

Apraxia de fala Infantil em quadros com comorbidades

Childhood apraxia of speech in cases with comorbidities

Apraxia de fala Infantil com comorbidades

Aline Mara de Oliveira* 

Amanda Del Nero Alves Pires* 

Greicyhelen Santos da Cruz* 

Léia Gonçalves Gurgel* 

Luciane Mari Deschamps* 

Resumo

Introdução: A apraxia de fala na infância (AFI) pode resultar de comprometimentos neurológicos, estar associada a distúrbios neuro-comportamentais complexos ou ter entidade nosológica desconhecida. **Objetivo:** Relacionar as comorbidades associadas à Apraxia de Fala Infantil (AFI) e suas manifestações clínicas. **Método:** A presente revisão sistemática foi conduzida conforme recomendações do Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses (PRISMA). A busca por artigos científicos foi realizada na base de dados Medline (via Pubmed), LILACS, Scopus e SciELO. Os termos de busca utilizados foram: Comorbidity, Apraxias, Childhood apraxia of speech, Dyspraxia, Speech, e seus entretermos, em inglês. Foram incluídos todos estudos cujos sujeitos apresentavam alguma síndrome e/ou transtorno diagnosticado e apraxia de fala. Inicialmente, títulos e resumos dos artigos foram analisados. Três revisores independentes avaliaram os artigos completos e realizaram suas seleções de acordo com os critérios de elegibilidade. Em todas as etapas, as discordâncias foram resolvidas por consenso. O dado principal coletado foi quanto à ocorrência de comorbidades em sujeitos com AFI. **Resultados:** As comorbidades mais presentes associadas à Apraxia de Fala Infantil foram Transtorno do Espectro Autista, Epilepsia Rolândica e Síndrome de Down. As causas genéticas vêm como preditor da associação entre Apraxia de Fala Infantil e estas comorbidades. **Conclusão:** Como a AFI é um distúrbio de manifestação heterogênea, pode se apresentar em conjunto com diversas comorbidades, o que gera um diagnóstico tardio, para AFI e o distúrbio secundário. Ainda, dificultando o processo de avaliação e intervenção precoce, comprometendo o desenvolvimento de habilidades importantes de fala.

Palavras-chave: Comorbidade; Apraxias; Distúrbios da Fala. Apraxia de Fala na Infância.

* Universidade Federal de Santa Catarina – UFSC, SC, Brasil.

Contribuição dos autores:

AMO, LGG: Concepção do estudo; Metodologia; Esboço do artigo; Revisão crítica; Orientação.
ADNAP, GSC, LMD: Metodologia; Esboço do artigo; Revisão crítica.

E-mail para correspondência: Aline Mara de Oliveira - aline.mara.oliveira@ufsc.br

Recebido: 26/03/2021

Aprovado: 25/10/2021

Abstract

Introduction: Childhood apraxia of speech (CAS) can result from neurological impairments associated with complex neurobehavioral disorders or have an unknown nosological entity. **Objective:** To relate the comorbidities combined with CAS and its clinical manifestations. **Data sources:** This systematic review was conducted according to the recommendations of the Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses (PRISMA). The search for scientific articles was carried out in the Medline database (via Pubmed), LILACS, Scopus and SciELO. The search terms used in English were: Comorbidity, Apraxias, Childhood apraxia of speech, Dyspraxia, Speech, and the terms in between. All studies whose subjects had some diagnosed syndrome and / or disorder and apraxia of speech were included. Initially, titles and abstracts of the articles were analyzed. Three independent reviewers evaluated the full articles and made their selections according to the eligibility criteria. At all stages, disagreements were sorted out by consensus. The main data collected was in relation with the occurrence of comorbidities in subjects with CAS. **Summary of the findings:** The most common comorbidities connected with CAS were Autism Spectrum Disorder, Rolandic Epilepsy and Down Syndrome. Genetic causes come as a predictor of the association between CAS and these comorbidities. **Conclusions:** Since CAS is a disorder of heterogeneous manifestation, it can come along with several comorbidities, which generates a late diagnosis, for CAS and the secondary disorder, hindering the process of assessment and early intervention, compromising the development of important speech skills.

Keywords: Comorbidity; Apraxias; Speech Disorders; Child Speech Apraxia.

Resumen

Introducción: La apraxia del habla infantil (AFI) puede ser el resultado de deficiencias neurológicas, estar asociada con trastornos neuroconductuales complejos o tener una entidad nosológica desconocida. **Objetivo:** relacionar las comorbilidades asociadas a la apraxia del habla infantil y sus manifestaciones clínicas. **Fuentes de datos:** Esta revisión sistemática se llevó a cabo de acuerdo con las recomendaciones de los elementos de informe preferidos para revisiones sistemáticas y metaanálisis (PRISMA). La búsqueda de artículos científicos se realizó en la base de datos Medline (vía Pubmed), LILACS, Scopus y SciELO. Los términos de búsqueda utilizados fueron: Comorbilidad, Apraxias, Apraxia del habla infantil, Dispraxia, Habla y sus entretimientos, en inglés. Se incluyeron todos los estudios cuyos sujetos tenían algún síndrome y / o trastorno diagnosticado y apraxia del habla. Inicialmente se analizaron títulos y resúmenes de los artículos. Tres revisores independientes evaluaron los artículos completos y realizaron sus selecciones de acuerdo con los criterios de elegibilidad. En todas las etapas, los desacuerdos se resolvieron por consenso. Los principales datos recopilados fueron sobre la aparición de comorbilidades en sujetos con PIA. **Resumen de los hallazgos:** Las comorbilidades más comunes asociadas con la apraxia del habla infantil fueron el trastorno del espectro autista, la epilepsia rolándica y el síndrome de Down. Las causas genéticas vienen como un predictor de la asociación entre la apraxia del habla en los niños y estas comorbilidades. **Conclusiones:** Como la PIA es un trastorno de manifestación heterogénea, puede presentarse junto con varias comorbilidades, lo que genera un diagnóstico tardío, para la PIA y el trastorno secundario. Aún así, dificulta el proceso de evaluación e intervención temprana, comprometiendo el desarrollo de importantes habilidades del habla.

Palabras clave: Comorbilidad; Apraxias; Trastornos del Habla; Apraxia del habla infantil.

Introdução

No desenvolvimento infantil, quando se identifica prejuízo da execução do planejamento e programação motora da fala, na ausência de comprometimentos neuromusculares, tem-se a Apraxia de Fala na Infância (AFI). Em conformidade com a American Speech-Language-Hearing Association - ASHA¹ - a AFI é um distúrbio neurológico que afeta a precisão e consistência dos movimentos utilizados na produção da fala na ausência de déficits neuromusculares, tais como reflexos anormais e paralisia. A literatura exhibe inúmeros sinais clínicos do transtorno dos sons da fala supracitado, contudo, três deles são consenso entre os autores: erros inconsistentes de consoantes e vogais, coarticulação inadequada na transição entre os fonemas e perturbação da prosódia, especialmente do acento lexical e frasal^{2,3}.

A AFI pode resultar de comprometimentos neurológicos, estar associada aos distúrbios neuro-comportamentais complexos ou ter entidade nosológica desconhecida. No decorrer dos anos, pesquisas identificaram que a AFI co-ocorria, por vezes, com outros diagnósticos, dentre eles: Transtorno do Espectro do Autismo, Síndrome de Down, Epilepsia Rolândica Benigna, Transtorno de Déficit de Atenção e Hiperatividade^{4,10}. Contudo, na literatura vigente, encontra-se escassez de estudos que investigam a associação entre o transtorno dos sons da fala mencionado e outros transtornos.

Cabe ressaltar que a presença de comorbidades pode gerar um diagnóstico tardio, tanto para a AFI, quanto para o distúrbio secundário, o que pode dificultar o processo de avaliação e intervenção, trazendo prognóstico desfavorável para tais casos. Devido à escassez de trabalhos que discutam a relação entre a AFI e comorbidades, tanto em âmbito nacional, quanto internacional, é de suma importância que estudos neste tema sejam realizados para que sirvam de base teórica à prática dos profissionais envolvidos na equipe multidisciplinar.

À vista do exposto, o presente estudo tem por objetivo revisar na literatura a co-ocorrência da AFI nos transtornos do desenvolvimento, verificando as principais comorbidades associadas à AFI, explorando as suas manifestações clínicas.

Métodos

Coleta e síntese de dados

Foram pesquisadas as seguintes bases de dados eletrônicas (até maio de 2020): MEDLINE (acessado via PubMed), LILACS, Scopus e SciELO. Os termos de busca utilizados foram “Comorbidity”, “Apraxias”, “Childhood apraxia of speech”, “Dyspraxia”, “Speech”, em inglês, de forma combinada. Não houve restrição quanto ao tipo de comorbidade pesquisada.

Seleção dos estudos

Esta revisão sistemática foi desenvolvida conforme o checklist Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses (Prisma)¹⁵. A seleção dos estudos foi feita por dois avaliadores independentes, conforme critérios pré-estabelecidos para a presente revisão. Em caso de discrepâncias, um terceiro avaliador realizou o consenso. Na primeira etapa, após a busca nas bases de dados, os artigos em duplicata foram removidos. Na segunda etapa, os artigos foram selecionados em relação a seus títulos e resumos e, finalmente, na terceira etapa, os artigos selecionados na segunda etapa foram lidos na íntegra, tendo sido aplicados os critérios de elegibilidade para composição da amostra final da presente revisão. Ainda, foram feitas buscas secundárias manuais nas referências dos estudos incluídos no processo de revisão final, a fim de complementar a amostra da presente revisão.

Processo de inclusão e exclusão

Dois revisores, de forma independente, realizaram o processo de inclusão dos estudos, enquanto um terceiro revisor realizou o consenso se observadas discrepâncias. Foram incluídos todos aqueles estudos em que os sujeitos apresentavam comorbidades (síndromes e outras) associadas à AFI, e que fossem empíricos ou experimentais. Os critérios de exclusão foram: trabalhos que incluíram indivíduos que não estivessem entre a faixa etária de zero a doze anos; apresentação de uma definição não confiável do que foi considerado AFI ou diagnóstico da comorbidade considerada, e apresentação de um desenho metodológico diferente do proposto nos critérios de inclusão.

Extração dos dados

Dois revisores independentes realizaram a extração dos dados no que diz respeito às caracte-

rísticas metodológicas e amostrais, intervenções, e desfechos dos estudos, utilizando formulários padronizados criados especificamente para tal fim, considerando também os critérios de elegibilidade. Em todas as etapas do estudo, as discordâncias foram resolvidas por consenso. O dado principal coletado foi quanto à ocorrência de comorbidades em sujeitos com AFI.

Resultados

Conforme os resultados para esta análise, percebe-se que ainda são poucos os estudos que relacionam a AFI a alguma comorbidade. Encontrou-se, nesta revisão sistemática, um total de 261 artigos. Pelos critérios de elegibilidade, foram excluídos 237 artigos, sobrando 15 artigos que foram submetidos à leitura integral. Após esta etapa, observou-se que somente 09 artigos estavam de acordo com os critérios de inclusão, compondo a amostra do presente estudo. Na Figura 1, o diagrama apresenta as etapas de seleção dos estudos da presente revisão.

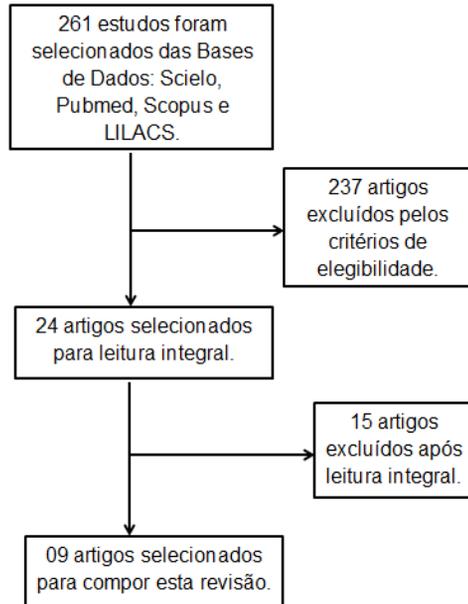


Figura 1. Diagrama de seleção dos artigos

Características dos estudos selecionados

Os nove estudos incluídos na presente revisão exploraram diversas comorbidades. Três foram os distúrbios mais abordados como comórbidos à AFI. O primeiro foi a Epilepsia, observada nos estudos de Pal et al (2010)¹¹ e Scheffer et al (2000)¹², sendo a Epilepsia Rolândica o subtipo abordado. A segunda temática mais observada dentre os trabalhos incluídos na presente revisão foi o Transtorno do Espectro Autista (TEA), discutido nos trabalhos de Schumacher et al (2009)⁵ e Newmeyer et al (2009)¹³. O estudo de Schumacher et al (2009)⁵, ao discutir sobre a relação da AFI com o TEA, menciona o TDAH como possível comorbidade. As questões genéticas estudadas por Dechow et al (2019)⁶, Pal et al (2011)¹¹ e Scheffer (2001)^{6, 11, 12} compuseram a terceira categoria de distúrbios associados às comorbidades genéticas.

A quarta categoria de estudos se refere aos déficits em funções cognitivas (FC) estudadas por Nijland et al (2015)¹⁴, quando estabelece relação entre a AFI e suas comorbidades. Os autores expuseram a importância destas funções para a realização da fala encadeada e dos movimentos orofaciais. Os estudos de Printz et al (2018)¹⁶ e Iuzzini-Seigel et al (2017)²⁵ relacionam a AFI a dispraxias oromotoras (DO) e ao distúrbio de linguagem (DL)¹⁷.

No Quadro 1, encontra-se o delineamento da pesquisa com as características de cada estudo incluído na presente revisão, considerando seus autores, periódicos em que foram publicados, ano de publicação e fator de impacto (FI) da revista.

Os nove estudos incluídos na presente revisão abrangem desde metodologias relacionadas a estudos de caso até ensaios clínicos. Também há estudos envolvendo grupos familiares, com enfoque no mapeamento genético. No Quadro 2, constam os objetivos de cada estudo, assim como informações sobre os participantes e os desfechos das pesquisas. No Quadro 3, podem ser observadas as comorbidades relacionadas à AFI e as características de cada uma delas, segundo os estudos selecionados.

Quadro 1. Características dos estudos selecionados

Autores e ano de publicação	Título Original	Periódicos e FI	Delineamento
NIJLAND, L et al, 2015. ^[14]	Cognitive functions in childhood apraxia of speech.	Journal of Speech, Language, and Hearing Research 1.900 (2019)	Caso- Controle Observacional Qualitativo e quantitativo
PAL, DK et al, 2010. ^[11]	Pleiotropic effects of the 11p13 locus on developmental verbal dyspraxia and eeg centrottemporal sharp waves.	Genes, Brain and Behavior 4.760 (2019)	Caso-Controle Observacional Quantitativo
IUZZINI-SEIGEL, J et al, 2017. ^[25]	Inconsistency in Children With Childhood Apraxia of Speech, Language Impairment, and Speech Delay: Depends on the Stimuli.	Revista de Pesquisa em Fala, Linguagem e Audição 1.900 (2019)	Ensaio clínico Experimental Qualitativo e Quantitativo.
SCHUMACHER, J et al, 2017. ^[5]	Apraxia, Autism, Attention-Deficit Hyperactivity Disorder: Do We Have a New Spectrum?	Revista de Pediatria, do Desenvolvimento e do Comportamento 1.950 (2019)	Estudo de caso Descritivo Qualitativo.
NEWMYER, AJ et al, 2009. ^[13]	Results of the Sensory Profile in Children with Suspected Childhood Apraxia of Speech	Fisioterapia e terapia ocupacional em pediatria 1.540 (2019)	Ensaio clínico Qualitativo e quantitativo
DUCHOW, H et al, 2019. ^[6]	The Co-Occurrence of Possible Developmental Coordination Disorder and Suspected Childhood Apraxia of Speech	Jornal Canadense de Fonoaudiologia 0.280 (2019)	Ensaio Clínico Quantitativo
PRINTZ, T et al, 2018. ^[16]	Verbal and oral dyspraxia in children and juveniles	Downs Syndr Res Pract. 1.440 (2010)	Estudo qualitativo e descritivo
KUMIN, L, 2006. ^[16]	Speech intelligibility and childhood verbal apraxia in children with Down syndrome	Developmental Medicine & Child Neurology 3.870 (2019)	Ensaio clínico Exploratório Qualitativo
SCHEFFER, IE, 2001. ^[12]	Autosomal dominant rolandic epilepsy with speech dyspraxia	Annals of Neurology: Official Journal of the American Neurological Association e da Child Neurology Society 2.782 (2018)	Ensaio clínico Qualitativo e quantitativo Descritivo

Quadro 2. Objetivos, participantes e desfecho dos estudos selecionados

Autores e Ano	Objetivos	Participantes	Desfecho encontrado
NIJLAND, L et al, 2015. ^[14]	Determinar o limite dos déficits não verbais apresentados por crianças com AFI que possam oferecer evidências clínicas de comorbidade.	34 crianças (17 com AFI sem comorbidade e 17 com desenvolvimento normal da fala).	Crianças com AFI apresentam déficits na memória sequencial de fala, complexos motores e sensoriais, bem como atraso em funções cognitivas. A apraxia pode apresentar como comorbidade a dispraxia não-verbal.
PAL, DK et al, 2010. ^[11]	Relacionar ERB e DSF, a partir do mapeamento genético e análise acústica a fim de afirmar que se tem uma rede neural favorável ao DSF.	38 famílias com DSF (16 crianças entre 3 a 12 anos, com ERB e queixas orofaciais). Além das crianças, 15 pais também participaram do estudo	O estudo revelou que as famílias com ERB tinham, entre as comorbidades, os DSF, mostrando anormalidades na análise acústica, sendo que a DV é a base para DSF nestes indivíduo concluindo que a ERB é um distúrbio do neurodesenvolvimento

Autores e Ano	Objetivos	Participantes	Desfecho encontrado
IUZZINI-SEIGEL, J et al, 2017. ^[25]	Determinar se a inconsistência da fala é uma característica essencial da AFI ou se é causada por um DL comórbido que afeta um grande subconjunto de crianças com AFI. Determinar se a inconsistência da fala é um marcador de diagnóstico sensível e específico que pode diferenciar AFI de atraso de fala.	48 crianças entre 4; 7 a 17; 8 (anos; meses), sendo: 10 com AFI; 10 com AFI + comprometimento da linguagem; 10 com atraso na fala; 09 com comprometimento da linguagem; 09 com desenvolvimento típico.	Crianças com distúrbio de linguagem + AFI e AFI + uma comorbidade apresentaram desempenho equivalente em todas as avaliações de inconsistência de sons da fala, sendo esta a principal diferenciação entre crianças com AFI e com atraso na fala.
SCHUMACHER, J et al., 2017. ^[5]	Discutir com especialistas um caso de uma criança com AFI e suspeita de TEA e TDAH a fim de identificar características da síndrome e verificar se se trata de um novo espectro.	Criança bilíngue (português e inglês) de 6 anos e 10 meses de idade, com possibilidade de apresentar TEA e TDAH.	Observou-se movimento diferenciado e limitado da língua para o planejamento ou programação motora da fala, erros inconsistentes de fonemas e prosódia alterada, restrições expressivas de linguagem. A ansiedade social, hipersensibilidade e distração justificavam diagnósticos comórbidos de TEA e TDAH. Apresentou atraso de processamento do idioma.
NEWMeyer, AJ et al., 2009. ^[13]	Revisar e comparar os resultados do Perfil Sensorial de crianças com AFI a fim de explorar a relação entre o processamento sensorial e os déficits de produção sonora	Trinta e oito crianças de 3 a 10 anos com suspeita de AFI foram avaliadas de julho de 2003 a julho de 2005.	Crianças com suspeita de AFI podem apresentar diferenças no processamento sensorial, além de comprometimento da fala. Quando presente, essas diferenças no processamento sensorial podem ser tratadas com abordagens terapêuticas específicas por meio de TO ou consulta a um TO.
DUCHOW, H et al., 2019. ^[6]	Explorar a prevalência de um potencial para DCD em crianças com suspeita de DV	35 crianças com AFI.	Crianças com suspeita de AFI apresentam maior risco de apresentar DCD do que as crianças típicas.
PRINTZ, T et al, 2018. ^[16]	Diferenciar DV de DO e verificar os motivos do aumento dos encaminhamentos de tais condições a profissionais como fonoaudiólogos e otorrinolaringologistas. Explorar aspectos clínicos e epidemiológicos dos subtipos de apraxia.	Crianças e jovens com subtipos de apraxia. As informações sobre os casos foram cedidas pelo Conselho Nacional de Saúde e Bem-Estar pública para a realização do estudo.	O estudo confirmou o aumento de notificações por ambos os tipos de apraxia, sendo categorizado por um distúrbio neurológico e sugere o tratamento precoce, para uma melhor qualidade de vida destes indivíduos.
KUMIN, L, 2006. ^[16]	Examinar as respostas dadas pelos pais de crianças com SD, por meio de um questionário, a fim de saber como a AFI está sendo identificada e tratada em crianças com esta síndrome.	1.620 questionários foram respondidos por pais de crianças com SD e 15% dos pais que responderam à pesquisa foram informados de que o filho tinha AFI.	Os sintomas da AFI podem ser encontrados em crianças com síndrome de Down, visto que há correlação significativa entre a AFI e as classificações de inteligibilidade dos pais, assim como entre a inteligibilidade da fala e a idade em que a criança começou a falar (após os 5 anos). O diagnóstico de dificuldade com as habilidades motoras orais é mais frequente do que o diagnóstico de AFI.
SCHEFFER, IE, 2001. ^[12]	Estudar uma família portadora de ADRESA a partir de exames como a EEG a fim de compreender, em termos genéticos e sintomatológicos, a ADRESA e ERB, isoladamente.	Três gerações com ERB + AFI tinham sete membros vivos afetados com AFI, dos quais 6 tinham ERB, e 2 membros da família de afetados já falecidos tiveram convulsões e problemas de fala.	A epilepsia é dependente da idade quando junto com o distúrbio crônico de fala. As dificuldades crônicas de fala e linguagem em ERB + AFI ocorrem devido a interações epistáticas de um segundo gene intimamente ligado ao locus da ERB.

Legenda: TEA = Transtorno do Espectro Autista; TDAH = Transtorno do Déficit de Atenção e Hiperatividade; DSF = Distúrbios dos Sons da Fala; ADRESA = Epilepsia Rolândica Autossômica dominante com Dispraxia da Fala; ER(B) = Epilepsia Rolândica (Benigna); DCD = Distúrbio de Coordenação do Desenvolvimento; EEG = Eletroencefalograma; TO = Terapia Ocupacional; DV = Dispraxia Verbal; DO = Dispraxia Oral; DL = Distúrbio de Linguagem.

Quadro 3. Características das comorbidades e da AFI nos estudos selecionados

Autores e ano de publicação	Comorbidade pesquisada	Características principais da comorbidade	Característica da AFI
NIJLAND, L et al, 2015. ^[14]	Funções Cognitivas (FC)	Conjunto de habilidades cognitivas necessárias para realizar diversas atividades que demandam planejamento e monitoramento de comportamentos intencionais relacionados a um objetivo ou a demandas ambientais.	A AFI é diagnosticada com base em características específicas da fala, na ausência de problemas de audição, inteligência e compreensão da linguagem.
PAL, DK. et al., 2010. ^[11]	Epilepsia Rolândica (ER)	A epilepsia rolândica é uma epilepsia comum do desenvolvimento que contém uma herança genética complexa, sendo de difícil mapeamento. Neste subtipo de epilepsia, nem sempre o indivíduo apresenta crises convulsivas.	Distúrbio dos sons da fala (incluindo a AFI), definido como erros inadequados na produção da fala que reduzem a inteligibilidade. A AFI tem comorbidade com a ERB. Esse quadro costuma persistir e provocar fala inteligível em adultos.
IUZZINI-SEIGEL, J et al, 2017. ^[25]	Distúrbio de Linguagem (DL)	As crianças com DL adquirem simultaneamente a estrutura da linguagem organizada e o domínio coordenativo dos articuladores. No entanto, apresentam coordenação oromotora diminuída; a sintaxe, o discurso e a semântica prejudicados na ausência de déficits cognitivos; diminuição da estabilidade articulatória e a coordenação oromotora; frequentemente, mostram ter capacidade motora fina e grossa; apresentam dificuldades em integrar informações sensoriais, baixa capacidade de aprendizado de procedimentos ou processamento de informações.	Dificuldade de programar os comandos motores que ativam a musculatura da fala, gerando: erros inconsistentes nos sons da fala (produção variável de fonemas, em palavras ou sentenças, em múltiplas oportunidades); diminuição dos contrastes das vogais, distúrbios prosódicos e dificuldade em fazer transições e coarticular sons e sílabas.
SCHUMACHER, J et al., 2017. ^[5]	TEA TDAH	Estudo de caso - diagnóstico de TEA, TDAH e AFI: interesse limitado na interação com outras crianças, contato visual deficiente e hipersensibilidade, precisa de apoio e redirecionamento constantes durante a escola, dificuldades para se vestir e seguir as rotinas diárias da sala de aula, prejuízo significativo em seu desempenho. Além disso, o menino apresenta produções de palavras isoladas e frases ininteligíveis. Ele tenta iniciar uma conversa, mas desvia o olhar e fica frustrado quando solicitado a repetir novamente.	Crianças TEA ou TDAH e com suspeita de AFI podem apresentar dificuldades mais generalizadas com a programação motora geral, produção de som inconsistente, tateamento para a busca do ponto articulatório, incapacidade de imitar sons, dificuldade aumentada com comprimento de emissão mais longo e sequenciamento de sons pobres.
NEWMAYER, AJ et al., 2009. ^[13]	TEA	Déficits sensoriais em crianças com TEA e AFI: busca sensorial, sensibilidade sensorial oral, desatenção/distração e coordenação motora fina e perceptual prejudicadas; emocionalmente reativos, baixa resistência/tônus.	AFI é um distúrbio dos sons de fala infantil neurológico (pediátrico), no qual a precisão e a consistência dos movimentos subjacentes à fala são prejudicados na ausência de déficits neuromusculares (por exemplo, reflexos anormais, tom anormal).
DUCHOW, H. et al., 2019. ^[6]	Distúrbio da Coordenação do Desenvolvimento (DCD)	DCD é um distúrbio do neurodesenvolvimento em que "a aquisição e a execução de habilidades motoras coordenadas está substancialmente abaixo do esperado, dada a idade cronológica do indivíduo e a oportunidade de aprendizado e uso de habilidades".	A AFI é um distúrbio da comunicação caracterizado por <i>déficits</i> de planejamento e programação dos movimentos motores da fala.

Autores e ano de publicação	Comorbidade pesquisada	Características principais da comorbidade	Característica da AFI
PRINTZ, T et al, 2018. ^[16]	Dispraxia Oral (DO) Dispraxia Verbal (DV)	DO - atinge os movimentos orofaciais não relacionados à fala, como a função de sucção, mastigação e deglutição. Pode ou não estar associada à AFI. DV - atinge os movimentos relacionados à produção da fala.	A DV e a DO são subtipos de dispraxia: um distúrbio motor neurológico com ausência de déficits neuromusculares. A dispraxia pode afetar as habilidades motoras em grupos musculares definidos. No caso da AFI, o comprometimento é especificamente da fala. O comprometimento na dispraxia central está no planejamento e/ou programação de parâmetro espaço-temporais de sequências de movimentos, o que resulta em erros na produção dos sons da fala e na prosódia, ou em movimentos motores orais e gestos.
KUMIN, L., 2006. ^[16]	Síndrome de Down (SD)	O autor não define SD. O estudo seleciona pais de crianças com SD para responder um questionário sobre a inteligibilidade da fala dos filhos.	Dificuldade em programar voluntariamente, combinar, organizar e sequenciar os movimentos necessários para a fala. As crianças com SD apresentam diminuição da inteligibilidade com o aumento do tempo de enunciação, inconsistência dos erros de fala, dificuldade em sequenciar movimentos e sons orais e um padrão de linguagem receptiva superior à linguagem expressiva. Dificuldades nas habilidades motoras orais, como músculos faciais fracos. As crianças com SD + AFI, geralmente, não começam a falar antes dos 5 anos de idade.
SCHEFFER, IE, 2001. ^[12]	Epilepsia Funções Cognitivas	Indivíduos do estudo apresentaram crises epiléticas desde a primeira infância. Na maioria dos casos, as crises ocorriam à noite, durante o sono e apresentavam as mesmas características das crises rolândicas, começando com uma aura de parestesia peri-oral ou da mão. As manifestações motoras variaram, incluindo atividade tônica e ou clônica unilateral ou bilateral da face e membros superiores. Em alguns casos, havia a perda da consciência, ataxia e problemas na salivação.	A apraxia é uma dificuldade com a organização e coordenação de movimentos de alta velocidade, prejudicando a capacidade de produzir uma fala fluente e inteligível.

Legenda: AFI = Apraxia de Fala Infantil; TEA = Transtorno do Espectro Autista; TDAH = Transtorno do Déficit de Atenção e Hiperatividade; DSF = Distúrbios dos Sons da Fala; ADRESA = Epilepsia Rolândica Autossômica dominante com Dispraxia da Fala; ER(B) = Epilepsia Rolândica (Benigna); DCD = Distúrbio de Coordenação do Desenvolvimento; EEG = Eletroencefalograma; TO = Terapia Ocupacional; DV = Dispraxia Verbal; DO = Dispraxia Oral; DL = Distúrbio de Linguagem.

Discussão

O estudo revisou sistematicamente na literatura a co-ocorrência da AFI nos transtornos do desenvolvimento, identificando os quadros clínicos associados ao AFI, explorando as suas manifestações clínicas.

A epilepsia, uma das comorbidades com maior frequência de aparecimento nos estudos incluídos

na presente revisão, consiste em um distúrbio heterogêneo de questões neurológicas que leva o indivíduo a desenvolver crises convulsivas, principalmente durante o sono ou logo ao despertar. Este distúrbio neurológico pode afetar crianças e adultos e se apresenta de diversas formas, podendo lesionar o cérebro em várias regiões ou em uma específica, porém, até mesmo estas crises focais, o impacto pode ser generalizado^{9,11,12}. O indivíduo epilético pode apresentar desde alterações da consciência

até convulsões. Em virtude disso, pode ter, como consequência, distúrbios cognitivos e neurológicos, assim como sociais¹⁷.

O subtipo de epilepsia mais correlacionado à AFI, conforme os resultados da presente revisão, é a Epilepsia Rolândica Benigna (ERB), abordada nos trabalhos de Scheffer (2000)¹² e de Pal et al (2010)¹¹. Este distúrbio neurológico é classificado como idiopático, dependente da idade do paciente e de evolução benigna. Há estudos que relacionam os déficits de atenção e de linguagem à ERB. No entanto, indivíduos com ou sem convulsões podem apresentar outros distúrbios e/ou suas comorbidades^{18, 19}.

O TEA é um distúrbio de etiologia desconhecida e de prevalência alta. É uma síndrome comportamental que traz déficits motores, sociais e psiconeurológicos ao indivíduo, dificultando a aquisição de linguagem e demais competências cognitivas^{19, 21}. Comorbidades neurológicas, incluindo anormalidades motoras, epilepsia e anormalidades epileptiformes do EEG e distúrbios do sono são relativamente comuns no TEA^{5,13}.

O estudo de Schumacher et al⁵, selecionado para este estudo, - que analisou o caso de um menino bilíngue, de seis anos de idade, com AFI e suspeita de TEA e/ou TDAH - buscou identificar características da síndrome a fim de verificar se se tratava de um novo espectro. Os autores do estudo em questão observaram que a fala conectada e os sinais motores orais do participante mostravam movimentos diferenciados e limitados da língua para o planejamento e/ou programação motora da fala, além de apresentar erros inconsistentes na produção dos fonemas e prosódia alterada, comprovando se tratar de AFI. A ansiedade social, a hipersensibilidade e a distração, presentes no comportamento da criança, justificaram os diagnósticos comórbidos de TEA e TDAH.

TEA e AFI, quando comórbidos, geram diagnósticos tardios. Assim, uma criança com AFI terá, possivelmente, diagnóstico tardio para TEA e vice-versa. Dessa forma, se recomenda que crianças com TEA realizem avaliação para AFI, pois ambos os distúrbios podem vir associados e, para uma intervenção eficaz, se faz necessário um plano terapêutico que contemple ambas as condições, pois, quanto mais precoce for a intervenção, melhor será o prognóstico²².

Dentre os artigos selecionados, um trabalho explora os déficits em funções cognitivas (FC)

como uma condição comórbida à AFI¹⁴. Os autores constataram que, nestes indivíduos, há comorbidades relacionadas à memória sequencial de fala, aos complexos motores e sensoriais, bem como atraso em funções cognitivas. Desta forma, os autores refutaram a AFI como sendo um distúrbio unitário, pois há evidências de que, nessas crianças, as funções executivas apresentam déficits.

A ERB e a AFI são altamente comórbidas. As descargas elétricas no cérebro decorrentes da epilepsia, geralmente, se concentram em áreas perisilvianas, ou seja, em um local onde se encontram as habilidades da linguagem e da praxia oral^{18, 19}. Constatou-se que a epilepsia pode acometer não somente um indivíduo, mas todo um grupo familiar. O estudo de Scheffer (2000)¹² observou que três gerações da mesma família eram afetadas por um tipo de distúrbio que consistia na ocorrência simultânea de AFI e ERB, pois o participante do estudo apresentava crises epiléticas mais intensas, enquanto os membros de sua família apresentavam maior prejuízo na fala. Os exames relativos ao sono, as eletromiografias, os eletroencefalogramas e as avaliações de linguagem dos membros desta família constataram que os déficits motores da fala estavam relacionados às crises epiléticas.

Os déficits em funções cognitivas (FC) foram explorados por dois trabalhos^{14, 15}. Nijland et al (2015)¹⁴ questionaram a possibilidade de crianças com AFI apresentarem déficit em processos não verbais e/ou em um distúrbio que resultava atrasos em funções cognitivas. Com uma amostra de 34 crianças - 17 com diagnóstico de AFI sem outras comorbidades associadas, e as demais com desenvolvimento típico de linguagem; o estudo comparou os dois grupos e concluiu que a AFI não é um distúrbio unitário, visto que as crianças com AFI apresentaram, como comorbidade, déficit no sequenciamento não verbal em níveis diferentes para cada indivíduo participante. Teverovsky, Bickel e Feldman (2018)¹⁵ enfatizam que crianças com AFI podem apresentar prejuízos em FC, apresentando dificuldades em manter a atenção, déficits em aprendizagem (ler, escrever e calcular) e em memória. Os autores salientaram que ambos os distúrbios tendem a coexistir e, quando comórbidos, os prejuízos extrapolam apenas os dos déficits articulatorios.

Estudos genéticos de translocação do gene FOXP2 foram citados para justificar as alterações de fala. O estudo de Pal et al (2010)¹¹, por exemplo,



ao estabelecer relação entre a Epilepsia Rolândica Benigna (ERB) e os Distúrbios dos Sons da Fala (DSF), fez o mapeamento genético e a análise acústica da fala de membros de 38 famílias a fim de investigar a possibilidade de uma rede neural favorável aos DSF. Os autores detectaram a ocorrência de efeitos pleiotrópicos do locus 11p¹³ na AFI e nas ondas agudas centro-temporais do EEG, revelando que famílias com ERB apresentavam também DSF.

Importante salientar que diversas áreas no cérebro, dentre estas as da linguagem, são afetadas pelas descargas elétricas síncronas, excessivas e anormais das células nervosas que causam as crises epiléticas. Portanto, a epilepsia é um distúrbio em rede no qual até mesmo as crises focais têm um impacto generalizado em muitas partes do cérebro, interferindo nas funções cognitivas, na linguagem, no comportamento, na programação motora fina e grossa, entre outras consequências, do indivíduo afetado^{19,9}.

Newmeyer et al (2009)¹³, ao explorarem a relação entre o processamento sensorial e os déficits de produção sonora em crianças com AFI, mostraram diferenças entre esses indivíduos, justificando a necessidade de um acompanhamento realizado por equipe multidisciplinar. Outra pesquisa recente⁶ concluiu que crianças com suspeita de dispraxia verbal (DV) podem apresentar potencial para o distúrbio de coordenação do desenvolvimento (DCD). Os resultados reforçaram a importância do papel do fonoaudiólogo no momento da avaliação, diagnóstico e intervenção, como também da prática multidisciplinar para a obtenção de melhores prognósticos.

O trabalho de Printz et al (2018)¹⁶ explorou a relação entre a AFI e a Dispraxia Oromotora (DO), devido ao aumento de notificação de casos de ambos os distúrbios, gerando, consequentemente, uma demanda maior a fonoaudiólogos e otorrinolaringologistas na Dinamarca, região onde ocorreu o estudo. Os autores, a princípio, conceituaram e diferenciaram Dispraxia Verbal (DV) e Dispraxia Oral (OD) e concluíram que, após a anamnese com os indivíduos da amostra, observações clínicas e análise de exames, com enfoque na função motora, para ambos os distúrbios, a intervenção precoce deve ser recomendada.

Observaram, também, que crianças nascidas prematuras, com e sem comprometimento corticobulbar, apresentaram maior chance de desenvolver DO²⁴. De acordo com Printz et al (2018)¹⁶, a DO

causa dificuldades nas áreas motoras orais além da produção da fala, manifestando-se como a falta de coordenação de movimentos que são realizados voluntariamente ou a pedido (em oposição aos movimentos espontâneos). Portanto, isoladamente, a DO pode gerar implicações no controle motor oral, déficit alimentar e, por consequência, prejudicar o desenvolvimento da fala²⁴.

O tratamento de crianças com AFI e DO, quando concomitante, precisa ser multidisciplinar, precoce, frequente e repetitivo. Cabe ressaltar, também, que, para estes casos, os métodos baseados no planejamento e na programação motora são escolhidos de acordo com a idade da criança, a gravidade da DV/DO e possível comorbidade, além de ser necessário complementar a intervenção com formas alternativas e suplementares de comunicação. O diagnóstico correto destes distúrbios é importante, visto que o prognóstico e o tratamento se diferem de prognóstico e tratamento de outros tipos de dificuldades de fala e oromotoras¹⁶.

A principal característica da AFI, como já mencionado, é a inconsistência nos movimentos articulatorios que resulta numa fala ininteligível. A criança sabe o que quer dizer, mas não sabe como programar os movimentos e produzir os fonemas a fim de articulá-los com clareza e precisão. Iuzini-Seigel et al (2017)²⁵, em seus estudos sobre o tema, comentaram que não há uma lista validada de características patognomônicas da AFI, mas que os sintomas presentes, variáveis entre os indivíduos afetados com o distúrbio - como a falta de consistência na produção dos fonemas, a dificuldade de coarticulação, a diminuição dos contrastes vocálicos e de voz - são presentes também em outros transtornos de linguagem, dificultando e exigindo, portanto, um diagnóstico diferencial.

Crianças com Distúrbio de Linguagem (DL) apresentam características na fala que são semelhantes à AFI, revelando desempenho oromotor deficitário. No entanto, o comprometimento para estes casos se revela também em outros níveis, como o sintático e o semântico. Os autores²⁵ concluíram que crianças com AFI (associada ao DL ou a AFI associada ao DL e a uma comorbidade) apresentam desempenhos equivalentes em todas as avaliações de inconsistência de sons da fala, demonstrando ser esta a característica principal que difere crianças com AFI das com atraso na fala. O estudo de Crestani et al (2013)²⁶ corrobora com a visão acima apresentada, afirmando que DL pode conter diver-

dos subtipos, dentre eles os que envolvem déficits motores. Além disso, AFI e DL contêm traços em comum, tais como a grande prevalência de casos no grupo familiar e as dificuldades apresentadas na aquisição da linguagem escrita.

Sabe-se que o tratamento da AFI deve ser iniciado precocemente, durante o período em que a criança está aprendendo a fazer os sons. A AFI em crianças com Síndrome de Down (SD) é um diagnóstico muito recente. O estudo de Kumin (2006)¹⁷, a fim de aprender mais sobre um fator específico que afeta a inteligibilidade da fala em pacientes com SD, examinou as respostas de uma entrevista realizada com os pais de crianças com esta condição e concluiu que as características mais comuns, apresentadas por estes sujeitos, incluíram diminuição da inteligibilidade com o aumento do tempo de enunciação, inconsistência dos erros de fala, dificuldade em sequenciar movimentos e sons orais e um padrão de linguagem receptiva superior à linguagem expressiva, características também presentes na AFI. Segundo o autor¹⁷, estas crianças estão sendo diagnosticadas com dificuldades nas habilidades motoras orais, tornando-se necessário avaliar e intervir o mais precoce possível. Os resultados deste estudo indicaram que 15,1% das crianças com SD receberam o diagnóstico de AFI, sugerindo que estas crianças estão sendo subdiagnosticadas.

A fala das crianças com SD, segundo Kumin (2006)¹⁷, apresenta características de AFI, tais como: inconsistência na produção dos fonemas; aumento da dificuldade de pronúncia à medida que as palavras, frases e sentenças se tornavam mais ou menos familiares; dificuldades com os sons consonantais e vocálicos, com omissões de sons e sílabas; repertório limitado de sons; dificuldade de imitação; dificuldade com a prosódia e o ritmo da fala; e tateio articulatorio, além de dificuldades com velocidade de fala rápida e com prolongamentos vocálicos pelo menos algumas vezes.

Segundo alguns estudos, verificou-se que crianças com SD e que receberam o diagnóstico de AFI começaram a falar mais tarde, em torno dos cinco anos de idade^{27,28,29}. Portanto, crianças com esta síndrome precisam de intervenção precoce a fim de melhorar o prognóstico¹⁷, visto que apresentam não só dificuldades oromotoras (próprias da SD), como também déficits nas habilidades de programação e sequenciamento dos movimentos da fala (característicos da AFI).

A presença de comorbidades pode gerar um diagnóstico tardio, tanto para a AFI, quanto para o distúrbio secundário, o que pode dificultar a avaliação e a intervenção precocemente, trazendo prognóstico insatisfatório para tais casos. É, portanto, essencial identificar a AFI e possíveis distúrbios comórbidos, para que possa ocorrer um acompanhamento interdisciplinar adequado. Tal acompanhamento deve atender as necessidades da criança e da família, bem como contemplar um plano terapêutico individualizado e personalizado para desenvolver de forma integral as competências cognitivas, linguísticas, comportamentais e psicológicas do sujeito.

Como limitações da presente pesquisa, observa-se a escassez de estudos nacionais e internacionais sobre o tema AFI e comorbidades que comparam diversos e diferentes grupos entre si, gerando um número reduzido para compor esta amostra, o que pode prejudicar, de certa forma, a interpretação dos resultados obtidos. Destaca-se, portanto, a importância de estudos relacionados ao tema e sugere-se que pesquisas sejam realizadas para o avanço desta área de conhecimento.

Conclusão

Constatou-se que, em ordem de maior frequência de ocorrência nos estudos, as principais comorbidades associadas à AFI foram a ERB e o TEA. A comorbidade com maior prevalência, de acordo com esta revisão, foi a epilepsia, mais especificamente a epilepsia rolândica, por afetar as vias neurais responsáveis pela linguagem, prejudicando o desenvolvimento da criança.

Outro distúrbio que se mostrou presente foi o TEA. Neste caso, as características que se destacam são o baixo interesse social, déficits na prosódia e erros na produção da fala que se tornam mais evidentes quando o indivíduo tem AFI. Ainda, estudos na área da genética têm papel fundamental, visto que as alterações e mutações em determinados genes responsáveis pela linguagem podem trazer a possibilidade de uma manifestação comórbida à AFI, especialmente se já há casos na família, tais como o gene FOXP2.

Na presente revisão, notou-se uma escassez de trabalhos que discutam a relação entre a AFI e comorbidades, tanto em âmbito nacional, quanto internacional. Dessa forma, recomenda-se que a temática seja mais profundamente estudada, de-

vendo-se realizar mais estudos envolvendo AFI e suas comorbidades, com populações diversificadas e de diferentes faixas etárias.

Referências

1. ASHA: American Speech and Hearing Association. Childhood apraxia of speech: position statement [Internet]. Rockville: American Speech Language-Hearing Association; 2007.
2. Shriberg LD, McSwenny JL. Classification and misclassification of childhood of apraxia of speech. Phonology Project Technical Report. 2002, 1-27.
3. Payão LMC, De Lavra-Pinto B, Wolff CL, Carvalho Q. Características clínicas da apraxia de fala na infância: revisão de literatura. Letras de hoje. 2012; 47 (1): 24-9.
4. Giannecchini TA, Yucubian-Fernandes A, Maximino LP. Praxia não verbal na fonoaudiologia: revisão da literatura. Rev. CEFAC. 2016; 18 (5): 1200- 8.
5. Schumacher J, Strand KE, Augustyn M. Apraxia, Autism, Attention-Deficit Hyperactivity Disorder: Do We Have a New Spectrum?. 2009; 36 (2):124-6.
6. Duchow H, Lindsay A, Roth K, Schell S, Allen D, Boliek CA. The Co-Occurrence of Possible Developmental Coordination Disorder and Suspected Childhood Apraxia of Speech. Canadian Journal of Speech-Language Pathology and Audiology. 2019; 43(2); 81-93.
7. Shakibayi MI, Zarifian T, Zanjari N. Speech characteristics of childhood apraxia of speech: A survey research. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2019; 126(11): 1-07.
8. Geytenbeek J. The use of Dodd's Model for Differential Diagnosis to classify childhood speech sound disorders. 2018; 61(6): 689-96.
9. Baumer FM, Cardon AL, Porter BE. Language Dysfunction in Pediatric. 2017; 194; 1-19.
10. Souza TNU, Payão LMC, Costa RCC. Apraxia da fala na infância em foco: perspectivas teóricas e tendências atuais. Pró-Fono Revista de Atualização Científica. 2017; 21(1): 75-80.
11. Pal DK, Li W, Clarke T, Lieberman P, Strug LG. Pleiotropic effects of the 11p13 locus on developmental verbal dyspraxia and EEG centrotemporal sharp waves. 2010; 9(8):1004-12.
12. Scheffer I. E. Autosomal dominant rolandic epilepsy with speech dyspraxia. Epileptic Disorders. 2000; 2(4):19-22.
13. Newmeyer AJ, Aylward C, Akers R, Ishikawa K, Grether S, Grauw T, Grasha C, Branca J. Results of the Sensory Profile in Children with Suspected Childhood Apraxia of Speech. 2009; 29(2): 203-18.
14. Nijland L, Terband H, Maassen B. Cognitive Functions in Childhood Apraxia of Speech. 2015; 58(3): 550-65.
15. Teverovsky EG; Bickel JO, Feldman H. Functional characteristics of children diagnosed with Childhood Apraxia of Speech. 2009; 31 (2): 94-102.
16. Printz T, Mehlum CS, Nikoghosyan-Bossen G. Verbal and oral dyspraxia in children and juveniles. 2018; 180(12): 1-6.
17. Kumin L. Speech intelligibility and childhood verbal apraxia in children with Down syndrome. 2006; 10(1): 10-22.
18. Maia C, Moreira A, Martins C. Epilepsia em idade pediátrica: casuística da consulta de pediatria de um hospital distrital. Nasc e Crescer. Birth And Growth Medical Journal. 2017; 26(2): 109-13.
19. Oliveira EPM, Neri ML, De Medeiros LL, Guimaraes CA, Guerreiro MM. Avaliação do desempenho escolar e praxias em crianças com Epilepsia Rolândica. Pró-Fono Revista de Atualização Científica. 2010; 26(2): 10-22.
20. Ballaban-Gil, Tuchman R. Epilepsy and epileptiform EEG: association with autism and language disorders. 2000; 6(4): 300-8.
21. Pinto RNM, Torquato IMB, Collet N, Reichert APDS, Souza Neto VLD, Saraiva AM. Autismo infantil: impacto do diagnóstico e repercussões nas relações familiares. Revista Gaúcha de Enfermagem. 2016; 37(3): 1-9.
22. Maski KP, Jeste SS, Spence SJ. Common Neurological comorbidities in Autism Spectrum Disorders. Current Opinion in Pediatrics. 2011; 23(6) 609-15.
23. Tierney C, Mayes S, Lohs SR, Black A, Gisin E, Veglia M. How Valid Is the Checklist for Autism Spectrum Disorder When a Child Has Apraxia of Speech? 2015; 36(8): 569-74.
24. Northam G, Morgan TA, Fitzsimmons S, Baldeweg T, Liègeois FJ. Corticobulbar Tract Injury, Oromotor Impairment and Language Plasticity in Adolescents Born. 2019; 19(1) :13:45.
25. Iuzzini-Seigel J, Hogan TP, Green JR. Speech Inconsistency in Children With Childhood Apraxia of Speech, Language Impairment, and Speech Delay: Depends on the Stimuli. 2017; 60(5): 1194-210.
26. Crestani AH, et al. Distúrbio específico de linguagem: a relevância do diagnóstico inicial. Revista CEFAC. 2012; 15(1): 228-37.
27. Kumin L, Adams J. Apraxia of speech development and intelligibility in children with Down syndrome. Downs Syndr Res Pract. 2006;10(1): 10-22.
28. Gammom SC. Phonological development in Down syndrome. Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews. 1998; 3(4): 300-06.
29. Coelho JF et al. Perfil de fala na síndrome de Down: apraxia de fala X distúrbio de fala de origem musculoesquelética. Revista CEFAC.2020; 22(5): 1-11.