendo constituídas por pessoas mais acessíveis (Freedman et al., 1998). Os ambulatórios em questão não contam com um serviço de atendimento odontológico local.

Os possíveis participantes foram convidados para o estudo no momento em que aguardavam pela consulta nos ambulatórios. Explicações sobre a pesquisa, juntamente com termos de consentimento foram direcionados aos pais/responsáveis, individualmente. Aqueles que concordaram em participar eram convidados a adentrar o consultório para responderem o questionário e para a realização do exame bucal da criança/adolescente. O estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa Humana da Universidade Federal de Minas Gerais.

Coleta de dados

O diagnóstico do tipo de OI, a partir da classificação de Sillence, foi obtido por meio do prontuário médico do paciente (Sillence et al., 1979). Um questionário estruturado

foi aplicado aos pais/responsáveis. Foram registrados aspectos individuais, socioeconômicos e comportamentais sobre a criança/adolescentes (sexo, idade, classe econômica, prevalência de infecções das vias aéreas superiores (< seis meses), aleitamento materno / artificial, hábito de sucção não nutritivo (dedo e chupeta) e história prévia de tratamento ortodôntico.

A classificação econômica foi feita com base no Critério de Classificação Econômica Brasil (Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa-ABEP, 2012), agrupada em classe mais favorecida economicamente (composto pelas classes A e B), favorecida (C) e menos favorecida (classes D e E). Nenhum participante foi classificado como pertencente à classe E. A origem racial foi definida por meio dos critérios estabelecidos para a população brasileira segundo a cor da pele: branca, preta, parda ou amarela (Instituto Brasileiro de Geografia e Estatística-IBGE, 2010).

O exame clínico bucal da criança/adolescente foi realizado após a aplicação do questionário junto ao responsável. As examinadoras usaram todo o equipamento de proteção individual adequado. Uma *head lamp* (Petzl Zoom head lamp, Petzl America, Clearfield, UT, USA), um espelho clínico bucal (PRISMA®, São Paulo, SP, Brazil) e sonda IPC (*Community Periodontal Index*), preconizada pela *World Health Organization-WHO*, (WHO-621, Trinity, Campo Mourão, PA, Brazil), foram usados para o exame clínico, sem o auxílio de raio X.

Foram avaliadas as seguintes condições clínicas: traumatismo dentário, DI, defeito de desenvolvimento do esmalte (DDE), anomalias dentárias, má oclusão e cárie dentária.

O traumatismo dentário foi registrado a partir dos critérios propostos por Andreasen et al. (2007): fratura de esmalte, fratura de esmalte-dentina, fratura coronária complexa, extrusão, luxação, luxação lateral, luxação intrusiva e avulsão. O diagnóstico de DI foi definido a partir dos estudos de Kim e Simmer (2007) e Barron et al. (2008). Os DDE

foram determinados a partir das características estabelecidas pela *Commission on Oral Health, Research & Epidemiology Report of an FDI Working Group* (1992).

A presença de má oclusão e de anomalias dentárias foi diagnosticada a partir do estudo de Oliveira et al. (2008): alterações de *overjet* (aumentado/protrusão, mordida cruzada anterior, ausente) e *overbite* (aumentado/mordida profunda, mordida aberta anterior, ausente, topo) e mordida cruzada posterior. A prevalência de cárie dentária foi baseada nos critérios clínicos estabelecidos pela *WHO* (1997), considerando-se a presença de pelo menos um dente com lesão de cárie cavitada.

O exame clínico foi conduzido por duas dentistas treinadas e calibradas para investigarem as condições clínicas. A fase de calibração intra e inter examinadora incluiu uma discussão teórica sobre as condições clínicas investigadas, sendo conduzida por meio de um treinamento com *slides* e exames clínicos de crianças/adolescentes (*WHO*, 1997; Rigby, 2000). Os valores de kappa obtidos ficaram entre 0,74 e 1,00, considerados satisfatórios para o desenvolvimento do estudo (Rigby, 2000). Em seguida foi realizado um estudo piloto com 8 crianças/adolescentes com OI e sem OI. Os participantes do estudo piloto foram incluídos na amostra principal. A calibração e o estudo piloto foram realizados antes do estudo principal.

Os dados foram analisados utilizando-se o programa *Statistical Package for Social Sciences* (*SPSS for Windows, version 21.0*, SPSS Inc, Chicago, IL, USA). Foram realizadas as análises univariada e bivariada dos dados. Foi utilizado o teste do qui-quadrado, considerando-se uma significância de 5% ($p < 0,05$).

Os grupos foram pareados por sexo e idade para torná-los homogêneos, eliminando-se os efeitos das variáveis de confusão e mantendo os resultados fidedignos.

RESULTADOS

A amostra incluiu 75 pares de pais/responsáveis e pacientes. A média de idade dos pacientes foi de 8,1 anos ($\pm 4,4$) e a mediana de 7,0 anos. Destes 52,0% foram diagnosticados com OI (n = 39) e 48,0%, sem OI (n =36). O gráfico 1 exibe a distribuição das crianças/adolescentes com OI de acordo com o tipo de OI diagnosticado em cada um deles.

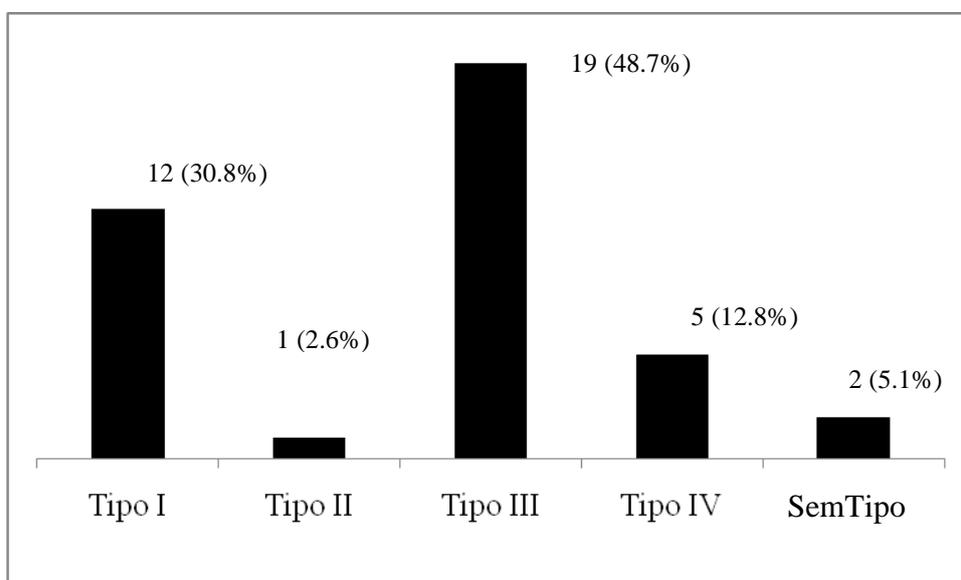


Gráfico 1- Distribuição dos pacientes de acordo com o tipo de OI (N=39)

A tabela 1 demonstra que, quando se associaram as duas variáveis de pareamento (sexo e idade) com a condição genética do paciente, foram obtidos resultados sem significância estatística, confirmando a homogeneidade dos grupos ($p>0,05$). Não se encontrou, também, associação significativa entre os grupos, a cor da pele e a classe econômica das crianças/adolescentes ($p>0,05$).

Tabela 1- Distribuição dos pacientes de acordo com a presença de OI (N=75).

| VARIÁVEIS INDEPENDENTES | GRUPO | | | P valor ^a |
|-------------------------|-----------------|-----------------|---------------------|----------------------|
| | Com OI n (%) | Sem OI n (%) | Total n (100,0%) | |
| Sexo | | | | |
| Maculino | 24 (52,2) | 22 (47,8) | 46 | 0,970 |
| Feminino | 15 (51,7) | 16 (48,3) | 29 | |
| Cor da pele | | | | |
| Branca | 15 (55,6) | 12 (44,4) | 27 | 0,644 |
| Preta / Parda | 24 (50,0) | 24 (50,0) | 48 | |
| Idade (anos) | | | | |
| 2-5 | 13 (50,0) | 13 (50,0) | 26 | 0,968 |
| 6-11 | 16 (53,3) | 14 (46,7) | 30 | |
| 12-19 | 10 (52,6) | 9 (47,4) | 19 | |
| Classe Econômica | | | | |
| Mais favorecida (A+B) | 14 (58,3) | 10 (41,7) | 24 | 0,271 |
| Favorecida (C) | 24 (51,1) | 23 (48,9) | 47 | |
| Menos favorecida (D+E) | 1 (25,0) | 3 (75,0) | 4 | |

^aTeste χ^2 (nível de significância de 5%)

De acordo com os dados da tabela 2, apenas a variável aleitamento materno apresentou relação significativa com a condição genética do paciente ($p=0,014$). A maioria dos participantes que relataram ausência de aleitamento materno ou, quando presente, por menos de 6 meses, pertenciam ao grupo de pacientes com OI (67,6%).

Tabela 2- Frequência absoluta e relativa dos pacientes de acordo com a prevalência de OI (n=75)

| VARIÁVEIS INDEPENDENTES | GRUPO | | | P valor ^a | Odds Rattio (IC) ^b |
|-----------------------------------------------------------|--------------|--------------|------------------|----------------------|-------------------------------|
| | Com OI n (%) | Sem OI n (%) | Total n (100.0%) | | |
| Infecção das vias aéreas superiores (< 6 meses) | | | | | |
| Sim | 17 (48,6) | 18 (51,4) | 35 | 0,578 | 0,77 (0,31-1,91) 1 |
| Não | 22 (55,0) | 18 (45,0) | 40 | | |
| Aleitamento materno | | | | | |
| < 6 meses (ou ausente) | 23 (67,6) | 11 (32,4) | 34 | 0,014 | 3,26 (1,25-8,48) 1 |
| ≥ 6 meses | 16 (39,0) | 25 (61,0) | 41 | | |
| Aleitamento artificial | | | | | |
| < 24 meses (ou ausente) | 22 (55,0) | 18 (45,0) | 40 | 0,578 | 1,29 (0,52-3,21) 1 |
| ≥ 24 meses | 17 (48,6) | 18 (51,4) | 35 | | |
| Hábito de sucção não nutritivo | | | | | |
| Não | 14 (63,6) | 8 (36,4) | 22 | 0,193 | 1,96 (0,70-5,44) 1 |
| Sim | 25 (47,2) | 28 (52,8) | 53 | | |
| História de aparelho ortodôntico | | | | | |
| Sim | 4 (57,1) | 3 (42,9) | 7 | 0,991 ^c | 1,25 (0,26-6,04) 1 |
| Não | 35(51,5) | 33 (48,5) | 68 | | |

^aTeste χ^2 (nível de significância de 5%) / ^bIC: Intervalo de Confiança / ^cTeste de Fisher

A relação entre a condição genética dos pacientes e o exame clínico está descrita na tabela 3. Observou-se uma associação estatisticamente significativa entre a condição genética do paciente e a presença de DI. Todas as crianças diagnosticadas com DI (100,00%) pertenciam ao grupo com OI ($p < 0,001$).

A maior parte dos pacientes identificadas com DDE (68,0%) era do grupo com OI, sendo essa uma associação estatisticamente significativa ($p = 0,049$). O mesmo aconteceu para a má oclusão. Um maior percentual de crianças/adolescentes diagnosticados com alguma má oclusão (64,6%) pertencia ao grupo com OI ($p = 0,004$).

A prevalência de anomalias dentárias também se mostrou estatisticamente associada com a OI. A grande maioria das crianças/adolescentes diagnosticados com giroversão (92,3%) era do grupo com OI ($p = 0,013$).

Tabela 3- Frequência absoluta e relativa dos pacientes e adolescentes de acordo com a prevalência de OI (N=75)

| VARIÁVEIS INDEPENDENTES | GRUPO | | | P valor ^a | Odds Rattio (IC) ^b |
|-----------------------------|-----------------|-----------------|---------------------|----------------------|--------------------------------------------|
| | Com OI n (%) | Sem OI n (%) | Total n (100.0%) | | |
| Traumatismo dentário | | | | | |
| Presente | 3 (42,9) | 4 (57,1) | 7 | 0,704 ^c | 0,66 (0,13-3,20) 1 |
| Ausente | 36 (52,9) | 32 (47,1) | 68 | | |
| DI | | | | | |
| Presente | 14 (100,0) | 0 | 14 | <0,001 | ----- |
| Ausente | 25 (41,0) | 36 (59,0) | 61 | | |
| DDE | | | | | |
| Presente | 17 (68,0) | 8 (32,0) | 25 | 0,049 | 2,70 (1,01-7,41) 1 |
| Ausente | 22 (44,0) | 28 (56,0) | 50 | | |
| Má oclusão | | | | | |
| Presente | 31 (64,6) | 17 (35,4) | 48 | 0,004 | 4,33 (1,56-11,96) 1 |
| Ausente | 8 (29,6) | 19 (70,4) | 27 | | |
| Anomalias dentárias | | | | | |
| Dente conóide | 1 (50,0) | 1 (50,0) | 2 | 0,013 | 0,08 (0,03-2,60) 1,30 (1,07-21,95) 1 |
| Giroversão | 12 (92,3) | 1 (7,7) | 13 | | |
| Sem anomalias | 26 (43,3) | 34 (56,7) | 60 | | |
| Cárie dentária | | | | | |
| ≥ 1 dente | 18 (56,3) | 14 (43,8) | 32 | 0,525 | 1,34 (0,53-3,37) 1 |
| Ausente | 21 (48,8) | 22 (51,2) | 43 | | |

^a Teste χ^2 (nível de significância de 5%) / ^b IC: Intervalo de Confiança / ^c Teste de Fisher

DISCUSSÃO

O atendimento odontológico direcionado à população com OI é um fator essencial na busca e manutenção da saúde e do bem estar (Malmgren e Norgren, 2002; Huber, 2007; Teixeira et al., 2008; Surendra et al., 2013). No entanto, as informações acerca do estado de saúde e doença bucal das crianças e adolescentes com OI, a efetividade das intervenções planejadas para a melhoria da assistência, bem como do auxílio, cuidado e orientações para os cuidadores ainda são insuficientes (Teixeira et al., 2008; Surendra et al., 2013).

A fragilidade óssea é a característica mais comum da OI, sendo um sinal indicativo da doença. A forma letal de OI é a tipo II de Sillence, com fraturas detectadas por meio de ultra-sonografia do feto e morte, ainda no período intra-utero ou após o nascimento (Sillence et al., 1979; Rauch e Glorieux, 2004). Tal fato pode justificar a baixa prevalência de crianças/adolescentes com essa classificação de OI observadas neste estudo (um caso),

coincidindo também com outros dados da literatura. O paciente identificado com o tipo II da doença sobreviveu por ter usado o medicamento Pamidronato®, que interferiu na evolução da OI. Uma pesquisa desenvolvida em ambulatório de um hospital de São Paulo com 22 pacientes com OI identificou o tipo I da doença como o mais frequente (40,9%), seguido de 36,3% de indivíduos com OI tipo III e 22,7% de casos tipo IV. Não foi encontrado nenhum paciente com OI tipo II (Santilli et al., 2005).

As diversas alterações dentofaciais presentes nas pessoas com OI ressaltam a importância dos os profissionais de saúde, principalmente da equipe médica que assiste essa parcela da população, reconhecer as alterações dentofaciais presentes nesses indivíduos e orientar os pais/responsáveis a buscarem assistência odontológica para seus filhos o mais cedo possível.

A homogeneidade entre os grupos avaliados, pareados quanto a idade e ao sexo, permite tornar os grupos comparáveis quanto a esses fatores individuais. Esse recurso faz com que as características referentes às alterações clínicas e comportamentais sejam mais fiéis, removendo um possível viés de confusão.

Considerando-se o aleitamento materno, verificou-se que a maior parte dos pais/responsáveis que afirmaram ausência do hábito ou presença dele por menos de seis meses referiam-se às pacientes com OI. Esse dado possivelmente está relacionado à presença de dificuldades respiratórias em alguns bebês com OI, que podem interferir na habilidade de sucção (Plotkin, 2003). Além disso, a mãe pode se sentir inibida para amamentar devido ao temor de provocar alguma fratura óssea no bebê ao posicioná-lo no colo para amamentação natural. Outro fator que possivelmente influenciou refere-se ao estado emocional da mãe frente a descoberta de um filho com OI, que pode influenciar diretamente na produção do leite materno.

De acordo com Souza et al. (2010), os problemas ligados à ambiência hospitalar, assistência profissional, condição clínica da criança e, principalmente, o medo e a insegurança decorrentes de dificuldades no manejo da amamentação são fatores dificultadores da amamentação. Amorim et al. (1999) realizaram um estudo com 14 mães de crianças com Síndrome de Down (SD) do Paraná e observaram que o impacto da notícia de ter um filho com limitações de desenvolvimento foi relatado como decisivo para não realizar o aleitamento materno, uma vez que suas expectativas como mãe não foram correspondidas.

O exame clínico dos pacientes identificou crianças/adolescentes com DI apenas entre aqueles com OI, evidenciando o fato desta anomalia dentária ser bastante comum nessa parcela da população nas dentições decídua e permanente (O'Connell e Marini, 1999; Pallos et al., 2001; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007; Teixeira et al., 2008; Surendra et al., 2013).

Um estudo desenvolvido com 40 crianças com OI nos EUA mostrou que 80,0% delas apresentavam DI na primeira dentição (O'Connell e Marini, 1999). Todos os tecidos do corpo humano ricos em colágeno do tipo I podem ser afetados pela OI, o que leva a mudanças quantitativas e qualitativas no colágeno tipo I, a principal proteína estrutural dos ossos e da dentina, que conseqüentemente leva a um defeito na mineralização desses tecidos (Rauch et.al., 2006).

A DI refere-se a uma alteração genética que afeta o desenvolvimento dentário, provocando a descoloração dos dentes (azul acinzentado ou marrom amarelado) e excessiva translucidez dental. A fragilidade dos dentes com DI, por quase só apresentarem esmalte em sua composição, deixa-os mais susceptíveis ao desgaste. Por isso, é importante que esses dentes sejam restaurados quanto á devolução de forma e função (Pallos et al., 2001; Malmgren e Norgren, 2002; Rauch e Glorieux, 2004; Huber, 2007; Teixeira et al.,

2008; Surendra et al., 2013). Wieczorek e Loster (2013) avaliaram os cortes histológicos de dentes molares diagnosticados com DI na Polônia e verificaram que os cristais de hidroxiapatita presentes nos dentes eram claramente visíveis dentro dos prismas de esmalte. Esse quadro indica a fragilidade estrutural do tecido, que provoca uma alta suscetibilidade às condições adversas na cavidade bucal.

Os dados mostraram que a maioria dos pacientes com OI foi identificada com DDE. Esse fato pode estar associado a alterações sistêmicas e hereditárias que influenciam o processo de formação do esmalte dos dentes de indivíduos com OI. Segundo dados da literatura, em cerca de um terço dos casos de OI foram identificados dentes com alterações de esmalte como hipomineralização ou hipoplasia (Schawartz e Tsipouras, 1984; O'Connell e Marini, 1999). Um estudo realizado na Noruega com 12 dentes extraídos de crianças e adolescentes com OI mostrou alterações do esmalte dentário. As hipoplasias de esmalte foram mais frequentes nos dentes extraídos de pacientes com OI tipo IV (Lindau et al., 1999).

Quanto à prevalência de má oclusão na população examinada, a maior parte das crianças/adolescentes com OI apresentou pelo menos uma má oclusão referente às alterações oclusais verticais ou transversais. Esse resultado possivelmente está associado às características oclusofaciais e alterações de crescimento presentes nos indivíduos com OI. Alguns estudos relataram uma prevalência maior de má oclusão classe III de Angle nessa parcela da população, provavelmente causada por hipoplasia da maxila, associada ou não a uma hiperplasia mandibular (Schartz e Tsipouras, 1984; O'Connell e Marini, 1999; Abukabbos e Al-Sineedi, 2013).

A má oclusão Classe III pode estar associada com a perda precoce da dimensão vertical e com uma oclusão instável, que podem provocar um avanço da mandíbula (Chang et al., 2007). Devido a um risco maior de desgaste dental e fraturas, a perda da dimensão

vertical pode ocorrer nas pessoas que possuem dentina malformada (O'Connel e Marini, 1999; Surendra et al., 2013). Segundo Abukabbos e Al-Sineedi (2013), os tipos mais graves de OI estão associados com má oclusão classe III de Angle.

Rizkallah et al. (2013) avaliaram fotografias, modelos, radiografias e traçados cefalométricos em 49 indivíduos com OI no Canadá e observaram que o subdesenvolvimento vertical das estruturas dentoalveolares e do processo condilar foram as principais razões do prognatismo mandibular nos indivíduos com OI.

Quanto à prevalência de anomalias dentárias, os dados mostraram que elas foram mais prevalentes nas crianças/adolescentes com OI, sendo os dentes girovertidos bastante frequentes na população com OI. A giroversão é uma anomalia dentária que geralmente ocorre pelo fato do germe do dente não ter espaço para erupcionar, o que o faz girar em torno de si mesmo. É provável que esse fato justifique a alta prevalência dessa anomalia em crianças e adolescentes com OI, uma vez que há uma frequente atresia maxilar. De acordo com Chang et al. (2007), giroversão é uma anomalia bastante frequente e está associada à presença de má oclusão.

A OI promove alterações funcionais e estéticas de toda a dentição, seja decídua ou permanente. É frequente a ocorrência de fraturas coronárias e radiculares, desgaste dental e consequente exposição do tecido dentinário, além da alta perda prematura de dentes. Por isso, é indispensável que os profissionais de saúde que assistem essa parcela da população recebam informações sobre as alterações craniofaciais e dentais. O cuidado direcionado aos pacientes com OI deve incluir uma assistência médica e odontológica composta por uma equipe de profissionais que inclua um médico geneticista, um ortopedista e um cirurgião-dentista, além de reabilitação.

Possibilitam o encaminhamento precoce do paciente ao cirurgião dentista, o qual deverá iniciar o tratamento odontológico o mais precocemente possível, visto que a OI leva

a alterações na função e a estética de toda a dentição, seja decídua ou permanente. É frequente a ocorrência de fraturas coronárias e radiculares, desgaste dental e consequente exposição do tecido dentinário, além da alta perda prematura de dentes.

Antes de planejar e realizar o tratamento odontológico de um paciente com OI, é importante que o cirurgião-dentista seja informado pelo médico responsável sobre as condições clínicas do paciente em questão. Deve ser feita uma análise do comprometimento e gravidade da doença, considerando-se as necessidades e limitações do tratamento.

Mesmo que as doenças bucais e alterações dentofaciais possam causar quadros de dor, infecções, complicações respiratórias e problemas mastigatórios e de fala, os cuidados com a saúde bucal são vistos como baixa prioridade, quando comparados aos cuidados médicos e sociais direcionados ao indivíduo com a OI. Essa realidade é desanimadora e necessita de mudanças. Por ser minoria dentro da população geral, o público acometido por necessidades especiais muitas vezes acaba sendo desconsiderado ou ignorado dentro das medidas implementadas por programas de saúde pública relativas à assistência odontológica.

CONCLUSÃO

Dentre os pacientes com OI, o tipo mais prevalente da doença foi o tipo III (48,7%), seguido dos tipos I (30,8%), IV (12,8%) e II (2,6%). Verificou-se que 5,1% dos pacientes com OI ainda não tinham o diagnóstico concluído quanto ao tipo de OI.

A ausência do hábito de aleitamento materno, ou presença do hábito por menos de seis meses foi mais frequente entre as crianças/adolescentes com OI (67,6%).

Todas os pacientes diagnosticadas com DI pertenciam ao grupo de indivíduos com OI (100,0%).

A maioria dos examinados identificados com DDE (68,0%), má oclusão (64,6%) e anomalias dentárias tipo giroversão (92,3%) pertence ao grupo de crianças e adolescentes com OI.

AGRADECIMENTO

Os autores agradecem ao Conselho Nacional de Desenvolvimento Científico e Tecnológico (CNPQ) pelo apoio financeiro.

REFERÊNCIAS

1. Abukabbos H, Al-Sineedi F. Clinical manifestations and dental management of dentinogenesis imperfecta associated with osteogenesis imperfecta: case report. *Saudi Dent J* 2013; 25:159-65.
2. Amorim ST, Moreira H, Carraro TE. Breast feeding in down's syndrome children: mothers' perception about the practices of health professionals. *Rev Nutr* 1999; 12:5-19. [Portuguese]
3. Andreasen JO, Andreasen FM, Andersson L. Textbook and color atlas of traumatic injuries to the teeth. 4 ed. Copenhagen: Munksgaard International Publishers. 2007. 897p.
4. Assunção WG, Haddad MF, Rocha EP. Cementation of prosthetic restorations: from conventional cementation to dental bonding concept. *J Craniofac Surg* 2010; 22:952-8.
5. Barron MJ, McDonnell ST, MacKie I, Dixon MJ. Hereditary dentine disorders: dentinogenesis imperfecta and dentine dysplasia. *Orphanet J Rare Dis* 2008, 3: 31.

6. Chang PC, Lin SY, Hsu KH. The craniofacial characteristics of osteogenesis imperfecta patients. *Eur J Orthod* 2007; 29:232-7.
7. Commission on Oral Health, Research & Epidemiology Report of an FDI Working Group. A review of the developmental defects of enamel index (DDE Index). *Int Dent J* 1992; 42:411-26.
8. Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa (ABEP). Critério de Classificação Econômica Brasil. São Paulo, 2012. Disponível em:
<<http://www.abep.org/novo/Content.aspx?ContentID=301>> Acesso: 11 out. 2012.
9. Freedman D, Pisani R, Purves RA. *Statistics*. 3 ed. W.W. Norton: NewYork. 1998. 578 p.
10. Gorlin RJ, Cohen Jr MM, Hennekam RCM. Syndromes Affecting Bone: The Osteogenesis Imperfectas. In: *Syndromes of the Head and Neck*. Oxford: Oxford University Press; 2001. P.178-91.
11. Huber MA. Osteogenesis imperfecta. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007; 103:314-20.
12. Instituto Brasileiro de Geografia e Estatística - IBGE. Características étnico-raciais da população. Rio de Janeiro, 2011. Disponível em:
<<http://portal.mte.gov.br/data/files/8A7C816A316B688101318AB565C54F14/PCERP2008.pdf>>. Acesso: 09 set. 2012.
13. Kim JW, Simmer JP. Hereditary dentin defects. *J Dent Res*. 2007; 86:392-9.
14. Lindau BM, Dietz W, Hoyer I, Lundgren T, Storhaug K, Noren JG. Morphology of dental enamel and dentine-enamel junction in osteogenesis imperfecta. *Int J Paediatr Dent* 1999; 9:13-21.

15. Malmgren B, Norgren S. Dental aberrations in children and adolescents with osteogenesis imperfecta. *Acta Odontol Scand*. 2002; 60:65-71.
16. O'Connell AC, Marini JC. Evaluation of oral problems in an osteogenesis imperfecta population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999; 87:189-96.
17. Oliveira AC, Paiva SM, Campos MR, Czeresnia D. Factors associated with malocclusions in children and adolescents with Down syndrome. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2008; 133:489e1-e8.
18. Osteogenesis Imperfecta Federation Europe-OIFE. 2012. Disponível em: <<http://www.oife.org/index.php/EN>>. Acesso: 08 nov. 2012.
19. Pallos D, Hart PS, Corteli JR, Vian S, Wright JT, Korkko J, Brunoni D, Hart TB. Novel COL1A1 mutation (G599C) associated with mild osteogenesis imperfecta and dentinogenesis imperfect. *Arch Oral Biol* 2001; 46:459-70.
20. Plotkin H. Nutrição do bebê. In: Associação Brasileira de Osteogenesis Imperfecta-ABOI. *Osteogenesis Imperfecta: como viver com "ossos de cristal"*. eBook. 2003. Disponível em: <<http://www.ebooksbrasil.org/eLibris/ossosdecristal.html>>. Acesso: 22 abril 2014. [Portuguese]
21. Rauch F, Glorieux FH. Osteogenesis imperfecta. *Lancet* 2004; 363:1377-85.
22. Rauch F, Travers R, Glorieux FH. Pamidronate in children with osteogenesis imperfecta: histomorphometric effects of long-term therapy. *J Clin Endocrinol Metab* 2006; 91:511-6.
23. Rigby AS. Statistical methods in epidemiology. Towards an understanding of the kappa coefficient. *Disabil Rehabil* 2000; 22:339-44.

24. Rizkallah J, Schawrtz S, Rauch F, Glorieux F, Vu DD, Muller K, Retrovey JM. Evaluation of the severity of malocclusions in children affected by osteogenesis imperfecta with the peer assessment rating and discrepancy indexes. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2013; 43:336-41.
25. Schwartz S, Tsipouras P. Oral findings in osteogenesis imperfecta. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984; 57:161-7.
26. Sillence DO, Senn A, Danks DM. Genetic heterogeneity in osteogenesis imperfecta. *J Med Genet* 1979; 16:101-16.
27. Souza KV, Tesin RR, Alves VH. Mothers of newborns born hospitalized babies: within/between circles in the breastfeeding process. *Acta Paul Enferm* 2010; 23:608-13. [Portuguese]
28. Surendra P, Shah R, NM R, Subba Reddy VV. Dentinogenesis Imperfecta: a family which was affected for over three generations. *J Clin Diagn Res* 2013; 7:1808-11.
29. Teixeira CS, Santos Felipe MC, Tadeu Felipe W, Silva-Sousa YT, Sousa-Neto MD. The role of dentists in diagnosing osteogenesis imperfecta in patients with dentinogenesis imperfecta. *J Am Dent Assoc* 2008; 139:906-14.
30. Tsai CL, Lin YT, Lin YT. Dentinogenesis imperfecta associated with osteogenesis imperfecta: report of two cases. *Chang Gung Med J* 2003; 26:138-43.
31. World Health Organization-WHO. Oral health surveys: basics methods. 4 ed. World Health Organization: Geneva. 1997. 66p.
32. Wiczorek A, Loster J. Dentinogenesis imperfecta type II: ultrastructure of teeth in sagittal sections. *Folia Histochem Cytobiol* 2013; 51:244-7.

5 CONSIDERAÇÕES FINAIS

As diversas características dos pacientes com OI nos remete ao fato que o cuidado multidisciplinar e integral não podem ser deixados de lado. Embora as doenças bucais possam comprometer a qualidade de vida dos pacientes, inclusive ocasionando quadros de dor e desconforto, o cuidado com a saúde bucal ainda é deixado de lado em relação aos demais cuidados direcionados à saúde geral e à deficiência. Para mudar essa realidade, é preciso que aconteça um trabalho de integração e conscientização dos familiares e profissionais de saúde envolvidos na assistência desses indivíduos.

Observar as várias características bucais apresentadas por pacientes com OI é de grande importância para o auxílio no diagnóstico, classificação da doença e consequente prognóstico. A integração médica e odontológica proporciona um melhor conhecimento dessa parcela da população, resultado em um trabalho constante para melhoria da qualidade de vida desses indivíduos. O tratamento odontológico para pacientes com OI ainda é algo desconhecido para muitos profissionais. Deve ser realizado com uma abordagem diferenciada, que vai desde o conhecimento das alterações apresentadas ao manejo do paciente levando em consideração suas limitações.

O ambiente familiar é considerado de extrema importância para favorecer o cuidado e a atenção direcionados às crianças e adolescentes com OI. A relação entre o estado psicossocial e a saúde bucal mostra um novo rumo na proposta de atingir a promoção de saúde. A literatura revela que o estresse apresentado por diversas famílias podem promover diversos prejuízos para a saúde como um todo. O SC materno é considerado um determinante psicossocial para diversas doenças onde representa a saúde do indivíduo além do conhecimento biológico e de outras áreas da ciência, evidenciando uma relação forte da saúde com a qualidade de vida. Assim, ao mensurar o SC materno, visamos observar o estado de saúde da mãe e da família ligada a ela. Desta forma, o SC

mostra-se como uma importante ferramenta na promoção de melhoras efetivas da saúde bucal da população, sendo um aliado no trabalho dos setores públicos apropriados e dos profissionais relacionados.

6 REFERÊNCIAS GERAIS

1. Ablin DS. Osteogenesis imperfecta: a review. *Can Assoc Radiol J* 1998; 49:110-23.
2. Abukabbos H, Al-Sineedi F. Clinical manifestations and dental management of dentinogenesis imperfecta associated with osteogenesis imperfecta: case report. *Saudi Dent J* 2013; 25:159-65.
3. Amorim ST, Moreira H, Carraro TE. Breast feeding in down's syndrome children: mothers' perception about the practices of health professionals. *Rev Nutr* 1999; 12:5-19. [Portuguese]
4. Andreasen JO, Andreasen FM, Andersson L. Textbook and color atlas of traumatic injuries to the teeth. 4 ed. Copenhagen: Munksgaard International Publishers. 2007. 897p.
5. Antonovsky A. The structure and properties of the sense of coherence scale. *Soc Sci Med* 1993; 36:725-33.
6. Antonovsky H, Sagy S. The development of a sense of coherence and its impact on responses to stress situations. *J Soc Psychol* 1986; 126:213-25.
7. Assis MC, Plotkin H, Glorieux FH, Santili C. Osteogenese imperfeita: novos conceitos. *Rev Bras Ort* 2002; 37:323-7.
8. Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa (ABEP). Critério de Classificação Econômica Brasil. São Paulo, 2012. Disponível em:
<<http://www.abep.org/novo/Content.aspx?ContentID=301>> Acesso: 11 out. 2012.
9. Associação Brasileira de Osteogenesis Imperfecta-ABOI. Disponível em:
<<http://www.aboi.org.br>>. Acesso: 08 nov. 2012.

10. Assunção WG, Haddad MF, Rocha EP. Cementation of prosthetic restorations: from conventional cementation to dental bonding concept. *J Craniofac Surg* 2010; 22:952–8.
11. Barbosa AGM, Chaud MN, Gomes MMF. Experiences of mothers of disabled children: a phenomenological study. *Acta Paul Enferm* 2008; 21:46-52.
12. Barron MJ, McDonnell ST, MacKie I, Dixon MJ. Hereditary dentine disorders: dentinogenesis imperfecta and dentine dysplasia. *Orphanet J Rare Dis* 2008, 3: 31.
13. Beltrame JM, Orlandi CG, Siviero J, Pinto MM, Silva MC, Schiefer AM, Chiari BM. Communicative events in osteogenesis imperfecta: a case report. *ACTA ORL/Técnic Otorrinol* 2009; 27:129-33.
14. Bonanato K, Branco DB, Mota JP, Ramos-Jorge ML, Paiva SM, Pordeus IA, Kaeppler KC. Trans-cultural adaptation and psychometric properties of the ‘sense of coherence scale’ in mothers of preschool children. *R Interam Psicol* 2009a, 43:144-53.
15. Bonanato K, Paiva SM, Pordeus IA, Ramos-Jorge ML, Barbabela D, Allison PJ. Relationship between mother’s sense of coherence and oral health status of preschool children. *Caries Res* 2009b; 43:103-9.
16. Chang PC, Lin SY, Hsu KH. The craniofacial characteristics of osteogenesis imperfecta patients. *Eur J Orthod* 2007; 29:232-7.
17. Chen MS. Children’s preventive dental behavior in relation to their mothers’ socioeconomic status, health beliefs and dental behaviours. *ASDC J Dent Child* 1986; 53:105-9.

18. Commission on Oral Health, Research & Epidemiology. Report of an FDI Working Group. A review of the developmental defects of enamel index (DDE Index). *Int Dent J* 1992; 42:411-26.
19. da Silva AN, Mendonça MH, Vettore MV. The association between low socioeconomic status mother's Sense of Coherence and their child's utilization of dental care. *Community Dent Oral Epidemiol* 2011; 39:115-26.
20. Dabrowska A. Sense of coherence in parents of children with cerebral palsy. *Psychiatr Pol* 2007; 41:189-201.
21. Dong J, Gu T, Jeffords L, Macdougall M. Dentin phosphoprotein compound mutation in dentin sialophosphoprotein causes dentinogenesis imperfecta type III. *Am J Med Genet A* 2005; 132:305-9.
22. Eriksson M, Lindström B. Antonovsky's sense of coherence scale and the relation with health: a systematic review. *J Epidemiol Community Health* 2006; 60:376-81.
23. Freedman D, Pisani R, Purves RA. *Statistics*. 3 ed. W.W. Norton: NewYork. 1998. 578 p.
24. Freire MC, Hardy R, Sheiham A. Mothers' sense of coherence and their adolescent children's oral health status and behaviors. *Community Dent Health* 2002; 19:24-31.
25. Freire MC, Sheiham A, Hardy R. Adolescents' sense of coherence, oral health status and oral health related behaviors. *Community Dent Oral Epidemiol* 2001; 29:204-12.
26. Gonzales S, Steinglass P, Reiss D. Putting the illness in its place: discussion groups for families with chronic medical illness. *Fam Process* 1989; 28:69-87.

27. Gorlin RJ, Cohen Jr MM, Hennekam RCM. Syndromes Affecting Bone: The Osteogenesis Imperfectas. In: Syndromes of the Head and Neck. Oxford: Oxford University Press; 2001. P.178-91.
28. Greene JC, Vermillion JR. The simplified oral hygiene index J Am Dent Assoc 1964; 68:7-13.
29. Groholt EK, Stigum H, Nordhagen R, Kohler L: Is parental sense of coherence associated with child health? Eur J Public Health 2003; 13:195-201.
30. Hedov G, Annereín G, Wikblad K. Self-perceived health in Swedish parents of children with Down's syndrome. Qual Life Res 2000; 9:415-22.
31. Hedov G, Annereín G, Wikblad K. Swedish parents of children with Down's syndrome: parental stress and sense of coherence in relation to employment rate and time spent in child care. Scand J Caring Sci 2002; 16:424-30.
32. Huber MA. Osteogenesis imperfecta. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2007; 103:314-20.
33. Instituto Brasileiro de Geografia e Estatística - IBGE. Características étnico-raciais da população. Rio de Janeiro, 2011. Disponível em: <<http://portal.mte.gov.br/data/files/8A7C816A316B688101318AB565C54F14/PCERP2008.pdf>>. Acesso: 09 set. 2012.
34. Kim JW, Simmer JP. Hereditary dentin defects. J Dent Res. 2007; 86:392-9.
35. Kim JW, Hu JC, Lee JI, Moon SK, Kim YJ, Jang KT. Mutational hot spot in the DSPP gene causing dentinogenesis imperfecta type II. Hum Genet 2005; 116:186-91.

36. Kindelan J, Tobin M, Roberts-Harry D, Loukota RA. Orthodontic and orthognathic management of a patient with osteogenesis imperfecta and dentinogenesis imperfecta: a case report. *J Orthod* 2003; 30:291-6.
37. Lacerda VR, Queiroz CL, Pontes ERJC. Relação entre senso de coerência materno, condições socioeconômicas e percepção da saúde bucal. *Estud Psicol* 2012; 29:203-8.
38. Levin LS, Salinas CF, Jorgenson RJ. Classification of osteogenesis imperfecta by dental characteristics. *Lancet* 1978; 1:332-3.
39. Lindau BM, Dietz W, Hoyer I, Lundgren T, Storhaug K, Noren JG. Morphology of dental enamel and dentine-enamel junction in osteogenesis imperfecta. *Int J Paediatr Dent* 1999; 9:13-21.
40. Lindström B, Eriksson M. Salutogenesis. *J Epidemiol Community Health* 2005; 59:440-2.
41. Maldonado VB, Silva FW, Nelson-Filho P, Consolaro A, Queiroz AS. Características clínicas da osteogênese imperfeita do tipo I e da dentinogênese imperfeita. *Pediatria* 2010; 32:223-30.
42. Malmgren B, Norgren S. Dental aberrations in children and adolescents with osteogenesis imperfecta. *Acta Odontol Scand.* 2002; 60:65-71.
43. Newton JT, Bower EJ. The social determinants of oral health: new approaches to conceptualizing and researching complex causal networks. *Community Dent Oral Epidemiol* 2005; 33:25-34.
44. O'Connell AC, Marini JC. Evaluation of oral problems in an osteogenesis imperfecta population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1999; 87:189-96.

45. Oelofsen N, Richardson P. Sense of coherence and parenting stress in mothers and fathers of preschool children with developmental disability. *J Intellect Dev Disabil* 2006; 31:1-12.
46. Oliveira AC, Paiva SM, Campos MR, Czeresnia D. Factors associated with malocclusions in children and adolescents with Down syndrome. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2008; 133:489e1-e8.
47. Oliveira AC, Pordeus IA, Luz CL, Paiva SM. Mothers' perceptions concerning oral health of children and adolescents with Down syndrome: a qualitative approach. *Eur J Paediatr Dent* 2010; 11:27-30.
48. Olsson MB, Hwang CP. Sense of coherence in parents of children with different developmental disabilities. *J Intellect Disabil Res* 2002; 46:548-59.
49. Osteogenesis Imperfecta Federation Europe-OIFE. 2012. Disponível em: <http://www.oife.org/index.php/EN>>. Acesso: 08 nov. 2012.
50. Pallos D, Hart PS, Corteli JR, Vian S, Wright JT, Korkko J, Brunoni D, Hart TB. Novel COL1A1 mutation (G599C) associated with mild osteogenesis imperfecta and dentinogenesis imperfect. *Arch Oral Biol* 2001; 46:459-70.
51. Petersen K, Wetzel WE. Recent findings in classification of osteogenesis imperfecta by means of existing dental symptoms. *ASDC J Dent Child* 1998; 65:305-9.
52. Plotkin H. Nutrição do bebê. In: Associação Brasileira de Osteogenesis Imperfecta-ABOI. *Osteogenesis Imperfecta: como viver com "ossos de cristal"*. eBook. 2003. Disponível em: <http://www.ebooksbrasil.org/eLibris/ossosdecrystal.html>>. Acesso: 22 abril 2014. [Portuguese]

53. Rauch F, Glorieux FH. Osteogenesis imperfecta. *Lancet* 2004; 363:1377-85.
54. Rauch F, Travers R, Glorieux FH. Pamidronate in children with osteogenesis imperfecta: histomorphometric effects of long-term therapy. *J Clin Endocrinol Metab* 2006; 91:511-6.
55. Rauch, F, Lalic L, Roughley P Glorieux FH. Genotype–phenotype correlations in nonlethal osteogenesis imperfecta caused by mutations in the helical domain of collagen type I. *Eur J Hum Genet* 2010; 18:642-7.
56. Rigby AS. Statistical methods in epidemiology. Towards an understanding of the kappa coefficient. *Disabil Rehabil* 2000; 22:339-44.
57. Rizkallah J, Schawrtz S, Rauch F, Glorieux F, Vu DD, Muller K, Retrovey JM. Evaluation of the severity of malocclusions in children affected by osteogenesis imperfecta with the peer assessment rating and discrepancy indexes. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2013; 43:336-41.
58. Santili C, Akkari M, Waisberg G, Bastos Junior JOC, Ferreira W. Avaliação clínica, radiográfica e laboratorial de pacientes com Osteogênese imperfeita. *Rev Assoc Med Bras* 2005; 51:214-20.
59. Schwartz S, Tsipouras P. Oral findings in osteogenesis imperfecta. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1984; 57:161-7.
60. Shanmugam KT, Mashtan KMK, Balachander N, Sudha Jimson, Sarangarajan R. Dental Caries Vaccine - A Possible Option?. *J Clin Diagn Res* 2013; 7:1250-3.
61. Sillence DO, Senn A, Danks DM. Genetic heterogeneity in osteogenesis imperfecta. *J Med Genet* 1979; 16:101-16.

62. Sillence DO and Van Dijk FS. Osteogenesis Imperfecta: Clinical diagnosis, nomenclature and severity assessment. *Am J Med Genet Part A* 2014; 164A: 1470-1481.
63. Souza KV, Tesin RR, Alves VH. Mothers of newborns born hospitalized babies: within/between circles in the breastfeeding process. *Acta Paul Enferm* 2010; 23:608-13.
64. Subramanian P, Mathew S, Sugnani SN. Dentinogenesis imperfecta: a case report. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2008; 26:85-7..
65. Tsai CL, Lin YT, Lin YT. Dentinogenesis imperfecta associated with osteogenesis imperfecta: report of two cases. *Chang Gung Med J* 2003; 26:138-43.
66. Venturi G, Tedeschi E, Mottes M, Valli M, Camilot M, Viglio S. Osteogenesis imperfecta: clinical, biochemical and molecular findings. *Clin Genet* 2006; 70:131-9.
67. Waltimo-Sirén J, Kolkka M, Pynnönen S, Kuurila K, Kaitila I, Kovero O. Craniofacial features in osteogenesis imperfecta: a cephalometric study. *Am J Med Genet A* 2005; 133:142-50.
68. Watt RG. Emerging theories into the social determinants of health: Implications for oral health promotion. *Community Dent Oral Epidemiol* 2002; 30:241-7.
69. Weyant RJ, Manz M, Corby P, Rustveld L, Close J. Factors associated with parents and adolescents perceptions of oral health and need for dental treatment. *Community Dent Oral Epidemiol* 2007; 35:321-30.
70. Wieczorek A, Loster J. Dentinogenesis imperfecta type II: ultrastructure of teeth in sagittal sections. *Folia Histochem Cytobiol.* 2013; 51:244-7.

71. World Health Organization-WHO. Oral health surveys: basics methods. 4 ed. World Health Organization: Geneva. 1997. 66p.

72. Zola MB. Staged sinus augmentation and implant placement in a patient with osteogenesis imperfecta. J Oral Maxillofac Surg 2000; 58:443-7.

APÊNDICES

APÊNDICE A

TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO

Prezada mãe / responsável,

Estou realizando uma pesquisa sobre a saúde bucal das crianças/adolescentes com Osteogênese Imperfeita e sem Osteogênese Imperfeita. O objetivo é aprimorar o conhecimento e as formas de prevenção e tratamento odontológico para as pessoas com Osteogênese Imperfeita e melhoria da sua qualidade de vida e de seus familiares. A pesquisa consiste em um exame clínico odontológico do seu filho e também do preenchimento de um questionário por você.

Esclareço que:

As informações sobre você e seu filho só interessam a você. Nos resultados da pesquisa ninguém saberá seu nome e o do seu filho.

Você pode se recusar a responder a qualquer pergunta caso lhe traga algum tipo de constrangimento.

Você pode, a qualquer momento, desistir de fazer parte dessa pesquisa.

Caso não queira participar da pesquisa, você ou seu filho não sofrerão nenhum tipo de prejuízo.

O exame dos dentes será realizado com um espelho clínico, sonda, gaze e algodão (todos esterilizados). A dentista usará luvas descartáveis, avental, gorro e máscara descartável. Este é um simples exame que não oferece riscos de nenhuma natureza para seu filho.

Caso seja constatada necessidade de tratamento odontológico, você será alertada e orientada sobre as providências a serem tomadas.

As informações coletadas são específicas para esta pesquisa, sendo que os resultados serão divulgados através de artigos científicos e apresentações orais e escritas em congressos de saúde.

Essa pesquisa está autorizada pelo Comitê de Ética em Pesquisa (COEP) da Universidade Federal de Minas Gerais.

Contando com sua participação, agradeço a colaboração.

Suélen Alves Teixeira (aluna de mestrado)

Eu, _____, após ler e entender o objetivo da pesquisa descrita, concordo em responder o questionário e autorizo a realização do exame dos dentes do meu filho.

Assinatura da mãe / responsável

Aluna de mestrado: Suélen Alves Teixeira (31- 9144-2572)

Orientadora: Profa. Dra. Ana Cristina Borges de Oliveira (Tel: 31-3409-2442/2448)

Comitê de Ética em Pesquisa da Universidade Federal de Minas Gerais

End.: Av. Antônio Carlos, 6.627 - Unidade Administrativa II - 2º andar - Sala 2005, Campus Pampulha, CEP: 31270-901 - Belo Horizonte - MG, telefax: 31-3409-4592

APÊNDICE B

DATA: _____

Nº _____

1ª PARTE - INFORMAÇÕES SOBRE A CRIANÇA / ADOLESCENTE

A) IDENTIFICAÇÃO

Nome da criança/adolescente: _____

Cidade onde a criança/adolescente vive: _____

Tipo de Osteogênese Imperfeita (prontuário): _____

Nome da mãe/responsável: _____ Tel: _____

1) A criança/adolescente é do sexo:

0 () masculino 1 () feminino

2) A cor da pele da criança/adolescente é:

0 () branca 1 () preta 2 () parda 3 () amarela 3 () indígena

3) Qual a idade da criança/adolescente? _____ anos.

0 () 03-06 anos 1 () 07-11 anos 2 () 12-14 anos 3 () 15-18 anos

4) Quem é o responsável pela criança/adolescente a maior parte do tempo?

0 () mãe 1 () pai 2 () avó 3 () outra pessoa _____

B) HÁBITOS COMPORTAMENTAIS E HISTÓRIA MÉDICA

5) Ele (a) teve dor de garganta nos últimos seis meses?

0 () sim 1 () não

6) Ele (a) teve dor de ouvido nos últimos seis meses?

0 () sim 1 () não

7) Ele (a) faz uso frequente de algum medicamento?

0 () sim 1 () não

Se sim, qual?

0 () Pamidronato 1 () outro: _____

8) Ele (a) foi (ou ainda é) amamentado no peito?

0 () sim 1 () não

Se sim, até que idade?

0 () ainda mama no peito 1 () < 6 meses 2 () 6-18 meses 3 () 19-24 meses 4 () mais de 24 meses

9) Ele (a) usou (ou ainda usa) mamadeira?

0 () sim 1 () não

Se sim, até que idade?

0 () ainda usa mamadeira 1 () até 12 meses 2 () 13-24 meses 3 () 25-36 meses 4 () mais de 36 meses

10) Ele (a) usou (ou ainda usa) chupeta?

0 () sim 1 () não

Se sim, até que idade?

0 () ainda usa chupeta 1 () até 12 meses 2 () 13-24 meses 3 () 25-36 meses 4 () mais de 36 meses

Se sim, em que momento? 0 () quando acordado 1 () quando dorme 2 () o tempo todo

11) Ele (a) chupa (ou chupou o dedo)?

0 () sim 1 () não

Se sim, até que idade?

0 () ainda chupa dedo 1 () até 12 meses 2 () 13-24 meses 3 () 25-36 meses 4 () mais de 36 meses

Se sim, em que momento? 0 () quando acordado 1 () quando dorme 2 () o tempo todo

12) Ele (a) tem o hábito de “ficar mordendo” algum dedo / roer unha?

0 () sim 1 () não

13) Ele (a) já foi submetido a alguma cirurgia?

0 () sim 1 () não

Se sim, qual? 0 () Ortopédica 1 () amígdala/adenóide 2 () Coração 3 () outra: _____

C) INFORMAÇÕES GERAIS

14) Ele (a) já foi ao dentista?

0 () sim 1 () não

a) Se sim, qual o motivo da 1ª consulta?

0 () prevenção 1 () dor de dente/cárie 2 () erupção dos dentes 3 () extração 4 () Outro: _____

b) Foi difícil encontrar um dentista para atendê-lo? 0 () sim 1 () não

Se sim, por quê?

0 () difícil conseguir vaga 1 () difícil encontrar um dentista que atenda paciente com osteogênese 2 () Outro _____

c) Você gostou do atendimento que ele (a) recebeu? 0 () Sim 1 () Não

Por quê?: _____

d) Ele (a) usa ou usou aparelho nos dentes? 0 () Sim 1 () Não

15) Você escova os dentes dele (a)?

0 () sim 1 () não

a) Se sim, quando? 0 () todos os dias 1 () de vez em quando

Se todos os dias, quantas vezes/dia? 0 () 3 ou + vezes 1 () 2 vezes 2 () 1 vez

16) Você já recebeu orientação de algum profissional que cuida (ou já cuidou) dele (a), para levá-lo ao dentista?

0 () sim 1 () não

a) Se sim, qual profissional? 0 () médico 1 () fonoaudiólogo 2 () professora 3 () outro: _____

b) Se sim, qual o motivo?

0 () prevenção 1 () dor de dente /cárie 2 () erupção dos dentes 3 () avaliação ortodôntica 4 () Outro _____

17) Como você considera a aparência dos dentes dele?

0 () péssima 1 () ruim 2 () boa 3 () excelente

Por quê? _____

D) CRITÉRIO DE CLASSIFICAÇÃO ECONÔMICA BRASIL

18) Até que série o chefe da casa da criança/adolescente estudou (ou estuda)?

- 0 () analfabeto / primário incompleto
- 1 () primário completo (4ª série) / ginásial incompleto
- 2 () ginásial completo (8ª série) / colegial incompleto
- 3 () colegial completo (2º grau) / superior incompleto
- 4 () superior completo

19) Na casa da criança/adolescente tem.....? Quantos (as)?

- | | |
|------------------------------------------------------|--------------------------------------------------------------------|
| 0 () TV em cores | 5 () aspirador de pó |
| 1 () rádio / aparelho de som (excluindo o do carro) | 6 () máquina de lavar roupa ou tanquinho |
| 2 () banheiro | 7 () DVD ou video-cassete |
| 3 () carro | 8 () geladeira |
| 4 () empregada doméstica mensalista | 9 () freezer (aparelho independente ou parte da geladeira duplex) |

2ª PARTE - INFORMAÇÕES SOBRE VOCÊ:

20) Qual a sua idade? _____ anos.

0 () até 25 anos 1 () 26-35 anos 2 () 36-45 anos 3 () 46 anos ou mais

21) Até que série você estudou (ou estuda)?

- 0 () analfabeto / primário incompleto
- 1 () primário completo (4ª série) / ginásial incompleto
- 2 () ginásial completo (8ª série) / colegial incompleto
- 3 () colegial completo (2º grau) / superior incompleto
- 4 () superior completo

22) Como você considera a aparência dos seus dentes?

0 () péssima 1 () ruim 2 () boa 3 () excelente

Por quê? _____

APÊNDICE C

DATA: _____

Nº _____

NOME DA CRIANÇA / ADOLESCENTE _____

FICHA DE AVALIAÇÃO CLÍNICA ODONTOLÓGICA

| | | |
|-----------------------------|-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|---------------|
| 1) Selamento labial | 0 () Presente | 1 () Ausente |
| 2) Respiração | 0 () Nasal | 1 () Bucal |
| 3) Dentinogênese Imperfeita | 0 () Presente 0 () decíduos 1 () permanentes Dente (s): _____ Coroa dentária: () com alteração: Forma: _____ () sem alteração | 1 () Ausente |

EXAME OCLUSAL

| | | | | | |
|-----------------------------------|------------------------------|------------------------------------|-----------------------------------|---------------|------------|
| 5) Apinhamento dentário | 0 () Presente dentes: _____ | 2 () Ausente | | | |
| 6) Overjet / trespasse horizontal | 0 () Normal | 1 () Aumentado / Protrusão | 2 () Mordida <u>CRUZADA</u> ant. | 3 () Ausente | |
| 7) Overbite / trespasse vertical | 0 () Normal | 1 () Aumentado -mordida profunda- | 2 () Mordida <u>ABERTA</u> ant. | 3 () Ausente | 4 () Topo |
| 8) Mordida cruzada posterior | 0 () Presente | __ Unilateral __ Bilateral | 1 () Ausente | | |

MÁ OCLUSÃO (Resultado final)

0 () Presente 1 () Ausente

ÍNDICE DE HIGIENE ORAL SIMPLIFICADO (IHOS)

| Presença de placa / cálculo dental | | | | | |
|------------------------------------|--------|---------|--------------------|--------|---------|
| Superfície vestibular | Código | | Superfície lingual | Código | |
| | Placa | Cálculo | | Placa | Cálculo |
| Dente 11 / 51 | | | Dente 36 / 75 | | |
| Dente 31/ 71 | | | | | |
| Dente 16 / 55 | | | Dente 46 / 85 | | |
| Dente 26 / 65 | | | | | |

TOTAL 1 (T1): _____

TOTAL 2 (T2): _____

RESULTADO FINAL (T1 + T2): _____

(soma dos códigos de cada dente dividida pelo total de dentes examinados)

0() 0 a 1 / Satisfatória

2() 2,1 a 3 / Deficiente

1() 1,1 a 2 / Regular

3() a partir de 3,1 / Muito ruim

Critérios diagnósticos e códigos usados no ÍHOS.

| Critérios para placa | Código | Critérios para cálculo dental | Código |
|----------------------------------------|--------|----------------------------------------|--------|
| Inexistência de placa | 0 | Inexistência de cálculo | 0 |
| Pouca placa (< de 1/3) | 1 | Pouco cálculo (< de 1/3) | 1 |
| Placa cobrindo + que 1/3 e - de 2/3 | 2 | Cálculo cobrindo + de 1/3 e - de 2/3 | 2 |
| Placa cobrindo + de 2/3 | 3 | Cálculo cobrindo + de 2/3 | 3 |
| Dente índice e substituto inexistentes | X | Dente índice e substituto inexistentes | X |

Cárie dentária

| | | | | | | | | | | | | | |
|----|----|----|----|----|----|----|----|----|----|----|----|----|----|
| | 55 | 54 | 53 | 52 | 51 | | 61 | 62 | 63 | 64 | 65 | | |
| 17 | 16 | 15 | 14 | 13 | 12 | 11 | 21 | 22 | 23 | 24 | 25 | 26 | 27 |
| 47 | 46 | 45 | 44 | 43 | 42 | 41 | 31 | 32 | 33 | 34 | 35 | 36 | 37 |
| | 85 | 84 | 83 | 82 | 81 | | 71 | 72 | 73 | 74 | 75 | | |

HÍGIDO (H) _____

EXTRAÍDO (E) _____

CÁRIE cavitada (C) _____

RESTO radicular (Rr) _____

RESTAURADO (R) _____

RESTAURAÇÃO ausente (Ra) _____

AUSENTE (A) _____

CÁRIE DENTÁRIA (Resultado final)

0 () Presente

1 () Ausente

ANEXOS

ANEXO A

UNIVERSIDADE FEDERAL DE
MINAS GERAIS



PROJETO DE PESQUISA

Título: INVESTIGAÇÃO DE OSTEOGENESIS IMPERFECTA PELA ANÁLISE DOS GENES CONHECIDOS E NOVOS GENES CANDIDATOS EM PACIENTES BRASILEIROS E

Área Temática:

Área 1. Genética Humana.

Versão: 2

CAAE: 03027612.7.0000.5149

Pesquisador: Eugênia Ribeiro Valadares

Instituição: Hospital das Clínicas - Universidade Federal de Minas Gerais

PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

Número do Parecer: 83387

Data da Relatoria: 01/08/2012

Apresentação do Projeto:

A documentação apresentada consta do Relatório de Pesquisa, Parecer Consubstanciado da Câmara Departamental, Registro na DEPE-HC-UFMG e TCLEs para as diversas faixas etárias.

A presente pesquisa visa identificar as mutações causadoras de OI nas populações alemã e brasileira, descobrir novos genes causadores de OI por sequenciamento do exoma, e estabelecer correlação genótipo-fenótipo. Além da contribuição científica para elucidar este complexo grupo de doenças, o conhecimento das bases moleculares e a correlação genótipo-fenótipo trarão benefícios para a abordagem individual de cada paciente e

para o aconselhamento genético. A Osteogenesis Imperfecta (OI), também conhecida com doença dos ossos de vidro, é um grupo de doenças clinicamente e geneticamente heterogêneo, caracterizado por suscetibilidade a fraturas ósseas com gravidade variável e defeitos presumidos ou comprovados na biossíntese de colágeno tipo I. Outras manifestações são

dentinogênese imperfeita, escleras azuis, baixa estatura, e perda auditiva. A maioria dos casos de OI é causada por mutação genética em genes de colágeno I, COL1A1 e COL1A2. Outros genes relacionados à modificação pós-traducional de moléculas de colágeno de tipo I, tais como CRTAP, LEPRE1, PPIB, SERPINH1, FKBP10, SERPINF1 e SP7 têm sido relacionados a OI. A complexidade genética das bases moleculares das OI tem sido revelada nos últimos anos, e ao mesmo tempo extensa variabilidade fenotípica resultante de loci individuais tem

sido documentada. A recomendação do Grupo de Nomenclatura da Sociedade Internacional de Displasias Esqueléticas em publicação de 2011 é manter a classificação de Silence como a forma prototípica e universalmente aceita para classificar o grau de gravidade na OI, e libertá-la de referência molecular direta.

Objetivo da Pesquisa:

Objetivo Primário:

Identificar as mutações de um grupo heterogêneo de brasileiros e alemães com OI de causa genética não esclarecida.

Objetivo Secundário:

Identificar novos genes candidatos para OI. Estabelecer correlações genótipo-fenótipo. Melhorar o aconselhamento genético familiar. Propiciar subsídios para cuidados médicos e terapêutica baseados em medicina personalizada.

Avaliação dos Riscos e Benefícios:

Riscos:

A pesquisa não oferece risco algum aos participantes, somente o desconforto da picada da agulha durante a coleta de sangue.

Benefícios:

Endereço: Av. Presidente Antônio Carlos, 8627 2º Ad 91 2005

Bairro: Unidade Administrativa II CEP: 31.270-901

UF: MG Município: BELO HORIZONTE

Telefone: 3134-0945

Fax: 3134-0945

E-mail: coep@prpq.ufmg.br; coep@reitoria.ufmg.br

Saber qual a mutação causadora da Osteogênese Imperfeta.

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa:

1. Pacientes: Pacientes brasileiros e alemães com OI de causa genética não identificada. 2. Coleta de dados clínicos: avaliações médica e odontológica e revisão de prontuários dos pacientes nas instituições de origem. 3. Análises moleculares: Cerca de 90% dos indivíduos com OI são heterozigotos para mutações causadoras em COL1A1 e COL1A2. A maioria do restante de indivíduos afetados têm mutações recessivas em genes como CRTAP, FKBP10, LEPRE1, PLOD2, PPIB, SERPINF1, SERPINH1 e SP7, ou em outros genes ainda desconhecidos. O material para o teste será DNA genômico a partir de 5 ml de sangue venoso.

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória:

não há novas considerações. projeto aprovado.

Recomendações:

A pesquisadora respondeu as diligências conforme solicitadas. Projeto aprovado.

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações:

Trata-se de um projeto de pesquisa da Profa Eugênia Ribeiro Valadares a ser conduzido na Universidade de Freiburg, Alemanha.

Atendidas as recomendações projeto aprovado.

Situação do Parecer:

Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:

Não

Considerações Finais a critério do CEP:

Aprovado conforme parecer.

BELO HORIZONTE, 28 de Agosto de 2012

Assinado por:
Maria Teresa Marques Amaral

ANEXO B

DATA: _____

Nº _____

NOME DA CRIANÇA/ADOLESCENTE _____

SENSO DE COERENCIA MATERNA

INSTRUÇÕES PARA AS PERGUNTAS:

Aqui estão 13 perguntas sobre vários aspectos da sua vida.

Cada pergunta tem 5 respostas possíveis.

Marque com um X a opção que melhor expresse a sua maneira de pensar e sentir em relação ao que está sendo falado.

Dê apenas **uma única resposta** em cada pergunta, por favor.

| | Um enorme sofrimento e aborrecimento | Um sofrimento e aborrecimento | Nem aborrecimento nem satisfação | Um prazer e satisfação | Um enorme prazer e satisfação |
|--------------------------------------------------------------------------------------|--------------------------------------|-------------------------------|----------------------------------|------------------------|-------------------------------|
| 1- Aquilo que você faz diariamente é: | | | | | |
| | | | | | |
| | Sem nenhum Objetivo | Com poucos Objetivos | Com alguns Objetivos | Com muitos objetivos | Repleta de objetivos |
| 2- Até hoje a sua vida tem sido: | | | | | |
| | | | | | |
| | Nunca | Poucas Vezes | Algumas Vezes | Muitas vezes | Sempre |
| 3- Você tem interesse pelo que se passa ao seu redor? | | | | | |
| | | | | | |
| 4- Você acha que você é tratada com injustiça? | | | | | |
| | | | | | |
| 5- Você tem ideias e sentimentos confusos? | | | | | |
| | | | | | |
| 6- Você acha que as coisas que você faz na sua vida têm pouco sentido? | | | | | |
| | | | | | |
| 7- Já lhe aconteceu ter ficado desapontada com pessoas em quem você confiava? | | | | | |
| | | | | | |
| | Nunca | Poucas Vezes | Algumas Vezes | Muitas vezes | Sempre |
| 8- Você tem sentimentos que gostaria de não ter? | | | | | |
| | | | | | |

| | | | | | |
|--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|--------------------------|--------|--------------------------|---------|---------------------------|
| 9- Você tem dúvida se pode controlar seus sentimentos? | | | | | |
| 10- Já lhe aconteceu de ficar surpreendida com o comportamento de pessoas que você achava que conhecia bem? | | | | | |
| 11- Em algumas situações, as pessoas sentem-se fracassadas. Você já se sentiu fracassada? | | | | | |
| 12- Você sente que está numa situação pouco comum, e sem saber o que fazer? | | | | | |
| | Totalmente Errada | Errada | Nem correta e Nem errada | Correta | Totalmente correta |
| 13- Às vezes acontecem coisas na vida da gente que depois achamos que não demos a devida importância. Quando alguma coisa acontece na sua vida, você acaba achando que deu a importância: | | | | | |

Obrigada por sua colaboração. Ela foi muito importante!

ANEXO C

Normas para publicação do periódico *Community Dentistry and Oral Epidemiology*

Author Guidelines

1. GENERAL

The aim of *Community Dentistry and Oral Epidemiology* is to serve as a forum for scientifically based information in community dentistry, with the intention of continually expanding the knowledge base in the field. The scope is therefore broad, ranging from original studies in epidemiology, behavioral sciences related to dentistry, and health services research through to methodological reports in program planning, implementation and evaluation. Reports dealing with people of all age groups are welcome.

The journal encourages manuscripts which present methodologically detailed scientific research findings from original data collection or analysis of existing databases. Preference is given to new findings. Confirmation of previous findings can be of value, but the journal seeks to avoid needless repetition. It also encourages thoughtful, provocative commentaries on subjects ranging from research methods to public policies. Purely descriptive reports are not encouraged, nor are behavioral science reports with only marginal application to dentistry.

Knowledge in any field only advances when research results and policies are held up to critical scrutiny. To be consistent with that view, the journal encourages scientific debate on a wide range of subjects. Responses to research results and views expressed in the journal are always welcome, whether in the form of a manuscript or a commentary. Prompt publication will be sought for these submissions. Book reviews and short reports from international conferences are also welcome, and publication of conference proceedings can be arranged with the publisher.

Please read the instructions below carefully for details on the submission of manuscripts, the journal's requirements and standards as well as information concerning the procedure after acceptance of a manuscript for publication in *Community Dentistry and Oral Epidemiology*. Authors are encouraged to visit [Wiley Blackwell Author Services](#) for further information on the preparation and submission of articles and figures.

4. MANUSCRIPT FORMAT AND STRUCTURE

4.1. Page Charge

Articles exceeding 7 published pages are subject to a charge of USD 300 per additional page. One published page amounts approximately to 5,500 characters (including spaces) of text but does not include figures and tables.

4.2. Format

Language: All submissions must be in English; both British and American spelling conventions are acceptable. Authors for whom English is a second language must have their manuscript professionally edited by an English speaking person before submission to make sure the English is of high quality. It is preferred that manuscript is professionally edited. A list of independent suppliers of editing services can be found at http://authorservices.wiley.com/bauthor/english_language.asp. All services are paid for and arranged by the author, and use of one of these services does not guarantee acceptance or preference for publication.

Font: All submissions must be double spaced using standard 12 point font size.

Abbreviations, Symbols and Nomenclature: Authors can consult the following source: CBE Style Manual Committee. Scientific style and format: the CBE manual for authors, editors, and publishers. 6th ed. Cambridge: Cambridge University Press, 1994

4.3. Structure

All manuscripts submitted to *Community Dentistry and Oral Epidemiology* should follow the guidelines regarding structure as below.

Title Page: should include a title of no more than 50 words, a running head of no more than 50 characters and the names and institutional affiliations of all authors of the manuscript should be included.

Abstract: All manuscripts submitted to *Community Dentistry and Oral Epidemiology* should use a structured abstract under the headings: Objectives – Methods – Results – Conclusions.

Main Text of Original Articles should include Introduction, Materials and Methods and Discussion.

Introduction: should be focused, outlining the historical or logical origins of the study and not summarize the results; exhaustive literature reviews are not appropriate. It should close with the explicit statement of the specific aims of the investigation.

Materials and Methods must contain sufficient detail such that, in combination with the references cited, all studies reported can be fully reproduced. As a condition of publication, authors are required to make materials and methods used freely available to academic researchers for their own use.

Discussion: may usually start with a brief summary of the major findings, but repetition of parts of the abstract or of the results sections should be avoided. The section should end with a brief conclusion and a comment on the potential clinical program or policy relevance of the findings. Statements and interpretation of the data should be appropriately supported by original references.

4.4. References

Authors are required to cite all necessary references for the background to their research, methodology they adopted and issues discussed. Primary sources should be cited. Relevant references published in CDOE are expected to be among the cited literature.

The list of references begins on a fresh page in the manuscript, using the Vancouver format. References should be numbered consecutively in the order in which they are first mentioned in the text. Identified references in the text should be sequentially numbered by Arabic numerals in parentheses, e.g., (1,3,9). Superscript in-text references are not acceptable in CDOE. For correct style, authors are referred to: International Committee of Medical Journal Editors. Uniform requirements for manuscripts submitted to biomedical journals: writing and editing for biomedical publication. <http://www.icmje.org> October 2004. For abbreviations of journal names, consult

<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/nlmcatalog/journals>.

Avoid reference to 'unpublished observations', and manuscripts not yet accepted for publication. References to abstracts should be avoided if possible; such references are appropriate only if they are recent enough that time has not permitted full publication. References to written personal communications (not oral) may be inserted in parentheses in the text.

We recommend the use of a tool such as Reference Manager for reference management and formatting. Reference Manager reference styles can be searched for here: www.refman.com/support/rmstyles.asp

Examples of the Vancouver reference style are given below:

Journals

Standard journal article

(List all authors when six or fewer. When seven or more, list first six and add et al.)

Widström E, Linna M, Niskanen T. Productive efficiency and its determinants in the Finnish Public Dental Service. *Community Dent Oral Epidemiol* 2004;32:31-40.

Corporate author

WHO Collaborating Centre for Oral Precancerous Lesions. Definition of leukoplakia and related lesions: an aid to studies on oral precancer. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1978;46:518-39.

Books and other monographs

Personal author(s)

Fejerskov O, Baelum V, Manji F, Møller IJ. Dental fluorosis; a handbook for health workers. Copenhagen: Munksgaard, 1988:41-3.

Chapter in a book

Fomon SJ, Ekstrand J. Fluoride intake. In: Fejerskov O, Ekstrand J, Burt BA, editors: Fluoride in dentistry, 2nd edition. Copenhagen: Munksgaard, 1996; 40-52.

4.5. Tables, Figures and Figure Legends

Tables are part of the text and should be included, one per page, after the References. All graphs, drawings, and photographs are considered figures and should be sequentially numbered with Arabic numerals. Each figure must be on a separate page and each must have a caption. All captions, with necessary references, should be typed together on a separate page and numbered clearly (Fig.1, Fig. 2, etc.).

Preparation of Electronic Figures for Publication

Although low quality images are adequate for review purposes, print publication requires high quality images to prevent the final product being blurred or fuzzy. Submit EPS (lineart) or TIFF (halftone/photographs) files only. MS PowerPoint and Word Graphics are unsuitable for printed pictures. Do not use pixel-oriented programmes. Scans (TIFF only) should have a resolution of 300 dpi (halftone) or 600 to 1200 dpi (line drawings) in relation to the reproduction size (see below). Please submit the data for figures in black and white or submit a colour work agreement form. EPS files should be saved with fonts embedded (and with a TIFF preview if possible).

For scanned images, the scanning resolution (at final image size) should be as follows to ensure good reproduction: line art: >600 dpi; half-tones (including gel photographs): >300 dpi; figures containing both halftone and line images: >600 dpi.

Further information can be obtained at Wiley Blackwell's guidelines for figures: <http://authorservices.wiley.com/bauthor/illustration.asp>.

Check your electronic artwork before submitting it:

<http://authorservices.wiley.com/bauthor/eachecklist.asp>

Permissions: If all or parts of previously published illustrations are used, permission must be obtained from the copyright holder concerned. It is the author's responsibility to obtain these in writing and provide copies to the Publishers.

Colour Charges: It is the policy of *Community Dentistry and Oral Epidemiology* for authors to pay the full cost for the reproduction of their colour artwork, if required. Therefore, please note that if there is colour artwork in your manuscript when it is accepted for publication, Wiley Blackwell require you to complete and return a Colour Work Agreement Form before your manuscript can be published. Any article received by Wiley Blackwell with colour work will not be published until the form has been returned. If you are unable to access the internet, or are unable to download the form, please contact the Production Editor Eunice Chow, cdoe@wiley.com. Please send the completed Colour Work Agreement to:

Customer Services (OPI)

John Wiley & Sons Ltd, European Distribution Centre, New Era Estate, Oldlands Way

Bognor Regis, West Sussex, PO22 9NQ

In the event that an author is not able to cover the costs of reproducing colour figures in colour in the printed version of the journal, *Community Dentistry and Oral Epidemiology* offers authors the opportunity to reproduce colour figures in colour for free in the online version of the article (but they will still appear in black and white in the print version). If an author wishes to take advantage of this free colour-on-the-web service, they should liaise with the Editorial Office to ensure that the appropriate documentation is completed for the Publisher.

Figure Legends: All captions, with necessary references, should be typed together on a separate page and numbered clearly (Fig.1, Fig. 2, etc.).

Special issues: Larger papers, monographs, and conference proceedings may be published as special issues of the journal. Full cost of these extra issues must be paid by the authors. Further information can be obtained from the editor or publisher.

5. AFTER ACCEPTANCE

Upon acceptance of a manuscript for publication, the manuscript will be forwarded to the Production Editor who is responsible for the production of the journal.

5.1 Proof Corrections

The corresponding author will receive an email alert containing a link to a web site. A working email address must therefore be provided for the corresponding author. The proof can be downloaded as a PDF (portable document format) file from this site.

Acrobat Reader will be required in order to read this file. This software can be downloaded (free of charge) from the following Web site:

www.adobe.com/products/acrobat/readstep2.html. This will enable the file to be opened, read on screen, and printed out in order for any corrections to be added. Further instructions will be sent with the proof. Hard copy proofs will be posted if no e-mail address is available; in your absence, please arrange for a colleague to access your e-mail to retrieve the proofs. Proofs must be returned within three days of receipt.

As changes to proofs are costly, we ask that you only correct typesetting errors. Excessive changes made by the author in the proofs, excluding typesetting errors, will be charged separately. Other than in exceptional circumstances, all illustrations are retained by the publisher. Please note that the author is responsible for all statements made in his work, including changes made by the copy editor.

5.2 Early View (Publication Prior to Print)

Community Dentistry and Oral Epidemiology is covered by Wiley Blackwell's Early View service. Early View articles are complete full-text articles published online in advance of their publication in a printed issue. They have been fully reviewed, revised and edited for publication, and the authors' final corrections have been incorporated. Because they are in final form, no changes can be made after online publication. The nature of Early

View articles means that they do not yet have volume, issue or page numbers, so Early View articles cannot be cited in the traditional way. They are therefore given a Digital Object Identifier (DOI), which allows the article to be cited and tracked before it is allocated to an issue. After print publication, the DOI remains valid and can continue to be used to cite and access the article.

5.3 Author Services

Online production tracking is available for your article through Wiley Blackwell's Author Services. Please see: <http://authorservices.wiley.com/bauthor/>

Paul Riordan's language correction service:

Write2Publish

email: w2p@orange.fr

Phone: +33 4 73 78 32 97

ANEXO D

Confirmação de submissão do artigo “*Sense of coherence between mothers of children/adolescents with and without Osteogenesis Imperfecta and associated oral characteristics*” ao periódico *Community Dentistry and Oral Epidemiology*

Submission Confirmation

Thank you for submitting your manuscript to *Community Dentistry and Oral Epidemiology*.

| | |
|-----------------|-----------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------|
| Manuscript ID: | CDOE-14-171 |
| Title: | Sense of Coherence between mothers of children/adolescents with and without Osteogenesis Imperfecta and associated oral characteristics |
| Authors: | Teixeira, Suélen Santos, Paula Carneiro, Túlio Valadares, Eugênia Oliveira, Ana Cristina |
| Date Submitted: | 02-May-2014 |

 Print  Return to Dashboard

ScholarOne Manuscripts™ v4.14.1 (patent #7,257,767 and #7,263,655). © ScholarOne, Inc., 2014. All Rights Reserved.
ScholarOne Manuscripts is a trademark of ScholarOne, Inc. ScholarOne is a registered trademark of ScholarOne, Inc.

 Follow ScholarOne on Twitter

[Terms and Conditions of Use](#) - [ScholarOne Privacy Policy](#) - [Get Help Now](#)