

Características do sistema estomatognático na esclerose sistêmica: relato de caso

Stomatognathic system characteristics in systemic sclerosis: a case report

Características del sistema estomatognático en la esclerosis sistémica: reporte de un caso

Sílvia Elaine Zuim de Moraes Baldrighi*

Anny Karoline Andrade Silva*

Luiz Barros Filho*

Leylane Fonseca Almeida*

José Caetano Macieira*

Gerlane Karla Bezerra Oliveira Nascimento*

Carla Patrícia Hernandez Alves Ribeiro César*

Resumo

A Esclerose sistêmica é uma afecção rara de etiologia e patogênese desconhecida, caracterizada por um processo autoimune. Frequentemente atinge o sistema estomatognático. **Objetivo:** Comparar avaliação clínica e eletromiográfica de um sujeito com esclerose sistêmica (S1) e outro sem doença reumática (S2). **Método:** Estudo exploratório clínico, descritivo, composto por dois sujeitos de 26 anos de idade, do gênero feminino. A avaliação clínica foi realizada nos Laboratórios de Motricidade Orofacial e de Fisiologia da Universidade Federal de Sergipe. Utilizou-se parcialmente o Protocolo MBGR. O registro da atividade elétrica nas hemifaces por meio da eletromiografia de superfície, com enfoque na mastigação, foi realizado em repouso e na máxima intercuspidação. **Resultados:** A avaliação clínica

*Universidade Federal de Sergipe – UFS – Aracaju –SE – Brasil.

Contribuição dos autores: SEZMB concepção e o desenho do trabalho científico, levantamento da literatura, participação da redação, revisão crítica do trabalho e aprovação final do conteúdo a ser publicado. AKAS e LBF coleta de dados, concepção e o desenho do trabalho científico, levantamento da literatura, redação, revisão crítica e aprovação final do conteúdo a ser publicado. CPHARC, GKBN e LFA revisão crítica do trabalho e aprovação final do conteúdo a ser publicado. JCM concepção e realização da pesquisa e revisão crítica, aprovação final do conteúdo a ser publicado.

Parte deste estudo foi apresentada no IX Encontro Brasileiro de Motricidade Orofacial (em forma de banner) em junho de 2016, na cidade de Bauru/SP.

E-mail para correspondência: Sílvia Elaine Zuim de Moraes Baldrighi - silviazbaldrighi@uol.com.br

Recebido: 08/10/2016

Aprovado: 04/12/2016

revelou restrição na abertura de boca do sujeito com doença reumática de S1 (24,5mm) comparada com 49,0mm de S2. Observou-se postura habitual de lábios entreabertos, palato ósseo com profundidade aumentada, largura reduzida e ausências dentárias. Alteração na mobilidade e tonicidade dos órgãos fonoarticulatórios. O padrão mastigatório foi unilateral, velocidade diminuída e contração atípica de mental. Deglutição com acentuada contração de mental e presença de resíduos após a deglutição em S1. Essas alterações não foram observadas em S2. Quanto ao registro eletromiográfico evidenciou-se em S1 maior atividade elétrica para realizar a mastigação, quando comparado com S2. **Conclusão:** Evidenciaram-se alterações significativas na avaliação clínica e na atividade elétrica da mastigação relacionadas ao sistema estomatognático no sujeito com esclerose sistêmica.

Palavras-chave: Fonoaudiologia; Reumatologia; Diagnóstico clínico; Mastigação

Abstract

Systemic sclerosis is a rare disease of unknown etiology and pathogenesis, characterized by an autoimmune process. It often affects the stomatognathic system. **Objective:** To compare clinical and electromyographic evaluation of a subject with systemic sclerosis (S1) and one without rheumatic disease (S2). **Methods:** Clinical, descriptive exploratory study consisted of two female subjects with 26 years old. The clinical evaluation was performed in the Orofacial Motricity and Physiology Laboratory of the Federal University of Sergipe. We partially used the MBGR protocol. The recording of the electrical activity in the hemifaces by surface electromyography, focusing on chewing, was performed at rest and at maximum intercuspation. **Results:** The clinical evaluation showed restraint in the subject's mouth opening with S1 rheumatic disease (24,5mm) compared to 49,0mm in S2. It was observed a normal posture of parted lips, bony palate with increased depth, reduced width and dental absence. Change in mobility and tone of the speech organs. The masticatory pattern was unilateral, with decreased speed and atypical contraction of the mental. Swallowing with sharp contraction of the mental and the presence of residue after swallowing in S1. These changes were not observed in S2. Regarding the electromyographic register, S1 showed a higher electrical activity to accomplish chewing when compared to S2. **Conclusion:** Significant alterations in the clinical evaluation and electric chewing activity related to the stomatognathic system in the subject with systemic sclerosis.

Keywords: Speech, Language and Hearing Sciences; Rheumatology; Clinical diagnosis; Chewing.

Resumen

Esclerosis sistêmica es una enfermedad rara de etiología y patogénesis desconocida, caracterizada por proceso autoinmune. Con frecuencia afecta el sistema estomatognático. **Objetivo:** Comparar evaluación clínica y electromiográfica de un sujeto con esclerosis sistêmica (S1) y uno sin enfermedad reumática (S2). **Metodo:** Estudio de exploración clínica, descriptivo, compuesto por dos sujetos de 26 años de edad, sexo femenino. La evaluación clínica se realizó en el Laboratorio de Motricidad Orofacial y Fisiología de la Universidad Federal de Sergipe. Utilizó parcialmente protocolo MBGR. El registro de la actividad eléctrica en hemifaces por electromiografía de superficie, centrándose en la masticación, se realizó en reposo y con la máxima intercuspidad. **Resultados:** Mostró moderación en la apertura de la boca del sujeto con enfermedad reumática S1 (24,5mm) en comparación con 49,0mm de S2. Se observó postura normal de labios entreabiertos, paladar óseo con un aumento de la profundidad, reducción de anchura y ausencia dental. Cambio en la movilidad y el tono de los órganos del habla. El estándar masticatorio era unilateral, disminución de la velocidad y contracción atípico de mental. La ingestión con fuerte contracción mental y la presencia de residuo después de tragar en S1. Estos cambios no se observaron en S2. En cuanto el registro electromiográfico S1 mostró una mayor actividad eléctrica para llevar a cabo la masticación, en comparación con S2. **Conclusion:** Se presentaron cambios significativos en la evaluación clínica y la actividad eléctrica de masticar relacionada con el sistema estomatognático en el sujeto con esclerosis sistêmica.

Palabras clave: Fonoaudiología; Reumatología; Diagnóstico clínico; Masticación

Introdução

A esclerose sistêmica (ES) é uma doença multissistêmica crônica que faz parte do grupo de distúrbios autoimunes sistêmicos, progressiva e de etiologia desconhecida^{1,2}, rara, com incidência de dois a dez novos casos para cada milhão de habitantes/ano². Caracteriza-se pela excessiva deposição de colágeno no tecido conjuntivo, além de espessamento da pele e comprometimento precoce dos órgãos internos^{2,3}. Atinge geralmente mulheres, em uma proporção de 3:1 em comparação aos homens. Inicia-se geralmente entre a terceira e quinta década de vida e a idade média, por ocasião do diagnóstico, é em geral aos 50 anos².

Quanto aos impactos relacionados ao sistema estomatognático (SE), as pesquisas são escassas na literatura, porém alguns estudiosos revelaram alterações que envolvem a motricidade orofacial, como a restrição na abertura de boca^{3,4,5,6}, face com aparência de máscara⁷, hipertonia dos órgãos fonarticulatórios, posição habitual dos lábios alterada, mastigação ineficiente e transtorno da deglutição^{8,9}.

Os estudos em motricidade orofacial tem preconizado a avaliação clínica, sendo importante a introdução de avaliação objetiva, com o uso da eletromiografia de superfície (EMGS). EMGS é um método não invasivo e de fácil execução. Atualmente, profissionais de várias áreas da saúde utilizam esse recurso no diagnóstico e orientação das condutas terapêuticas. Com relação ao funcionamento do sistema estomatognático, o uso da EMGS tem como um dos objetivos auxiliar no diagnóstico clínico¹⁰ e, quando associada aos outros métodos clínicos, permite melhor compreensão da participação dos músculos mandibulares, contribuindo para o tratamento deste sistema^{11,12,13}.

Em função da escassez de dados sobre o trabalho da Fonoaudiologia na área da motricidade orofacial em casos de ES, e da inquietação em aprofundar o conhecimento sobre essa afecção, o objetivo deste estudo foi comparar a avaliação clínica e a atividade elétrica durante a mastigação entre um caso com ES e outro sem doença reumática.

Método

Trata-se de um estudo exploratório clínico, descritivo, em consonância e cumprindo os preceitos éticos de autonomia, não maleficência,

beneficência e justiça da resolução 466/12 do Conselho Nacional de Saúde. Aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Universidade Federal de Sergipe (UFS) sob o número CAAE 36835814.1.0000.5546. Foi realizado no Grupo de Estudo de Motricidade Orofacial (GEMO) e no Laboratório de Fisiologia da UFS em parceria com o ambulatório de Reumatologia do Hospital Universitário (HU) da UFS.

Durante a coleta de dados os sujeitos que aceitaram participar deste estudo foram informados quanto aos procedimentos da pesquisa por meio da carta de informação e em seguida assinaram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido, bem como o Termo de Autorização de Uso da Imagem/Filmagem. As avaliações ocorreram em dias separados para cada sujeito no período de setembro a dezembro de 2015.

Participaram deste estudo dois indivíduos do sexo feminino, sendo um sujeito (S) - S1 de 26 anos (estudo), com diagnóstico médico prévio de esclerose sistêmica difusa (ESD) e S2, sujeito de 26 anos (controle), sem doença reumática.

Os critérios de inclusão para S1 foram diagnóstico confirmado por um médico reumatologista de ES, ser adulto e apresentar capacidade cognitiva que permitisse a participação do sujeito em todas as etapas do estudo. Para S2, em relação aos critérios de inclusão, ser adulto do sexo feminino, sem doença reumática e sem queixas de alterações relacionadas ao sistema estomatognático.

Quanto aos critérios de exclusão para ambos os sujeitos foram: estar realizando tratamento fonoaudiológico, restrição na dieta ao alimento selecionado para avaliação eletromiográfica, estar em uso de medicações que possam interferir no Sistema Nervoso Central e recusar-se a participar do estudo durante qualquer de suas etapas.

O processo de diagnóstico fonoaudiológico e eletromiográfico foi realizado em etapas distintas. Primeiramente, realizou-se a entrevista inicial previamente elaborada acerca dos registros pessoais, história pregressa da doença, medicamentos utilizados, comprometimentos do estado geral, queixas fonoaudiológicas e demais inferências sobre o sujeito (S1). E para o S2 realizou-se também uma entrevista inicial para verificar se o sujeito atendia aos critérios de inclusão/exclusão da pesquisa. O instrumento foi aplicado pelos examinadores (oralmente) e os dados registrados em folha própria. Alguns exames médicos anteriores e atuais foram

consultados para melhor compreensão do quadro clínico de S1.

Descrição de S1- sexo feminino, 26 anos, raça autodeclarada branca, natural da cidade de Maceió, AL, casada, sem filhos, estudante universitária, com diagnóstico de Esclerose Sistêmica (ES), negou antecedentes familiares.

Descrição de S2- sexo feminino, 26 anos, raça autodeclarada branca, natural do estado de Sergipe, solteira, sem diagnóstico de doença reumática.

No Quadro 1 estão dispostos os dados da história clínica do S1 até o momento de sua entrada no HU/UFS para avaliação clínica e no Quadro 2 as queixas clínicas e fonoaudiológicas trazidas por S1 no momento da anamnese:

Quadro 1. Caracterização de S1 (Sujeito 1) de acordo com o tempo, evolução da doença e início da intervenção fonoaudiológica

Sujeito	Gênero	Idade atual	Idade do início da doença	Tempo de evolução e o diagnóstico médico	Início da intervenção fonoaudiológica
S1	Feminino	26 anos	Entre 14 e 15 anos	Por volta de 02 anos	11 anos após o diagnóstico

Quadro 2. Manifestações clínicas e fonoaudiológicas relatada por S1 durante a anamnese queixas essas presentes no início dos sintomas

Sujeito	Manifestações clínicas	Sinais e sintomas fonoaudiológicos
S1	<ul style="list-style-type: none">• Pele espessa e endurecida• Enrijecimento das mãos, garras esclerodérmicas.• Manchas brancas nas mãos e cotovelos• Feridas na pele e nas pontas dos dedos• Emagrecimento• Rosto fino, principalmente lábios e nariz.	<ul style="list-style-type: none">• Engasgos frequentes (para todas as consistências)• Tosse• Cansaço respiratório• Dificuldade na abertura de boca

Após a entrevista inicial, iniciou-se a avaliação clínica fonoaudiológica voltada para os aspectos da motricidade orofacial constituída da observação e análise do sistema estomatognático.

Durante a avaliação clínica utilizou-se parcialmente o Protocolo MBGR¹⁴. Os resultados da avaliação de S1 e S2 procedentes do protocolo MBGR estão descritos de forma comparativa da seguinte forma: aspectos anatomofisiológicos e condição postura/posição no Quadro 3, mobilidade e tônus no Quadro 4 e funções orais no Quadro 5.

Cabe salientar que alguns itens do protocolo não foram aplicados, justificados pela adaptação dos componentes essenciais desse instrumento para ser utilizado na afecção pesquisada.

Os materiais utilizados durante a avaliação, tanto para o exame clínico, quanto para avaliação das funções orais, foram: luvas, espátulas e copos transparentes descartáveis, estetoscópio da marca Mikatos^R (adulto Ref.162), lanterna de foco, paquímetro digital da marca (6" Western^R PRO) com resolução e reprodutibilidade de 0,01 milímetros

(mm) (conforme especificações do fabricante). Para melhor observação das funções orais elas foram gravadas, utilizando-se a câmera Sony DSC-W730, e as amostras de vídeo foram analisadas posteriormente. Foram utilizadas as consistências líquida (água) e sólida (pão) para avaliação das funções orais da mastigação e deglutição, sendo realizada a ausculta cervical. Durante a avaliação da amplitude máxima da abertura de boca foi solicitado a cada participante que permanecesse

sentado, com os pés adequadamente apoiados no chão com a coluna ereta e a cabeça orientada com o plano de Frankfurt paralelo ao plano horizontal e o plano sagital mediano perpendicular ao plano horizontal. A seguir, procedeu-se com a paquimetria, solicitando-se abertura máxima de boca e, com auxílio do paquímetro digital foi tomada medida da distância entre as faces incisais do incisivo central superior e inferior direito, e o resultado foi transcrito em milímetros¹⁵.

Quadro 3. Aspecto e condição postural/posição dos órgãos fonoarticulatórios (OFAs) do Sujeito 1 (S1) comparado com o sujeito 2 (S2)

		S1	S2
Aspectos anatomofisiológicos e posturas	Posição habitual de lábios	Entreabertos	Fechados
	Mucosa da língua	Marcada por dentes nos lados D e E	Normal
	Palato duro	Profundidade aumentada e largura reduzida	Profundidade e largura normais
Dentes e oclusão	Falha dentária	Presente	Ausente
	Conservação dentária e gengival	Regular	Boa
	Placa bacteriana	Presentes	Ausente
	Oclusão	Alterada	Aparentemente Normal

Legenda: D = direito; E = esquerdo.

Quadro 4. Mobilidade e tônus dos órgãos fonoarticulatórios (OFAs) de S1 (Sujeito 1) comparado com S2 (Sujeito 2)

		S1	S2
Mobilidade de lábios	Estalar	Não realiza	Normal
	Protrair fechados	Não realiza	Normal
Mobilidade de língua	Protrair	Tentou realizar	Normal
	Estalar	Tentou realizar	Normal
Mobilidade de bochechas	Inflar o lado direito/esquerdo	Não realiza	Normal
Movimento mandibular	Abertura da boca	24,5 mm	49,0mm
Tônus	Lábio superior	Aumentado	Normal
	Lábio inferior	Aumentado	Normal
	Mento	Aumentado	Normal
	Língua	Aumentado	Normal
	Bochecha: direita e esquerda	Aumentado	Normal
Palpação	Dor à palpação	Ausente	Ausente

Legenda: mm= milímetros

Quadro 5. Resultados das funções orais de S1 (Sujeito 1) e S2 (Sujeito 2)

Funções Oraís		S1	S2
Respiração	Tipo	Médio/superior	Médio/superior
	Modo	Nasal	Nasal
Mastigação	Incisão	Anterior	Anterior
	Padrão mastigatório	Unilateral esquerdo	Bilateral alternado
	Fechamento labial	Assistemático	Sistemático
	Velocidade	Diminuída	Adequada
	Contrações Musculares atípicas	Mental	Ausente
Deglutição de sólido e líquido	Postura da língua	Não se vê	Não se vê
	Postura do lábio inferior	Contato com o superior (assistemática)	Contato com o superior
	Contração do mental	Acentuada	Ausente
	Coordenação	Adequada	Adequada
	Resíduos de alimentos sólidos após deglutir	Presente	Ausente
	Movimentos compensatórios	Anteriorização de cabeça	Ausente

Com relação à fala, não foi observado alteração na produção fonoarticulatória das participantes. Apenas S1 apresentou limitação dos movimentos mandibulares durante a fala, sem prejuízos quanto à inteligibilidade.

Após a avaliação clínica os sujeitos foram submetidos à avaliação eletromiográfica por meio do eletromiógrafo, que é um aparelho capaz de registrar os potenciais de ação que ocorrem por meio da ativação voluntária do músculo ou da resposta à estimulação elétrica. Na Fonoaudiologia a utilização da EMGS é recente, tem como objetivo auxiliar no diagnóstico e terapêutica dos distúrbios motores orais, nas alterações da deglutição, mastigação e fala¹⁶.

O aparelho utilizado foi o *biofeedback*, marca J&J Engineering de especificação I-330-C2+ Hardware Guide, com quatro canais, que faz a avaliação de alguns parâmetros como frequência cardíaca, temperatura e avalia também a eletromiografia de qualquer músculo, sendo que neste estudo, optou-se pela avaliação do músculo masseter. Para tanto, utilizou-se o eletrodo 2223BRQ/3M^R para procedimentos de curta ou longa duração. Segundo o fabricante este traz a acessibilidade desejada para excelentes performances de adesividade e integridade na pele do paciente.

A atividade elétrica foi registrada individualmente, com os sujeitos sentados em uma cadeira com as costas apoiadas no encosto, olhos abertos, pés paralelos e apoiados no chão, e braços apoiados sobre os membros inferiores. Em seguida, foi realizada a limpeza da pele para colocação dos eletrodos com algodão embebido em álcool 70°, para melhorar a condução dos potenciais de ação e diminuir a impedância do sistema, e só então os eletrodos foram colocados na pele que recobre os músculos masseteres¹⁶.

Os eletrodos foram aplicados no momento da palpação, após perceber maior contração muscular (ponto ideal para colocação do eletrodo), uma vez que nesse ponto o local da junção neuromuscular é a melhor área de captação dos impulsos nervosos do músculo durante a máxima intercuspidação¹⁷. A colocação dos eletrodos seguiu a direção longitudinal dos feixes musculares; para evitar possíveis interferências da musculatura, estes foram fixados bilateralmente, no ponto de maior contração muscular, e dispostos de modo longitudinal às fibras musculares. Após essa etapa, também foi colocado o eletrodo de referência, ou terra, para evitar interferências na captação do sinal^{16,17}.

A análise da atividade elétrica foi realizada nas hemifaces esquerda e direita durante o repouso (dez segundos), na máxima intercuspidação habitual

(três segundos) e na mastigação do alimento (sendo realizada a gravação do tempo necessário para a mastigação de todo o alimento)¹⁷. Esses registros podem ser visualizados no Quadro 6 - registro do sinal elétrico bruto resultando em microvolts (μV) valor positivado Root Mean Square (RMS) e no Quadro 7- observa-se a análise após normalização do sinal.

Alguns alimentos podem ser utilizados para a avaliação da atividade elétrica; dentre eles, um pão

francês de 25g, um quarto de maçã, um biscoito tipo recheado ou uma colher de chá de amendoim torrado descascado¹⁷. Para o presente estudo optou-se pela utilização do pão francês, em função de ser um alimento com maior consumo na população em geral, sendo dessa forma de mais fácil aceitação. A quantidade de pão francês utilizada nesta pesquisa foi de 25g¹⁷. Além de três uvas-passas que foram mastigadas de uma só vez, como proposto pela literatura¹⁶.

Quadro 6. Valores obtidos a partir do registro bruto do sinal elétrico, medido em microvolts (μV), de S1 (Sujeito 1) e S2 (Sujeito 2) com uva passa e pão

	Lado	Alimento	Masseter	Apertamento 1	Apertamento 2	Apertamento 3	Mastigação
S1	Esquerdo	Uva-passa	24,63993263	56,77857208	59,75972748	60,80763245	29,62975502
	Direito	Uva-passa	9,997159958	38,36635971	34,03851318	35,76332474	14,85827351
	Esquerdo	Pão	24,51255989	61,79139328	62,66057968	50,84383392	31,57767105
	Direito	Pão	9,490726471	33,25403595	35,4628334	34,69395065	13,96433353
S2	Esquerdo	Uva-passa	1,392133713	101,5520859	104,5873566	90,56510162	9,637273788
	Direito	Uva-passa	1,483022094	138,4146271	143,0903778	134,9872131	12,30749702
	Esquerdo	Pão	1,60427928	115,2615433	113,2061234	88,80243683	14,36058235
	Direito	Pão	1,521294	130,8016	133,097	173,0283	19,3931

Para a normalização do sinal eletromiográfico foi realizado o cálculo RMS, feito pela quadratura de cada ponto de dados, soma dos quadrados, dividindo a soma pelo número de observações, e tomando a raiz quadrada. Esta técnica é utilizada

para a retificação do RAW, em que todos os números serão convertidos em valores positivos, ao invés de positivo e negativo¹⁸. Para normalização foram arredondadas duas casas decimais.

Quadro 7. Cálculo do Root Mean Square após normalização do sinal eletromiográfico de S1 (Sujeito 1) e S2 (Sujeito 2).

	Pão		Uva	
	S1 %	S2 %	S1 %	S2 %
Masseter Direito	40,5	13,31	41,2	8,87
Masseter Esquerdo	54,05	13,58	50,12	9,75

Discussão

A esclerose sistêmica progressiva é uma doença multissistêmica crônica que faz parte do grupo de distúrbios autoimunes sistêmicos; progressiva, rara, de etiologia desconhecida¹. Afeta tanto a pele quanto os órgãos nobres, podendo atingir o sistema cardiovascular, os pulmões, o trato gastrointestinal e os rins¹⁹. É caracterizada clinicamente por acometimento vascular, alterações fibróticas da pele e dos órgãos internos¹.

Quanto ao sistema estomatognático, há poucos relatos na literatura, principalmente no que se refere aos estudos fonoaudiológicos^{6,8}, mas observa-se nesses indivíduos, dificuldade principalmente nas funções orais de mastigação e deglutição, restrição na abertura de boca²⁰ e alteração no tônus e na postura dos órgãos fonoarticulatórios^{6,8,9,21}.

A atuação fonoaudiológica na ES é uma condição escassa e incipiente^{6,8}, dado este que podemos observar no Quadro 1, pois S1 só iniciou o acompanhamento fonoaudiológico onze anos após o diagnóstico médico de ES dado pelo médico reumatologista, por isso, reforça-se que a parceria com a Reumatologia se torna imprescindível nessa afecção^{8,9}.

Este estudo buscou comparar a avaliação clínica e a atividade elétrica da mastigação, de um sujeito com ES, com outro sem doença reumática e sem queixas de alterações no sistema estomatognático, a fim de descrever e entender melhor esses achados, bem como possibilitar futuras atuações interdisciplinares.

Apesar de a amostra estudada ser apenas de um relato de caso, a raridade²² da doença bem como sua extensa heterogeneidade clínica, tornam os achados deste estudo relevantes, pois quando nos deparamos com pequenas populações derivadas de afecções raras, essas amostras oferecem evidências significativamente eficazes e, em sua grande maioria, são análises úteis²³. Porém, ao utilizarmos conclusões vindas dessas afirmações temos que ser criteriosos e cautelosos, principalmente em estudos de casos.

A incidência da ES é de dois a dez novos casos para cada milhão de habitantes/ano^{2,23}, e estudos ressaltam que esta varia de acordo com a localização geográfica e etnia²⁴. A prevalência é maior em mulheres numa proporção de 3:1, geralmente em idades de 35 a 64 anos. É rara em crianças, e em homens abaixo de 30 anos²⁵.

Estima-se que menos de 10% dos pacientes desenvolvam a doença antes dos vinte anos de idade^{26,27}. Como podemos observar no Quadro 1, S1 começou a perceber os primeiros sinais e sintomas entre quatorze e quinze anos de idade, tornando seu caso ainda mais raro, corroborando a literatura^{26,27}.

Com relação aos sinais e sintomas iniciais da doença (Quadro 2), alguns autores^{7,22} citaram que na face o espessamento cutâneo leva a manifestações orofaciais incluindo rigidez, atrofia da pele, perda de expressão com diminuição dos lábios e o afilamento do nariz⁷. Essas alterações típicas ocorrem na região perioral, causando uma abertura oral reduzida e uma face “em rato” (“*mausekopf*”), com perda das rugas faciais^{7,20,22}. Pôde-se observar que no início da doença S1 referiu apresentar pele espessa e endurecida, rosto fino, principalmente relacionado aos lábios e nariz, dados esses que ratificam o exposto pela literatura consultada^{7,22}.

A paciente foi diagnosticada com ES do tipo difusa (ESD). Nessa classificação, os indivíduos apresentam edema das mãos, o gradual espessamento cutâneo ou a artrite, sendo estas geralmente as primeiras manifestações da doença⁷. Também são observadas alterações escleróticas nos dedos e mãos em que flexão por contraturas produzem dedos encurtados, semelhantes a garras²². Podem surgir alterações na pigmentação da pele tanto durante a fase inflamatória da doença quanto na fase de fibrose progressiva. Dependendo do tom natural da pele do paciente, esta pode tornar-se hipo ou hiperpigmentada (aparência de “*sal e pimenta*”). As áreas de despigmentação surgem particularmente no couro cabeludo, tórax e parte superior do dorso e sobre áreas de pressão, como o dorso das mãos ou regiões pré-tibiais⁷. Essas alterações foram observadas somente em S1. Como citado anteriormente, S1 apresenta ESD, que além de acometer as mãos, os pés e os órgãos internos, pode também acometer a face (órgãos fonoarticulatórios) como o ocorrido e, conseqüentemente, ocasionou a limitação da abertura de sua boca³ como visto no Quadro 3; esses acometimentos podem ser justificados pelo acúmulo exagerado de colágeno em vários órgãos, que levam à fibrose e causam transtornos funcionais nos órgãos implicados²⁸.

Nessa afecção pode surgir doença pulmonar em cerca de 80% dos pacientes. O envolvimento pulmonar é o segundo em frequência, logo após o envolvimento esofágico e é atualmente o principal determinante do risco de morte nessa patologia. Os

pacientes com afecção pulmonar têm, portanto, um pior prognóstico. A doença pulmonar intersticial manifesta-se inicialmente por tosse seca e fadiga⁷. S1 também referiu cansaço respiratório (Quadro 2) e foi diagnosticada com fibrose pulmonar, evidenciando este achado citado pela literatura⁷.

Com relação ao exame clínico fonoaudiológico, quando foram comparados os sujeitos estudados, observou-se que S1 apresentou alterações (Quadro 3) relacionadas à mobilidade, tonicidade e postura habitual dos órgãos fonoarticulatórios (OFAs) enquanto S2 não os apresentou.

A tonicidade, a mobilidade e a postura dos OFAs tornam-se significativas durante as funções orais, ou seja, não devem ser observadas apenas isoladamente²⁹. Apesar de S1 conseguir realizar algumas atividades de mobilidade dos OFAs, evidenciou-se rigidez muscular das bochechas e do mental, importantes não só em repouso, como também durante a função de mastigação. Observou-se, também, ausência de selamento labial em S1. Tais características não são esperadas em sujeitos hígidos, como o observado em S2. Essa alteração na postura habitual dos lábios em S1 pode ser explicada, pela alteração na realização da função de cada músculo, muito provavelmente devido ao espessamento cutâneo e à perda da elasticidade comum nos casos de ES⁷.

Alterações nos aspectos relacionados à mobilidade, tonicidade dos OFAs e na postura habitual de repouso dos lábios foram citadas pela literatura^{6,8,9,21}, em pacientes com ES. Possivelmente essas alterações ocorram em virtude da diminuição da função da musculatura da face, indicando aumento da rigidez, o que pode estar contribuindo na redução da amplitude dos movimentos mandibulares podendo causar prejuízo também nas funções estomatognáticas. A explicação para esse dado está possivelmente relacionada com a deposição crônica de colágeno, que torna a pele progressivamente espessa, com perda da elasticidade, limitando os movimentos faciais, podendo levar a manifestações orofaciais como observadas no caso estudado; dentre elas está a restrição na abertura de boca citada frequentemente na literatura, no caso de indivíduos com ES^{6,7,8,9,20,22}.

Quanto à situação dentária, os achados relacionados às alterações encontradas durante o processo de avaliação clínica, revelaram em S1 ausência de elementos dentários e presença de placa bacteriana⁷. Essas alterações podem ser explicadas

devido à má higienização e ao acúmulo de placa bacteriana como também à limitação de abertura de boca⁹. A dificuldade de manusear a escova de dente ocorre devido às alterações escleróticas nos dedos e mãos²², e observou-se que a condição das gengivas não se encontrava íntegra. Acredita-se que essa alteração ocorra devido à reabsorção dos dentes causada pela deposição crônica de colágeno²², como também em virtude do acúmulo de placa bacteriana supracitado.

Os índices de normalidade para abertura máxima de boca¹⁵ variam entre 45 e 60mm para o adulto¹⁵, considerando a abertura inferior a 40mm no adulto como um alerta a possíveis problemas musculares ou articulares. Na ES a restrição na mobilidade de abertura de boca foi citada em alguns artigos nacionais e internacionais desenvolvidos por médicos ou dentistas, voltados para ES^{4,5,20,22} e por fonoaudiólogos^{6,8,9}.

Com relação à abertura de boca, S1 apresentou restrição evidenciando 24,5mm; quando comparado com S2 que apresentou 49,0mm (Figuras 1A e 1B). Essa limitação é comum nos casos de ES e possivelmente está relacionada ao espessamento da pele pelo acúmulo crônico de colágeno, característico da doença^{4,5,6,7,9,20}.

Nas funções orais (Quadro 5), foi observado no momento da avaliação, que a respiração, tanto de S1, quanto de S2, está dentro do padrão de normalidade quanto ao modo (nasal)^{29,30}, excetuando-se a falta de selamento labial em S1, mas a mesma, no momento da avaliação, fez uso do nariz para respirar, sendo uma condição que provavelmente ocorre devido à rigidez na musculatura orofacial, como também causada pelo espessamento da pele, que dificulta o fechamento dos lábios, porém essa condição não impede que o nariz exerça sua função⁷.

De acordo com a literatura³⁰, a mastigação bilateral alternada com os lábios ocluídos é apontada como padrão maduro de mastigação e que atua no desenvolvimento, crescimento e estabilidade dos arcos dentários, devido à ação equilibrada da musculatura orofacial e à pressão exercida nos dentes. Para que a mastigação seja realizada de forma adequada, são necessárias condições anatômicas favoráveis para promover distribuição uniforme das forças mastigatórias nos tecidos de suporte dos dentes.

A função da mastigação apresentou-se alterada em S1 quando comparada com S2, que exibiu um padrão mastigatório bilateral considerado normal³⁰.

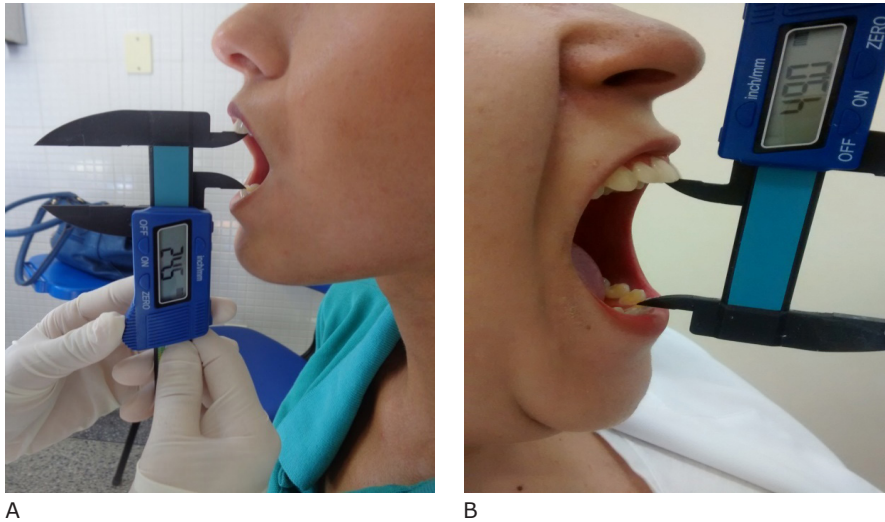


Figura 1. Restrição da abertura de boca do sujeito 1 (24,5mm) (A) comparado com valor normal do sujeito 2 (49,0mm) (B)

Ao ser solicitado que comesse pão, durante a mastigação S1 apresentou incisão anterior, trituração ineficiente, contrações musculares atípicas, velocidade diminuída e padrão mastigatório unilateral para o lado esquerdo. Estudos^{8,9,21}, revelaram que essas alterações podem estar relacionadas à limitação dos movimentos mandibulares, como também à situação dentária prejudicada, comum nessa afecção, como por exemplo, a presença de doença periodontal e ausência de dentes²². Esse fato pode ocorrer também devido ao enrijecimento da pele característico da doença e decorrente do depósito crônico de colágeno, podendo levar a alteração nos movimentos e nas estruturas envolvidas nesse ato^{7,22}.

Durante a deglutição, tanto de líquido quanto de sólido, foi observado fechamento labial parcial sem observação da presença da língua entre os dentes, postura do lábio inferior em contato com o superior, com contenção adequada do alimento, mas com acentuada contração do mental, da musculatura cervical e com a posição de cabeça anteriorizada. No momento da avaliação, durante a oferta das consistências líquida e sólida, não foi observado alteração na coordenação entre a deglutição e a respiração, presença de resíduos após a deglutição e rigidez da laringe durante a realização dessa função, dado este que também pode ocorrer devido ao enrijecimento da musculatura⁷. Apesar de a paciente apresentar queixa relacionada à degluti-

ção manifestada por engasgo e tosse (Quadro 2) não foram observados esses sinais durante a avaliação clínica. Na ES pode ocorrer disfagia baixa^{7,9}, uma vez que o acometimento do trato digestivo é a mais frequente manifestação visceral da ES, acometendo 70 a 90 % dos pacientes.

O trabalho com a motricidade orofacial, na Fonoaudiologia, tem como objetivo principal equilibrar o sistema estomatognático, reabilitando e adequando as funções de respiração, sucção, deglutição, mastigação e fala, assim como postura e hábitos deletérios¹¹. Atualmente, o desenvolvimento tecnológico permite contar com instrumentos de medição de grande precisão e uso clínico, dentre os quais a EMGS^{11,13}. Este exame analisa de forma objetiva e minuciosa a atividade muscular que permite complementar a avaliação do sistema estomatognático na clínica fonoaudiológica^{11,12}.

Com relação à comparação do sinal elétrico, após normalização do sinal, chegou-se à conclusão que S1 teve potencial elétrico maior do que S2.

Analisando o Quadro 2 durante a mastigação das uvas passas, S2, com relação ao masseter direito (MD), apresentou uma atividade equivalente a 8,87% e com relação ao masseter esquerdo (ME), a atividade foi equivalente a 9,75% da potência máxima do músculo. Já para a mastigação do pão o MD apresentou 13,3% e ME: 13,58% de atividade quando comparado com a potência máxima muscular nesse sujeito.

Os valores encontrados na análise elétrica de S1 revelaram para a mastigação das uvas passas MD 41,2% e ME 50,12%, enquanto para o pão MD observou-se em 40,5% e ME 54,05 % de atividade elétrica da potência máxima.

Portanto, S1 teve potencial elétrico maior quando comparado a S2. Como se trata de um único indivíduo pesquisado e devido não ter sido obtido outro estudo que analisou a atividade elétrica em indivíduos com ES, este dado dificulta a discussão da comparação entre os sujeitos estudados, mas acredita-se que S1 precisou de maior carga elétrica da musculatura para desempenhar a função da mastigação, provavelmente devido ao aumento da rigidez da musculatura encontrada na ES^{7,22}, necessitando de uso de maior agrupamento de fibras musculares quando comparado a sujeito hígido, inferindo-se maior esforço para a execução da mastigação.

Conclusão

Este trabalho revelou alterações significativas no sistema estomatognático relacionadas aos aspectos posturais, de mobilidade e tonicidade dos OFAs, restrição da abertura de boca, nas funções orais de mastigação, deglutição e na atividade elétrica do músculo masseter durante a mastigação, do sujeito com esclerose sistêmica, quando comparado ao sujeito sem doença reumática. Portanto, demonstra como é imprescindível um fonoaudiólogo na equipe interdisciplinar, bem como a necessidade da realização de mais estudos com amostras maiores, para aprofundar o conhecimento e melhorar a conduta nesses casos.

Referências Bibliográficas

1. Imboden JB, Helmann DB, Stone JH. Esclerodermia. "In" Hummers LK, Wigley FM. *Current: Diagnóstico e Tratamento Reumatológico*. 3ªed. Porto Alegre: Editora Artmed. 2014. p.228-37.
2. Mayes MD, Lacey JV Jr., Beebe-Dimmer J, Gillespie BW, Cooper B, Laing TJ, et al. Prevalence, incidence, survival, and disease characteristics of systemic sclerosis in large US population. *Arthritis Rheum*.Aug.2003; 48(8): 2246-55.
3. Matarese G, Isola G, AliBrandi A,Gullo AL, Bagnato G, Cordasco G, et al. Oclusal and MRI characterizations in systemic sclerosis patients: A prospective study from Southern Italian cohort. *Joint Bone Spine*.Jan, 2016; 83(1): 57-62.
4. Vincent C, Agard C, Barberot S, N'Guyen JM, Planchon B, Durant C. et al.. Orofacial manifestations of systemic sclerosis: A study of 30 consecutive patients. *Rev. Stomatol. Chir. Maxillofac*.2010; 111(3):128-34.
5. Yuen HK, Marlow NM, Reed SG, Mahoney S, Summerlin LM, Leite R, et al. Effect of orofacial exercises on oral in adults with systemic sclerosis. *Disabil.Rehabil. Sep. 2012; 34(1): 84-9.*
6. Baldrighi SEZM, Almeida LF, Alves CS, Silva AKA, Barros-Filho L, Macieira JC, et al. Amplitude Máxima da abertura de boca na esclerose sistêmica. *Distúrb. Comun. Marc 2016; 28(1): 162-70.*
7. Magro PCFM. Esclerodermia: Revisão de literatura e caracterização da população observada na consulta de Reumatologia do Centro Hospitalar Cova da Beira. [Dissertação de mestrado em Medicina]. Portugal: Universidade da Beira do Interior Faculdade de Ciências da Saúde, 2009.
8. Baldrighi SEZM, Almeida LF, Lima MC, César CPHAR, Macieira JC. Impacto da intervenção fonoaudiológica na Esclerose Sistêmica. *Distúrb. Comun. Set. 2014; 26(3): 596-605.*
9. Almeida LF, Lima MC, Macieira JC, César CPHAR, Baldrighi SEZM. Intervenção Fonoaudiológica na esclerose sistêmica: relato de casos. *Rev.CEFAC*. 2016, 18(1): 273-85.
10. Carvalho ARR. Eletromiografia dos músculos masséteres e supra-hióideos em mulheres com oclusão normal e com má oclusão classe I de Angle durante a fase oral da deglutição. [Dissertação]. São Paulo. Faculdade de Medicina. Universidade de São Paulo, 2002.
11. Oncins MC, Freire RMAC, Marchesan IQ. Mastigação: análise pela eletromiografia e eletrognatografia. Seu uso na clínica fonoaudiológica. *Distúrb. Comun. Ago. 2006; 18(2): 155-65.*
12. Park S, Shin WS. Differences in eating and masticatory performances by gender and obesity status. *Physiology & Behavior*. 2015; 138:69-74.
13. Prates LS, Gois M, Berwig LC, Blanco-Dutra AP, Busanello-Stella AR, Silva AMT. Avaliação clínica e eletromiográfica da mastigação nos diferentes padrões de crescimento facial. *Rev. CEFAC*. Aug. 2016; 18(1): 104-12.
14. Genaro KF, Berretin-Felix G, Rehder MIBC, Marchesan IQ. Avaliação Miofuncional Orofacial: Protocolo MBGR. *Rev CEFAC*. Abr/Jun. 2009; 11(2): 237-55
15. Bianchini EMG. Relações das disfunções da articulação temporomandibular com a articulação da fala. *Rev Dental Press Ortodon Ortop Facial*. Jan/Fev. 2000; 5(1): 51-9.
16. Rahal A, Goffi-Gomez MVS. Estudo eletromiográfico do músculo masseter durante o apertamento dentário e mastigação habitual em adultos com oclusão dentária normal. *Rev Soc Bras Fonoaudiol*.2009; 14(2): 160-4.
17. Nascimento GKBO, et al. Protocolo de avaliação eletromiográfica em mastigação. "In": SILVA, H.J. Protocolos de eletromiografia de superfície em Fonoaudiologia. 1ª ed. Barueri: Pró-Fono,2013.p.15-25.
18. Marchetti PH, Duarte M. Instrumentação em eletromiografia. Laboratório de Biofísica, Escola de Educação Física e Esportes da Universidade de São Paulo USP, São Paulo, 2006. Disponível em: <http://lob.iv.fapesp.br/> . Acesso em: 17 abr. 2016.



19. Godoi ERAM, et al. Envolvimento macrovascular e esclerose sistêmica. *J. Vasc. Bras.*, Recife, 2009. Disponível em: <http://www.scielo.br/pdf/jvb/2009nahead/0509.pdf>. Acesso em: 27 fev. 2016.
20. Salem B, Rim BHA, Shini BR, Maher B. Manifestations bucco-dentaires de la sclérodémie systémique. *Pan African Medical Journal*. 2013;16(114):3065.
21. Baldrighi SEZMB, et al. Esclerodermia Sistêmica: relato de caso. *Revista Extensão & Sociedade*. Rio Grande do Norte, 2011; 2(3). Disponível em: <http://www.periodicos.ufrn.br/ojs/index.php/extensaoesociedade>. Acesso em: 18 mai. 2016.
22. Pereira MCMC, et al. Esclerodermia sistêmica: relato de caso clínico. *Revista de Odontologia da Universidade Cidade de São Paulo*, São Paulo, 2009; 21(1): 69-73. Disponível em: [http://arquivos.cruzeirosuleducacional.edu.br/principal/old/revista_odontologia/pdf/janeiro_abril_2009/Unicid_21\(1\)_69_73.pdf](http://arquivos.cruzeirosuleducacional.edu.br/principal/old/revista_odontologia/pdf/janeiro_abril_2009/Unicid_21(1)_69_73.pdf). Acesso em: 04 mai. 2016.
23. Chiffot H, et al. Incidence and prevalence of systemic sclerosis: a systematic literature review. *PubMed*, Bethesda MD. Fev. 2008; 37(4): 223-35.
24. Gu YS. et al. The immunobiology of systemic sclerosis. *Semin Arthritis Rheum*, Elsevier, Filadélfia. Out. 2008; 38(2): 132-60.
25. Collier MD. Esclerose Sistêmica. "In": WEST, S.G. Segredos em Reumatologia: respostas necessárias ao dia a dia em rounds, na clínica, em exames orais e escritos. 1ªed. Porto Alegre: Artmed; 2001.p.160-8.
26. Martini G. et al. Systemic Sclerosis in Childhood. *Arthritis Rheum*, 2006; 54(12): 3971-8.
27. Monticelo AO, et al. Esclerose sistêmica e níveis séricos elevados de organoclorado: uma associação possível?. *Rev. Bras. Reumatol.*2008; 48(1): 51-4.
28. Junqueira LCU, Carneiro J. *Histologia básica*. 10ª. ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 2004. p.165-75.
29. Marchesan IQ. Deglutição: diagnóstico e possibilidades terapêuticas. "In": Marchesan IQ. *Fundamentos em Fonoaudiologia: aspectos clínicos da motricidade oral*. 2ª. ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 2005.p.51-8.
30. Cattoni DM, Tessitore A. Diagnóstico das alterações de respiração, mastigação e deglutição. "In": Fernandes FDM, Mendes BCA, Navas ALPGP. *Tratado de Fonoaudiologia*. 2ª. ed. São Paulo: Roca, 2009.p.140-5.

