



UNIVERSIDADE ESTADUAL DE CAMPINAS
Faculdade de Odontologia de Piracicaba

ANA BHEATRIZ MARANGONI MONTES

**AVALIAÇÃO DA OCLUSÃO, FUNÇÕES ORAIS E QUALIDADE DE VIDA EM
CRIANÇAS COM FISSURA UNILATERAL DE LÁBIO E PALATO**

**EVALUATION OF OCCLUSION, ORAL FUNCTIONS AND QUALITY OF LIFE IN
CHILDREN WITH UNILATERAL CLEFT LIP AND PALATE (*)**

PIRACICABA
2016

ANA BHEATRIZ MARANGONI MONTES

**AVALIAÇÃO DA OCLUSÃO, FUNÇÕES ORAIS E QUALIDADE DE VIDA
EM CRIANÇAS COM FISSURA UNILATERAL DE LÁBIO E PALATO**

**EVALUATION OF OCCLUSION, ORAL FUNCTIONS AND QUALITY OF LIFE IN
CHILDREN WITH UNILATERAL CLEFT LIP AND PALATE**

Tese apresentada à Faculdade de Odontologia de Piracicaba da Universidade Estadual de Campinas como parte dos requisitos exigidos para obtenção do título de Doutora em Odontologia, na Área de Odontopediatria.

Thesis presented to the Piracicaba Dental School of the University of Campinas in partial fulfillment of the requirements for the degree of Doctor in Dentistry, in Pediatric Dentistry area.

Orientadora: PROF^a. DR^a. TAÍS DE SOUZA BARBOSA

Coorientadora: PROF^a. DR^a. MARIA BEATRIZ DUARTE GAVIÃO

ESTE EXEMPLAR CORRESPONDE À
VERSÃO FINAL DA TESE DEFENDIDA PELA
ALUNA ANA BHEATRIZ MARANGONI
MONTES, E ORIENTADA PELO PROFA. DRA.
TAÍS DE SOUZA BARBOSA

PIRACICABA

2016

Agência(s) de fomento e nº(s) de processo(s): CNPq, 140170/2014-6

Ficha
catalográfica

Universidade Estadual de Campinas Biblioteca da
Faculdade de Odontologia de Piracicaba Marilene
Girello - CRB 8/6159

Montes, Ana Bheatriz Marangoni, 1983-
M764a Avaliação da oclusão, funções orais e qualidade de vida em crianças
com fissura unilateral de lábio e palato / Ana Bheatriz Marangoni Montes. –
Piracicaba, SP : [s.n.], 2016.

Orientador: Taís de Souza Barbosa.
Coorientador: Maria Beatriz Duarte
Gavião.

Tese (doutorado) – Universidade Estadual de Campinas, Faculdade de
Odontologia de Piracicaba.

1. Fenda labial. 2. Fenda palatina. 3. Qualidade de vida. 4. Maloclusão.
5. Mastigação. I. Barbosa, Taís de Souza, 1980-. II. Gavião, Maria Beatriz
Duarte, 1955-. III. Universidade Estadual de Campinas. Faculdade de
Odontologia de Piracicaba. IV. Título.

Informações para Biblioteca Digital

Título em outro idioma: Evaluation of occlusion, oral functions and quality of life in
children with unilateral cleft lip and palate

Palavras-chave em inglês:

Cleft lip
Cleft palate
Quality of
life
Malocclusio
n
Mastication

Área de concentração:

Odontopediatria **Titulação:** Doutora em

Odontologia **Banca examinadora:**

Taís de Souza Barbosa [Orientador]
Sandra Maria Herondina Coelho Ávila de Aguiar
João Carlos da Rocha
Maria Beatriz Borges de Araujo Magnani
Maria da Luz Rosario de Sousa

Data de defesa: 23-02-2016

Programa de Pós-Graduação: Odontologia



UNIVERSIDADE ESTADUAL DE CAMPINAS
Faculdade de Odontologia de Piracicaba



A Comissão Julgadora dos trabalhos de Defesa de Tese de Doutorado, em sessão pública realizada em 23 de Fevereiro de 2016, considerou a candidata ANA BEATRIZ MARANGONI MONTES aprovada.

PROF*. DR*. TAÍS DE SOUZA BARBOSA

PROF*. DR*. SANDRA MARIA HERONDINA COELHO ÁVILA DE AGUIAR

PROF. DR. JOÃO CARLOS DA ROCHA

PROF*. DR*. MARIA BEATRIZ BORGES DE ARAUJO MAGNANI

PROF*. DR*. MARIA DA LUZ ROSARIO DE SOUSA

A Ata da defesa com as respectivas assinaturas dos membros encontra-se no processo de vida acadêmica do aluno.

DEDICATÓRIA

Aos meus pais Abílio e Sônia e meu irmão Rafael pela confiança e apoio e ao meu marido Wagner por todo suporte, zelo e perseverança que tornou possível não somente a conclusão deste trabalho, mas a novos planos e sonhos em minha vida.

À minha amiga e orientadora, Taís de Souza Barbosa, que me deu muito apoio e confiança e soube extrair o melhor de mim.

E aos pacientes e funcionários do Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC/USP), sem os quais este trabalho não seria possível.

AGRADECIMENTOS ESPECIAIS

À Prof^a. Dr^a. Tais de Souza Barbosa, minha orientadora, a quem devo muito pelo sucesso deste trabalho, seguir seus passos não é tarefa fácil, pois sua competência e dedicação são ímpares. Agradeço por toda compreensão e amizade, por todos os momentos agradáveis nestes últimos longos anos. Aprendi com você muito mais que pesquisar e escrever, mas também a seguir em frente, a se reerguer e continuar a lutar por nossos sonhos. E, além disso, a nunca deixar de valorizar nossa família e nossa vida pessoal. Seus gestos delicados e sua competência marcaram para sempre minha vida e nossa amizade é um presente sem preço.

À Prof^a. Dr^a. Maria Beatriz Duarte Gavião, minha coorientadora, que me acolheu nesta instituição e me acompanhou durante todo meu processo de aprendizagem desde o Mestrado como minha orientadora, proporcionando crescimento científico, profissional e pessoal. Agradeço pela confiança, dedicação, paciência, ensinamentos e, principalmente, pela disponibilidade, mesmo em meio a inúmeros compromissos e afazeres.

À Prof^a. Dr^a. Thais Marchini de Oliveira Valarelli, minha colaboradora especial da Faculdade de Odontologia de Bauru/USP, que foi uma incentivadora desta pesquisa desde que conheceu meu trabalho em pesquisa ao final de meu mestrado e com uma simples sugestão reacendeu uma chama em meu coração que me trouxe de volta ao convívio dos portadores de anomalias craniofaciais. Sua confiança foi fundamental para a execução deste trabalho, assim como sua delicadeza em me colocar dentro do renomado HRAC/USP.

AGRADECIMENTOS

À Universidade Estadual de Campinas, na pessoa do seu Magnífico Reitor Prof. Dr. José Tadeu Jorge; à Faculdade de Odontologia de Piracicaba, UNICAMP, na pessoa do Diretor Prof. Dr. Guilherme Elias Pessanha Henrique e Diretor Associado Prof. Dr. Francisco Haiter Neto. À Prof^a. Dr^a. Cínthia Pereira Machado Tabchoury, Presidente da Comissão de Pós-Graduação, FOP/UNICAMP; à Prof^a. Dr^a. Juliana Trindade Clemente Napimoga, Coordenadora do Programa de Pós-Graduação em Odontologia, FOP/UNICAMP.

À Coordenadoria de Aperfeiçoamento de Pessoal de Ensino Superior (CAPES) e ao Conselho Nacional de Desenvolvimento Científico e Tecnológico (CNPq) pela concessão da Bolsa de Doutorado.

Ao Hospital de Reabilitações de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC/USP) por autorizar a execução desta pesquisa e abrir as portas do incrível universo da ciência e humanização. Agradeço às Prof^a e Odontopediatras Beatriz Costa, Cleide Felício de Carvalho Carrara, Gisele da Silva Dalben, Márcia Ribeiro Gomide, Renata de Almeida Pernambuco que me receberam carinhosamente durante o longo e árduo período de coleta da pesquisa e que me trouxeram imensos aprendizados sobre trabalhar com amor, ter carinho e respeito pelos pacientes, buscar compreensão e paciência. Carrego vocês em meu coração e o HRAC/USP como um lugar mágico que devolve sorrisos e esperança. Sem esquecer das amizades preciosas que este lugar me proporcionou: Viviane Mendes Fernandes, Paula Karine Jorge, Adriana Cristina Silveira Pereira Franco, Luciana Lourenço Ribeiro Vitor, Tatiana Yuriko Kobayashi entre outras que partilharam do sentimento de conseguir voluntários e partilhá-los, quando possível; companheiras de esperas intermináveis e que proporcionaram boas conversas e conquistaram seu lugar em meu coração.

À Diretoria de Ensino de Piracicaba – Secretaria de Estado da Educação de São Paulo, que permitiu a realização desta pesquisa nas escolas desta cidade. Às escolas Jaçanã Altair Pereira Guerrini e Honorato Faustino que me acolheram e com quem tive uma harmoniosa relação de trabalho com coordenadores e diretores, e às crianças que participaram desta pesquisa tornando-a possível.

Aos meus pais, Abílio Salvador Montes Gonçalves e Sonia Maria Nalello Marangoni Montes, pelo amor incondicional, exemplo de perseverança, dedicação, ética profissional e competência; agradeço pela confiança; por me auxiliar em todo o processo, de diferentes formas, com a distância necessária para que eu pudesse superar os obstáculos da vida sozinha e amadurecer com as superações. Ao meu irmão Rafael Marangoni Montes, pelo

exemplo de dedicação, carisma e superação, pelas presenças pontuais e fundamentais, pela parceria apesar da distância e do pouco contato direto, e mesmo assim nunca deixou de ser um porto seguro.

À minha família que, apesar distante, sempre se mostrou presente para me proporcionar apoio, motivação e conforto. Especialmente minhas avós Ivete Nalessio Marangoni e Catarina Davina Bazan, meus tios Silvia, Arnaldo, Décio, Elen, Syomara, Amildo e os primos Gisela, Gabriel, Arnaldo, Fernando, Henrique, Alessandra, Ianca, Anik e Maria Fernanda; agradeço a compreensão pelas minhas longas ausências e pelo carinho que sempre vinha quando eu mais precisava. E também à tia Berê (Berenice Serrato), que esteve presente na minha educação e ensino desde sempre e persiste torcendo e apoiando, fez questão de comemorar o término do mestrado comigo e nunca deixa de se orgulhar.

Às Profas. Dras. da área de Odontopediatria Fernanda Miori Pascon, Marinês Nobre dos Santos Uchôa e Regina Maria Puppim Rontani, pelos ensinamentos e direcionamentos de imensa contribuição para meu crescimento profissional. À profa dra. Paula Castelo Ferrua por todo tempo cedido, ensinamentos e apoio. Ao Prof. Dr. Erico Barbosa Lima pelos valiosos ensinamentos na Clínica de Odontologia Infantil.

Aos Profs. Drs. da área de Ortodontia João Sarmento Pereira Neto, Maria Beatriz Borges de Araújo Magnani, Vânia Célia Vieira de Siqueira e Eduardo César Almada Santos, agradeço os ensinamentos, disponibilidade e parcerias que sempre foram importantes para meu aprendizado e crescimento pessoal e profissional.

Ao amigo e técnico do laboratório da Odontopediatria, Marcelo Corrêa Maistro por toda ajuda nestes anos de pós-graduação e pelo incentivo e conversas agradáveis.

A todos os colegas de Graduação e Pós-Graduação, pela amizade, vivência acadêmica e apoio, especialmente às colegas de turma Alexsandra Shizue Iwamoto, Bruna Raquel Zancopé, Luciana Tiemi Inagaki, Maria Carolina Salomé Marquezin, Thayse Rodrigues de Souza, Vanessa Benetello Dainezi, sem deixar de citar os queridos Luiz Filipe Barbosa Martins e Micaela Cardoso, entre tantos outros. À amiga Livia Pagotto Rodrigues, companheira incansável, exemplo de benevolência e persistência que além de expandir meu círculo de amizade, foi uma grande parceira em todos estes anos de pós-graduação.

Aos amigos também distantes, sempre incentivando a busca pelo sucesso e promovendo amparo, bem-estar e entretenimento, Nadia Cunha, Renata Cristina Rosa, Adriano Marangoni, Tatiane Oliveira, Larissa Faria, Rebeca Pontes, Renata Matuoka, Bianca Reginato, Karen Reginato, Rafael Hespanhol, José Carlos Júnior, Gabriel Ferrari, Mariana Agustinho e Fernanda Kobayashi. Todos me apoiaram em momentos cruciais para que a

conclusão deste trabalho fosse possível.

Ao meu marido Wagner Justino Alves que apareceu em minha vida no momento mais improvável para início de um relacionamento: a coleta de dados. E me acompanhou semanalmente, vendo meus sacrifícios e cansaço; e com muita compreensão e apoio fez parte das maiores lembranças e emoções do longo processo para conclusão do doutorado. Sem você, tudo teria sido muito mais difícil e hoje meus projetos de futuro talvez não fossem tão sólidos.

Por fim agradeço às colegas professoras da UNOESTE, universidade que me acolheu como professora da Odontologia e que me proporciona dia-a-dia amadurecimento e aprendizado profissional e pessoal incalculáveis, a certeza de que todo meu esforço na pós-graduação foram válidos. Ser professor é uma maravilhosa aventura. Agradeço com carinho especial aos profs. Adilson de Oliveira, Cláudia Coelho, Cristhiane Amaral, Danilo Louzada, Eliane Pizi, Graziela Galhano, Gustavo Logar, Karine Takashi e Luiz Rotta pelo convívio enriquecedor e pela compreensão.

EPÍGRAFE

“A persistência é o menor caminho do êxito”.

(Charles Chaplin)

RESUMO

Objetivos: Avaliar as funções orofaciais e a qualidade de vida relacionada à saúde bucal (QVRSB) e suas associações (*Estudo 1*) e verificar a relação das funções orofaciais com a maloclusão, performance mastigatória e paladar em crianças com fissura unilateral de lábio e palato (FULP) (*Estudo 2*). **Material e Métodos:** Estes estudos caso-controle foram compostos por pacientes com FULP (selecionados no Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo – HRAC/USP, Bauru, SP) sob o mesmo protocolo de tratamento, pareados por gênero e idade com os controles (selecionados de escolas públicas de Piracicaba, SP), totalizando 54 crianças de oito a dez anos de idade em cada grupo. O *Estudo 1* utilizou as versões em Português Brasileiro do *Nordic Orofacial Test-Screening* (NOT-S) e do *Child Perceptions Questionnaire* (CPQ8-10) para avaliar as funções orofaciais e a QVRSB, respectivamente. O *Estudo 2* avaliou a presença e gravidade de maloclusões dos pacientes utilizando o Goslon Yardstick Index (GYI) e dos controles pelo Índice de Necessidade de Tratamento Ortodôntico – Componente Dentário (IOTN). Em ambos os grupos foi avaliada a performance mastigatória utilizando alimento teste artificial (Optocal) e a percepção do paladar utilizando quatro soluções líquidas (doce, salgado, amargo e azedo) em três diferentes concentrações. A análise dos dados consistiu de estatística descritiva, testes de comparação e correlação e análise de regressão linear para verificar as variáveis independentes associadas com os escores do NOT-S. **Resultados:** No *Estudo 1*, o grupo FULP apresentou maiores escores do NOT-S (4,3 vs. 2,8, $p<0,0001$), isto é, apresentaram mais frequentemente disfunções relacionadas à respiração, simetria/expressão facial e fala. O grupo FULP apresentou pouca diferença em relação a QVRSB do grupo controle, com maior comprometimento do domínio bem-estar social. Na análise de correlação, os escores do CPQ8-10 estiveram positivamente correlacionados com os escores do NOT-S total e entrevista no grupo FULP. O estudo 2 verificou que mais de metade das crianças com FULP necessitavam de cirurgia ortognática (escore GYI = 5), enquanto 66,7% dos controles apresentou leve/pequena necessidade de tratamento (escore IOTN = 2), sendo que não houve associação entre a maloclusão e as disfunções orofaciais. O grupo FULP apresentou pior performance mastigatória (maiores valores do X_{50} e valor de b) e menor percepção do sabor salgado do que os controles. Além disso, houve correlação positiva entre a disfunção orofacial e a performance mastigatória no grupo FULP. Na análise de regressão linear múltipla, também observou-se relação significativa entre a disfunção orofacial e a performance mastigatória. **Conclusões:** A presença de FULP foi associada com disfunções orofaciais,

resultando no comprometimento dos aspectos sociais do dia a dia, além de acarretar prejuízos à oclusão, a performance mastigatória, percepção de paladar.

Palavras chave: criança, fissura labial, fissura palatina, avaliação da deficiência, qualidade de vida, assimetria facial, maloclusão, mastigação, paladar.

ABSTRACT

Objectives: To evaluate the orofacial functions and oral health-related quality of life (OHRQoL) and their associations (*Study 1*) and to assess the relation between orofacial functions with malocclusion, masticatory performance and taste in children with cleft lip and palate (UCLP) (*Study 2*). **Material and Methods:** Both case-control studies were composed by patients with UCLP (selected from the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies, University of São Paulo, Bauru, SP) under the same treatment protocol, matched by gender and age with controls (selected from public schools of Piracicaba, SP), totaling 54 eight- to ten year-old children in each group. *Study 1* used the Brazilian Portuguese versions of the Nordic Orofacial Test-Screening (NOT-S) and the Child Perceptions Questionnaire (CPQ₈₋₁₀) to evaluate orofacial functions and OHRQoL, respectively. *Study 2* evaluated the orthodontic treatment need of patients using the Goslon Yardstick Index (GYI) and controls using the Index of Orthodontic Treatment Need – Dental Health Component (IOTN-DHC). In both groups, masticatory performance was assessed with artificial food test (Optocal); and taste perception using four liquid solutions (sweet, salty, bitter or acid) in three different concentrations. Data analysis involved descriptive statistics, comparison and correlation tests and linear regression analysis to verify the independent variables associated with NOT-S scores. **Results:** In *Study 1*, the UCLP group had higher scores NOT-S (4.3 vs. 2.8, P<0.0001), ie, were more often disorders related to breathing, symmetry / facial expression and speech. The UCLP group showed little difference from QVRSB the control group, with greater involvement of the social well-being domain. In the correlation analysis, CPQ₈₋₁₀ scores were positively correlated with the scores of the total NOT-S and interview UCLP group. *Study 2* The descriptive analysis showed that found that more than half of children with Fulp needed orthognathic surgery (GYI = 5 score), while 66.7% of the controls showed a slight / small need for treatment (IOTN score = 2), no association between malocclusions and orofacial disorders. In comparison analysis, UCLP group had higher scores NOT-S examination, that is, more often disorders related to breathing, symmetry / facial expression and speech. In addition, UCLP group reported greater involvement of the social welfare field than controls. The UCLP group had worse masticatory performance (higher values X50 and value b) and lower perception of salty taste than controls. In the correlation analysis, CPQ₈₋₁₀ scores were positively correlated with the scores of the total NOT-S and interview UCLP group. In addition, there was a positive correlation between masticatory performance impairments and the orofacial dysfunction in UCLP group. In the multiple linear regression

analysis also found a significant relationship between orofacial dysfunction and performance mastigatória. Conclusions: The presence of UCLP was associated with orofacial dysfunctions, resulting in the impairment of the social aspects of everyday life, besides causing damage to occlusion, masticatory performance, perception of taste.

Key words: child, cleft lip, cleft palate, disability evaluation, quality of life, facial asymmetry, malocclusion, mastication, taste.

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO	17
2 ARTIGOS	23
2.1 Artigo: Orofacial functions and oral health-related quality of life in children with unilateral cleft lip and palate: a case-control study	23
2.2 Artigo: Occlusal, chewing and tasting characteristics associated with orofacial dysfunctions in children with unilateral cleft lip and palate: a case-control study.....	41
3 DISCUSSÃO.....	64
4 CONCLUSÃO	70
REFERÊNCIAS	71
APÊNDICES	81
Apêndice 1 – Termo de Consentimento Livre e Esclarecido.....	81
Apêndice 2 – Ficha Clínica	84
ANEXOS.....	85
Anexo 1 – Certificado do Comitê de Ética em Pesquisa	85
Anexo 2 – Nordic Orofacial Test – Screening.....	86
Anexo 3 – Child Perceptions Questionnaire 8-10.....	92
Anexo 4 – Índice de Tratamento Ortodôntico – Componente Dentário	101

1 INTRODUÇÃO

As fissuras orofaciais são alterações congênitas frequentes resultantes da falha na fusão dos processos medial, lateral e maxilar, que ocorre aproximadamente entre a quarta e nona semanas de vida intrauterina (WHO, 2004). São condições multifatoriais que envolvem muitos fatores, como fatores étnicos e geográficos, status socioeconômico, genética e fatores ambientais, tais como deficiência vitamínica de ácido fólico e vitamina B12, tabagismo, consumo de álcool (Waltrick-Zambuzzi et al., 2015), uso de medicamentos e exposição a algumas substâncias químicas (Bilinska e Osmola, 2015). As fissuras orofaciais acometem 1 em cada 700 nascidos vivos em todo o mundo (Rodrigues et al., 2009; Martelli et al., 2012); enquanto no Brasil a prevalência varia de 0,19 a 1,54 em cada 1.000 nascimentos (Martelli-Júnior et al., 2007; Rodrigues et al., 2009). Estas alterações orofaciais podem ser classificadas em três categorias, fissura isolada de lábio, fissura de lábio e palato (com extensão do lábio superior até o palato duro e mole) e fissura isolada de palato; acometendo um ou ambos os lados da boca (fissura unilateral ou bilateral, respectivamente) (Farronato et al., 2014). Entre estas, a mais frequente é fissura de lábio e palato (FLP), observada em 53,4% dos pacientes Brasileiros e predominantemente no gênero masculino do que no feminino (59,8% vs. 45,5%; 1,56:1) (Martelli et al., 2012). Além disso, o envolvimento unilateral da FLP é mais frequente do que o bilateral (26,19% vs. 13,49%) em crianças Brasileiras (Martelli-Júnior et al., 2007).

As fissuras unilaterais de lábio e palato (FULP) resultam em complicações anatômicas, mais frequentemente, mordida cruzada e maloclusão esquelética de Classe III (Paradowska-Stolarz e Kawala, 2014); e funcionais, principalmente distúrbios da fala (Hortis-Dzierzbicka et al., 2012). A gravidade das fissuras depende do tipo e da extensão e pode afetar o prognóstico da oclusão e os métodos necessários para a reabilitação (Harila et al., 2014). As fissuras podem ser divididas em três grupos: fissura isoladas de lábio, quando atinge apenas o lábio, com ou sem envolvimento do rebordo alveolar e asa do nariz, podendo ser unilateral ou bilateral; fissura isolada de palato, quando atinge apenas o palato duro e/ou mole; e fissura unilateral de lábio e palato (FULP), quando compromete lábio, rebordo alveolar e palato duro e mole; e fissuras pós-forame quando atinge apenas o palato secundário (Farronato et al., 2014). Martelli et al. (2012) encontraram 53,4% de prevalência de FULP com maior frequência no gênero masculino.

Segundo a Organização Mundial da Saúde, as FULP são de grande importância para a saúde dentária, pois afetam as funções oro-buco-faciais, acarretando prejuízos psicológicos e estéticos (Hunt et al., 2005). Jokovic et al. (2002) avaliaram o impacto na qualidade de vida relacionada à saúde bucal (QVRSB) de crianças com alterações orofaciais e verificaram que as fissuras labiais e/ou palatinas parecem causar impacto negativo QVRSB de crianças de 11 a 14 anos.. Dak-Albab e Dashash (2013) encontraram impactos negativos na QVRSB em crianças Sírias com FULP e resultados similares foram encontrados em crianças brasileiras (Guedes et al., 2014). Além disso, enquanto alguns estudos sugerem não haver diferenças na QVRSB de crianças com e sem FULP (Wogelius et al., 2009), outros relataram pior QVRSB no grupo com FULP (Ward et al., 2013).

Atualmente, a mensuração da percepção de QVRSB pode ser considerada como um componente adicional para avaliar o resultado de diferentes tratamentos de pacientes com FULP de modo mais abrangente, considerando que a avaliação dos resultados frequentemente levantam preocupações sobre a estética facial, a fala e prejuízos sociais (Munz et al., 2011; Hortis-Dzierzbicka et al., 2014; Desmedt et al., 2015). Uma recente revisão de literatura com nove artigos sobre QVRSB em crianças com FULP (Queiroz Herkrath et al., 2015), verificou impacto negativo da FULP na QVRSB associado a recomendações cirúrgicas, saúde mental, problemas na fala, tipo de fissura e idade. Na avaliação da QVRSB é importante considerar a faixa etária, pois as crianças e adolescentes apresentam diferentes habilidades cognitivas que determinam o nível de compreensão para cada popualção (Barbosa e Gavião, 2011). Segundo Jokovic et al. (2004), as medidas de auto-relato em idades específicas são necessárias para adaptar diferenças no auto-conceito de crianças, compreensão de sentimentos e habilidade de interpretar o comportamento de outras pessoas; e em termos de desenvolvimento cognitivo, emocional, social e de linguagem, a idade de 8 a 10 anos é homogênea. Apesar deste conhecimento, estudos sobre os fatores relacionados à QVRSB em crianças com FULP ainda são escassos.

Diversos aspectos podem ser avaliados em indivíduos com FULP, tais como aparência, fala, crescimento facial, interação psicossocial (Klassen et al., 2012). A QVRSB pode estar comprometida em crianças com FULP em função das disfunções orofaciais que comprometem ações vitais como respiração, mastigação e deglutição, postura muscular da boca e da língua, e ainda as bases para a interação social incluindo fala, comunicação

emocional, expressão facial e aparência (Leme et al., 2013). Apesar de existirem estudos que avaliaram a fala, as funções musculares e a assimetria facial em crianças com FULP (Fudalej et al., 2012a; Hortis-Dzierzbicka et al., 2012; Barsi et al., 2013; Hortis-Dzierzbicka et al., 2014; Kuijpers et al., 2015; van Lierde et al., 2014), não há estudos sobre o impacto das funções orais na QVRSB. Além disso, não há uma padronização no método de coleta e análise dos dados relacionados às funções orais de crianças com FULP.

O Nordic Orofacial Test – Screening (NOT-S) é um instrumento que permite avaliar as funções orofaciais de maneira abrangente, com o objetivo de identificar as áreas de disfunção com maior necessidade de atenção, o qual tem sido utilizado em diversas populações para investigar a prevalência e os fatores associados às disfunções orofaciais (Bakke et al., 2011; Saeves et al., 2011; Åsten et al., 2014; Bergendal et al., 2014; Amato et al., 2015; Edvinsson e Lundqvist, 2015). O instrumento NOT-S, traduzido e validado para o Português Brasileiro por Leme et al. (2011), tem a capacidade de mensurar características relacionadas à mastigação, fala, assimetria muscular, entre outras, permitindo comparações mais objetivas dos resultados entre estudos (Bakke et al., 2007). Além disso, pode ser utilizado para comparações com outras avaliações funcionais em uma mesma população (Marquezin et al., 2013). O NOT-S tem demonstrado ser um método de triagem válido e confiável para avaliar disfunções orofaciais, e correlações significativas com a QVRSB têm sido encontradas em diferentes populações (Leme et al., 2013; Bergendal et al., 2014).

A avaliação das funções orais em crianças com FULP é muito importante, especialmente devido à alta prevalência de maloclusões, principalmente mordida cruzada posterior e anterior, as quais podem resultar em assimetrias faciais, alterações na postura de língua, alterações no padrão de deglutição e disfunções temporomandibulares na fase adulta (Melinck et al., 2010; Tecco e Festa, 2010). Vettore e Sousa Campos (2011) verificaram que 82,1% das crianças com FULP, com idade entre seis e 12 anos, apresentavam maloclusões. As cirurgias plásticas para fechamento labial e palatoplastia proporcionam melhor na estética e função, mas a cinta muscular produzida pela cirurgia pode impedir o crescimento da maxila, resultando em mordida cruzada anterior e posterior. As maloclusões em crianças com FULP afetam tanto as estruturas dentofaciais quanto o desenvolvimento da relação vertical, anteroposterior e transversal da oclusão (Hsieh et al., 2012; Harila et al., 2014). A avaliação da relação oclusal ajuda a selecionar os pacientes com maior necessidade e prioridade de

tratamento ortodôntico e aqueles que apresentariam maiores benefícios frente ao tratamento (Ireland et al., 2014). Algumas maloclusões podem comprometer a estética facial, sendo as fissuras unilaterais frequentemente associadas à assimetria facial (Kuijpers et al., 2015), principalmente da região nasolabial (Fudalej et al., 2012b). Estudos prévios avaliaram o impacto da assimetria decorrente da FULP nas funções orais, tais como força de língua e lábio (van Lierde et al., 2014), hábitos orais (Barsi et al., 2013), respiração e deglutição (Melinck et al., 2010) e fala (Hortis-Dzierzbicka et al., 2014).

A mastigação é uma importante função do sistema estomatognático, desenvolvida a partir de experiências aprendidas e, quando adequada proporciona estímulo para o desenvolvimento harmônico da maxila e mandíbula (Ono et al., 1992). O alimento é submetido na cavidade bucal a uma série de processos químicos e mecânicos, iniciado pela Trituração pelos dentes, diluição e redução pela saliva, resultando em um bolo alimentar que será deglutido e digerido (van der Bilt et al., 2010). A redução das partículas de alimento pode ser mensurada pela determinação da capacidade individual em triturar o alimento-teste, determinando assim a performance mastigatória (Gavião et al., 2007). Este processo é multifatorial e complexo, dependente de fatores como força de mordida, atividade dos músculos da mastigação e número de dentes em oclusão (Fontijntekamp et al., 2004). A quantificação da performance mastigatória pelo peneiramento das partículas de alimento fragmentadas após a Trituração e fragmentação de alimento teste pela mastigação é um método comprovadamente confiável (Speksnijder et al., 2009). O uso de alimento-teste para avaliar a performance mastigatória é preferível aos alimentos naturais, pois as propriedades físicas do primeiro apresentam menor variação, além do tamanho e formato das partículas serem reproduzíveis (Pocztaruk et al., 2008), minimizando a variabilidade dos resultados finais (Gavião et al., 2007).

A fragmentação e umidificação do alimento é a principal função da mastigação, mas esta também envolve sensações relacionadas ao sabor e ao prazer em comer (Pereira et al., 2006). Outro fator importante das funções orais é a sensibilidade gustativa, que é ativada durante a fase inicial da ingestão de partículas de alimentos, permitindo a identificação de nutrientes essenciais e de compostos prejudiciais e potencialmente tóxicos (Pedersen et al., 2002). Alterações na sensibilidade gustativa podem acarretar em mudanças comportamentais, à recusa de determinados alimentos os quais podem ser secos, picantes ou crocantes, e à

preferência por alimentos doces. A alteração na dieta pode causar problemas de ingestão nutricional, atrofia dos músculos mastigatórios e diminuição da capacidade mastigatória (Dusek et al., 1996). Com relação à fala, Whitaker et al. (2012) não encontraram associação entre o aumento no ciclar e a maior severidade da relação entre os arcos dentários. O impacto de diferentes tipos de cirurgias palatinas na fala ainda é um tema controverso. Ainda, a comparação entre diferentes procedimentos de tratamento é limitada pela ausência de métodos padronizados para a coleta e análise das funções orais.

O paladar é definido como a sensação obtida quando o alimento sólido ou líquido é colocado dentro da boca e é dependente das reações ao estímulo químico dos receptores gustativos e olfativos. É caracterizado pela capacidade de reconhecer o aroma, o gosto e a sensibilidade tátil quanto à química de substâncias que entram em contato com tais receptores específicos (Vieira, 2010). A língua é o principal órgão responsável pelo paladar, devido aos receptores presentes nas papilas gustativas provenientes principalmente dos nervos glossofaríngeo e lingual. Todavia, lesões de ramos faríngeos do nervo glossofaríngeo podem ocorrer por cirurgias em orofaringe como tonsilectomia ou uvulopalatofaringoplastia causando prejuízos à sensação gustativa (Bromley e Doty, 2012). As FULP são caracterizadas por alteração na fusão dos processos faciais embrionários responsáveis pela formação da face, podendo acometer o lábio, o rebordo alveolar, o palato duro e o palato mole e, consequentemente, alteração na faringe e esfincter velofaringeo. Estas condições podem também comprometer as inervações provenientes do nervo glossofaríngeo e consequentemente na sensação gustativa. O sabor dos alimentos é mais apreciado quando a corrente aérea expiratória atravessa a área olfativa nasal e quando há bloqueio da nasofaringe a sensibilidade gustativa fica menos acentuada. Crianças com respiração predominantemente bucal apresentam redução da palatabilidade (Cunha et al., 2011), e 75% das crianças com fissura unilateral apresentam respiração predominantemente bucal, no entanto o impacto das FULP na percepção gustativa ainda é desconhecido.

O tratamento de pacientes com FULP envolve uma equipe multidisciplinar, incluindo pediatria, cirurgia bucomaxilofacial, otorrinolaringologia, prótese dentária, fonoaudiologia, genética, entre outros. A reabilitação é iniciada nos primeiros meses de vida, perpetuando até a idade adulta. Devido à complexidade, a reabilitação completa dos pacientes com FULP requer o conhecimento das alterações do sistema estomatognático (Neville, 2002).

Neste sentido, mostra-se importante avaliar os fatores que comprometem o funcionamento das estruturas biológicas, especialmente aqueles relacionados às funções orais. Ainda, é importante compreender as associações diretas das FULP com as estruturas e funções do sistema estomatognático, a fim de estimar as possibilidades de tratamento e planejar a alocação de recursos para esses pacientes. De acordo com nosso conhecimento, o presente estudo é o primeiro a avaliar a associação das disfunções orofaciais, como resultado da FULP, com as características oclusais, performance mastigatória, paladar e QVRSB em crianças de oito a dez anos de idade com FULP.

2 ARTIGOS

2.1 Artigo: Orofacial functions and oral health-related quality of life in children with unilateral cleft lip and palate: a case-control study

Ana Bheatriz Marangoni Montes¹, Thais Marchini Oliveira², Maria Beatriz Duarte Gavião¹,
Taís de Souza Barbosa¹

¹ Department of Pediatric Dentistry, Piracicaba Dental School, State University of Campinas,
Piracicaba/SP, Brazil

² Department of Pediatric Dentistry, Bauru School of Dentistry, University of São Paulo,
Bauru/SP, Brazil

E-mails:

anabheatriz@yahoo.com.br

marchini@usp.br

mbgaviao@fop.unicamp.br

tais_sb@fop.unicamp.br

Correspond with:

Prof. Taís de Souza Barbosa

Faculdade de Odontologia de Piracicaba/UNICAMP – Departamento de Odontologia Infantil
– Área de Odontopediatria

Address: Av. Limeira 901, Piracicaba/SP, Brasil / Zip code: 13414-
903 Phone: 55 19 2106 5287 – Fax: #55-19-21065218

E-mail: tais_sb@fop.unicamp.br

ABSTRACT

Aim: To evaluate the orofacial functions and oral health-related quality of life (OHRQoL) of children with unilateral cleft lip and palate (UCLP). **Material and Methods:** This case-control study was composed by patients with UCLP (selected from the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies, University of São Paulo, Bauru, SP), matched by gender and age with controls (selected from public schools of Piracicaba, SP), resulting in 108 eight- to ten year-old children. Orofacial functions were evaluated using the Brazilian Portuguese version of the Nordic Orofacial Test-Screening (NOT-S). OHRQoL was assessed using the Brazilian Portuguese version of the Child Perceptions Questionnaire (CPQ₈₋₁₀). Data were analyzed using Kolmogorov-Smirnov, Chi-square/Fisher-Exact, Mann-Whitney and Spearman's correlation tests. **Results:** UCLP group had higher NOT-S total (4.3 vs. 2.8, p<0.0001) and examination scores (2.2 vs. 0.5, p<0.0001) than controls. Dysfunctions related to breathing, facial symmetry/expression and speech (77.8% vs. 27.8%, p<0.01) were more frequent among UCLP patients than healthy children. UCLP group reported more negative impacts only on social well-being domain than controls (4.4 vs. 2.7, p<0.01) in OHRQoL assessment. There was a significant difference between the two groups in their ratings of the extent to which their oral or orofacial condition affected their life overall, with control group perceiving it as somewhat better than UCLP patients (48.1 vs. 20.4%; p<0.05). There was positive correlation between global rating of oral health and NOT-S total ($r=0.41$, p<0.01) and interview ($r=0.38$, p<0.01) scores. CPQ₈₋₁₀ total and all domain scores were positively correlated with NOT-S total and interview scores, except of oral symptoms and NOT-S total scale in UCLP group. **Conclusions:** The presence of UCLP was associated with clinical signs of orofacial dysfunctions related to breathing, facial symmetry/expression and speech. Moreover, there were few differences in the OHRQoL of UCLP patients compared with healthy children, with negative impacts only on social well-being domain. Finally, the more frequent reporting orofacial dysfunction, the greater the impairment of quality of life as a result to the UCLP in this population.

Key words: child, cleft lip, cleft palate, disability evaluation, facial asymmetry quality of life.

INTRODUCTION

Unilateral cleft lip and palate (UCLP) is the second most common birth defect and the first craniofacial abnormality, affecting, on average, one in 575 to almost 8 in 1.000 newborns (Rodrigues et al., 2009; Matthews et al., 2015). UCLP can results in occlusal and anatomical alterations, most frequently crossbite and skeletal class III malocclusion (Paradowska-Stolarz e Kawala, 2014), and also seems to impact negatively the oral health-related quality of life (OHRQoL) of the patients (Jokovic et al., 2004). Although demographic, socioeconomic, behavioral and psychosocial factors have been linked to OHRQoL, there is no agreement on the predictors in general and specific populations (Queiroz Herkrath et al., 2015). Previous studies found worse OHRQoL among Syrian (Dak-Albab e Dashash, 2013) and Brazilian children with UCLP (Guedes et al., 2014). Moreover, while some studies suggest no differences on OHRQoL scores between children with or without UCLP (Wogelius et al., 2009), others report found lower negative impacts among UCLP patients (Ward et al., 2013).

Actually, the perceived OHRQoL measures may be considered as an additional component to evaluate treatment of UCLP patients in a more comprehensive way, considering that the assessment of outcomes frequently raise concerns about facial appearance, speech and social impairments (Desmedt et al., 2015). In a recent systematic review and meta-analysis, the presence of UCLP negatively affected the HRQoL of children and adults, mainly on psychological health and vitality dimensions (Queiroz Herkrath et al., 2015). On the other hand, no significant differences were found considering oral health and oral conditions of the children in the evaluated studies. These results could be explained by the wide range of age, which may blended the different perceptions of OHRQoL among childhood and adolescence (Barbosa e Gavião, 2008). Aged-specific self-report measures were required to adapt differences in children's self-concept, understanding feelings and ability to interpret other people's behavior, and in terms of cognitive, emotional, social and language development, the age group of 8 to 10 years is homogeneous (Jokovic et al., 2004). Despite this knowledge, there is a lack of studies about factors associated with the perception of OHRQoL related to UCLP.

There are a number of distinct domains of OHRQoL measures involved in UCLP children, such as appearance, speech, facial growth and psychosocial interaction (Klassen et

al., 2012). In Leme et al. (2013) study, the presence of orofacial dysfunctions was associated with worse OHRQoL in healthy children, suggesting that oral and craniofacial diseases or disabilities may contribute to the compromise of vital actions (*e.g.*, breathing, chewing and swallowing), muscle posture (*e.g.*, mouth and tongue posture) and further the groundwork for social interaction, including speech, emotional communication, facial expression and appearance. Notwithstanding, while there are studies evaluating speech, muscle functions and facial asymmetry of children with UCLP (Barsi et al., 2013; Fudalej et al., 2012; Hortis-Dzierzbicka et al., 2012; van Lierde et al., 2014; Kuijpers et al., 2015), there is no study correlating oral functions with impacts on OHRQoL. Considering the high prevalence of malocclusions, mainly posterior crossbite, among children with UCLP, which can result in facial asymmetry, tongue posture, swallowing pattern and temporomandibular disorders in adulthood (Melinck et al., 2010; Tecco e Festa, 2010), it is necessary to evaluate the orofacial functions of these patients as well as their correlations with OHRQoL.

Therefore, the present study aimed to evaluate the orofacial functions and OHRQoL of eight- to ten-yr-old children with UCLP.

MATERIAL AND METHODS

Ethical approval was obtained from the Human Research Ethics Committee of the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies (HRAC), University of São Paulo (USP), Bauru, SP, Brazil (protocol n. 318.871/2013). Participants and their parents were informed about the examination procedures and assured of the confidentiality of the collected information. Only those who signed the informed consent form were included in the study.

Study Design and Sample Characteristics

A case-control study was carried out among children aged 8 to 10 years enrolled at HRAC/USP diagnosed with unilateral cleft lip and palate (UCLP group) and at public schools in the city of Piracicaba, SP, Brazil (control group). Data collection was conducted from July 2013 to November 2014. This case-control study was composed by 108 children matched by gender and age, resulting in 54 matched pairs.

The exclusion criteria for UCLP children were tooth decay (n=38), current use of orthodontic appliance (n=74), syndromes associated with cleft lip and palate (*e.g.*, Treacher Collins, Van der Woude, Pierre Robin, Apert and others) (n=14) (Setó-Salvia e Stanier, 2014)

and missed consultation (n=41); and for healthy children were tooth decay and current use of orthodontic appliance.

Orofacial Functions

Orofacial functions were evaluated using the Brazilian Portuguese version (Leme et al., 2013) of the Nordic Orofacial Test-Screening (NOT-S) protocol (Bakke et al., 2007). This protocol consists of a structured interview and a clinical examination, each part with six domains. In the interview, the following functions are assessed: (I) sensory function, (II) breathing, (III) habits, (IV) chewing and swallowing, (V) drooling and (VI) dryness of the mouth. In the examination, the following functions are assessed: (1) face at rest, (2) nose breathing, (3) facial expression, (4) masticatory muscle and jaw function, (5) oral motor function and (6) speech. Each domain contains one to five items, reflecting the complexity of the specific function. NOT-S was applied individually by the same trained researcher (ABMM), in a vacant room, with the child seated in an upright position. The NOT-S interview was held by asking the questions in the screening form. To assess orofacial dysfunction in the clinical examination, the subjects were requested to carry out tasks for each item in conjunction with the illustrated manual. Each item has criteria for the respective function. An answer of YES or a task that met the criteria for impaired function resulted in a score of 1, indicating a dysfunction in the scored domain. An answer of NO or a task that did not meet the criteria resulted in a score of 0 (zero). The total score was the sum of the score for each domain, ranging from 0 to 12. The higher the score, the worse the orofacial dysfunction.

Oral Health-Related Quality of Life

The impact of oral conditions on the OHRQoL of children was evaluated using the Brazilian Portuguese version (Barbosa et al., 2009) of the CPQ8-10 (Jokovic et al., 2004). It is a self-completed questionnaire with 25 items grouped into four domains: oral symptoms, functional limitations, emotional well-being and social well-being. A likert-type scale was used with response options of “Never” = 0; “Once or twice” = 1; “Sometimes” = 2; “Often” = 3; and “Very often” = 4. The recall period was four weeks. Items were grouped into four domains: oral symptoms, functional limitations, emotional well-being and social well-being. Children were also asked to give overall or global assessments of their oral health and the extent to which the oral or oro-facial condition affected their overall well-being. These

questions preceded the multi-item scales in the questionnaire. A four-point response format, ranging from “Very good” = 0 to “Poor” = 4 and from “Not at all” = 0 to “A lot” = 3, was offered for these ratings. The minimum possible score is zero and the maximum possible score is 100. A high score indicated more negative impacts on OHRQoL.

Statistical Analysis

Statistical analysis was performed using SPSS 22.0 (SPSS Inc., Chicago, IL, USA) and BioEstat 5.0 (Mamirauá, Belém, PA, Brazil) with a 5% significance level. Data normality was assessed using the Kolmogorov-Smirnov test. Differences in NOT-S and CPQ8-10 scores between UCLP and control groups were evaluated by means of Mann-Whitney test. The distribution of NOT-S domain scores and responses to global ratings of CPQ8-10 for each group was assessed by Chi-squared or Fisher-Exact tests. The correlation between NOT-S and CPQ8-10 scores for UCLP group was evaluated by Spearman’s correlation test.

RESULTS

Table 1 shows the comparison of the NOT-S scores between groups. UCLP group had higher NOT-S total (4.3 vs. 2.8, p<0.0001) and examination (2.2 vs. 0.5, p<0.0001) scores than controls.

Table 1. Comparison of the NOT-S scores between groups.

	UCLP group	Control group	P*
	Mean (SD)	Mean (SD)	
Total scale [0-12]	4.3 (1.5)	2.2 (1.7)	<0.0001
Interview [0-6]	1.6 (1.2)	1.7 (1.3)	0.474
Examination [0-6]	2.8 (0.9)	0.5 (0.7)	<0.0001

NOT-S, nordic orofacial test-screening; UCLP, unilateral cleft lip and palate; SD, standard deviation

Values in square brackets indicate range of possible scores *P-value obtained from Mann-Whitney test

The distribution of NOT-S domains for each group is presented on Table 2. Children with UCLP reported more dysfunctions related to breathing than controls (29.6% vs 7.4%, p<0.05). All reports are related to snoring when sleeping. Clinical dysfunctions related to face at rest (100% vs. 13%; p<0.0001), facial expression (63% vs 22.2%, p<0.01) and speech (77.8% vs. 27.8%, p<0.01) were more frequent among UCLP patients than healthy children. Asymmetry (100%) and deviant lip position (63%) are the most frequent dysfunctions clinically diagnosed in patients when face at rest. More than half of patients (57.4%) cannot pout and round the lips symmetrically (facial expression domain) and 74.1% presented uncleared speech with one or more indistinct sounds or abnormal nasality.

Table 2. Distribution [n (%)] of the NOT-S domains by groups.

NOT-S domains	UCLP group	Control group	P-value
<i>Interview</i>			
(I) Sensory function	4(7.4)	5(9.3)	1.000 ^b
(II) Breathing	16(29.6)	4(7.4)	0.025^a
(III) Habits	17(31.5)	35(64.8)	0.058 ^a
(IV) Chewing and swallowing	38(70.4)	34(63.0)	0.831 ^a
(V) Drooling	2(3.7)	2(3.7)	1.000 ^b
(VI) Dry mouth	7 (13.0)	12(22.2)	0.418 ^a
<i>Examination</i>			
(1) Face at rest	54 (100.0)	7 (13.0)	<0.0001^a
(2) Nose breathing	0(0.0)	2(3.7)	0.495 ^b
(3) Facial expression	34(63.0)	12(22.2)	0.010^a
(4) Masticatory muscle and jaw function	15(27.8)	6 (11.1)	0.118 ^a
(5) Oral motor function	4(7.4)	6 (11.1)	0.741b
(6) Speech	42(77.8)	15(27.8)	0.005^a

NOT-S, nordic orofacial test-screening; UCLP, unilateral cleft lip and palate ^aChi-squared test, ^bFisher-Exact test (comparison between groups)

Table 3 shows the comparison of CPQ₈₋₁₀ scores between groups. The mean overall score for UCLP and controls were 17.2 and 24.1, respectively. Both were small, compared with the possible maximum score of 100. There was significant difference between the groups for the social well-being domain, with UCLP patients reporting, on average, more negative impacts than controls (4.4 vs. 2.7, p<0.01). However the effect size of 0.42 was only moderate and indicated that the difference between groups was small in relation to the variability within the sample as a whole. Of the 10 items of social well-being domain, two were more frequently reported by UCLP group than controls: being teased (0.9 vs. 0.2; p<0.01) or asked (1.4 vs. 0.3; p<0.001) by other children.

Table 3. Comparison of CPQ₈₋₁₀ overall and domain scores between groups.

	Range of possible scores	UCLP group	Control group	
		Mean (SD)	Mean (SD)	P^a
Overall scale	0-100	17.2(13.0)	24.1(20.7)	0.077
Oral symptoms	0-20	6.0(2.8)	5.2(3.8)	0.239
Functional limitations	0-20	3.7(3.5)	2.4(2.7)	0.060
Emotional well-being	0-20	3.1(3.7)	3.2(3.7)	0.798
Social well-being	0-40	4.4(5.1)	2.7(4.2)	0.010

CPQ, child perceptions questionnaire; UCLP, unilateral cleft lip and palate; SD, standard deviation

*P-value obtained from Mann-Whitney test

Table 4 shows the distribution of the responses to the global ratings of CPQ₈₋₁₀ in both groups. There was no difference between the two groups in their global ratings of oral health. The majority of UCLP and control groups reported that the health of their teeth and mouth was O.K (37%) or very good (57.4%), respectively. There was a significant difference between the two groups in their ratings of the extent to which their oral or orofacial condition affected their life overall, with control group perceiving it as somewhat better than UCLP patients (48.1 vs. 20.4%; p<0.05). The majority in UCLP and controls groups reported that their condition had little (40.7%) or no effect (48.1%) on their life overall.

Table 4. Distribution [n (%)] of responses to global ratings by groups.

	UCLP group	Control group	<i>P</i> [*]
<i>When you think about your teeth or mouth, would you say that they are:</i>			
Very good	16(29.6)	31 (57.4)	0.097 ^a
Good	16(29.6)	12 (22.2)	0.644 ^a
O.K.	20(37.0)	10 (18.5)	0.157 ^a
Poor	2(3.7)	1 (1.9)	1.000 ^b
<i>How much do your teeth or mouth bother you in your everyday life?</i>			
Not at all	11(20.4)	26 (48.1)	0.050^a
A little bit	22(40.7)	15 (27.8)	0.421 ^a
Some	19(35.2)	13 (24.1)	0.464 ^a
A lot	2(3.7)	0 (0.0)	0.496 ^b

UCLP, unilateral cleft lip and palate

^aChi-squared test, ^bFisher-Exact test (comparison between groups)

Correlation between NOT-S and CPQ₈₋₁₀ scores for UCLP group was shown on Table 5. There was positive correlation between global rating of oral health and NOT-S total ($r=0.41$, $p<0.01$) and interview ($r=0.38$, $p<0.01$) scores. CPQ₈₋₁₀ total and all domain scores were positively correlated with NOT-S total and interview scores, except of oral symptoms of CPQ₈₋₁₀ and NOT-S total scale.

Table 5. Correlation between NOT-S and CPQ₈₋₁₀ scores for UCLP group (n=54).

CPQ ₈₋₁₀ scores	NOT-S scores		
	Total scale	Interview	Examination
Overall scale	0.38	0.47	0.02
Oral symptoms	0.25	0.35	-0.05
Functional limitations	0.35	0.47	-0.02
Emotional well-being	0.37	0.38	0.11
Social well-being	0.29	0.35	0.02

NOT-S, nordic orofacial test-screening; CPQ, child perceptions questionnaire; UCLP, unilateral cleft lip and palate

* $p<0.05$; ** $p<0.01$; *** $p<0.0001$ (Spearman correlation test)

DISCUSSION

This study was undertaken to evaluate the orofacial functions and OHRQoL (and their associations) in 54 UCLP patients, matched by gender ($\delta=57.41\%$) and age (9.07 ± 0.80 yrs-old) with healthy scholars, using NOT-S and CPQ₈₋₁₀ measures, respectively. Previous studies had indicated that these measures were able to discriminate between children with different oral conditions, including UCLP (only for CPQ₈₋₁₀), and severities (Barbosa e Gavião, 2008; Leme et al., 2013); however this is the first study evaluating both constructs using a case control design in UCLP children. Both of the hypotheses tested were confirmed.

That is, children with UCLP had higher scores on the NOT-S and CPQ than controls, indicating poorer orofacial functions and worse OHRQoL. Further, the scores of both measures were correlated, suggesting that the more frequent orofacial dysfunction, the greater the impairment of quality of life in these patients. These findings are better discussed below.

UCLP group had, on average, higher NOT-S total and examination scores than controls, suggesting more clinical signs of orofacial dysfunctions in the former, especially related to (1) face at rest (100% vs. 13%), (3) facial expression (63% vs. 22.2%) and (6) speech (77.8% vs. 27.8%). In relation to (1) face at rest domain, all children with UCLP had skeletal and/or soft tissue asymmetry, while 63% had deviant lip position in opening mouth. Nasolabial asymmetry is a common finding in UCLP patients and previous studies, using various methods to evaluate facial morphology, have shown that the cleft and non-cleft sides of the face differ (Fudalej et al., 2012). Analyzing the results of 3D stereophotogrammetry for assessment of absolute asymmetry and asymmetry in specific regions of the face, Kuipers et al. (2015) observed more facial asymmetry in children with unilateral UCLP, especially in the nasolabial area, when compared with healthy children. These authors also suggested that the anatomical defect of the facial skeleton plays a major role in the asymmetry of the face and treatment of the anatomical defect may improve asymmetry.

In relation to (3) facial expression domain, the majority of UCLP patients cannot pout and round the lips symmetrically. This is contrary to van Lierde et al. (2014) findings which found normal lip strength in children with unilateral UCLP. The subjects were instructed to protrude the lips and to push and squeeze the lips around the wooden tongue blades with maximum effort. These authors also found normal anterior tongue elevation strength and tongue endurance in children with unilateral UCLP. The tongue elevation strength is related to the action of the anterior portion of the genioglossus muscle which draws the root of the tongue anteriorly to exit the oral cavity or to press the apex on the alveolar ridge or teeth (van Lierde et al., 2014). The palatal cleft has a major impact on physiology and has functional consequences, the tongue rises higher than usual during elevation of the aero-digestive tract, which represents the first phase of deglutition (van Lierde et al., 2014). However the comparison between the present findings and the above mentioned study should be interpreted with caution because they used different instruments: a screening instrument for clinical examination of orofacial dysfunction (NOT-S) and a hand-held device that measures the amount of pressure of lip strength, tongue elevation strength and tongue endurance on a small pliable air-filled bulb (Iowa Oral Performance Instrument – IOPI), respectively.

In relation to (6) speech domain, 74.1% presented uncleared speech with one or more indistinct sounds or abnormal nasality. Speech and voice specialists state that because of

the anatomical constraints present in UCLP infants, even the earliest attempts at vocalisation in the second and third months of life in these children are different from in infants without a cleft defect (O'Gara et al., 1994). At about 6 months of age, a child without the defect starts to produce its first frontal consonants, whereas the structural deformity in a child with UCLP makes such a task impossible, and may give rise to glottal or pharyngeal articulations. Thus, in children born with orofacial clefts, normal anatomical conditions should be reconstructed in infancy to allow correct kinaesthetic patterns to develop, before compensatory articulations become incorporated into the speech system. In a recently published paper, 54% of the 10-year-old children with complete unilateral cleft lip and palate subjected to one-stage lip and palate repair were rated as having entirely normal speech because of a high incidence of anterior palatal fistulas and fistula-related speech disturbances (Hortis-Dzierzbicka et al., 2012).

Moreover, one third of UCLP patients reported abnormal breathing in contrast with only 7.4% of controls. All reports were related to snoring when sleeping. Children with UCLP have a higher incidence of obstructive sleep apnea (OSA) (Tan et al., 2015), which is characterized by prolonged partial upper airway obstruction and/or intermittent complete obstruction that disrupts both normal ventilation during sleep and normal neurophysiological sleep patterns (Marcus et al., 2012). The size of their pharyngeal airways has been shown to be smaller, and their craniofacial dimensions differ from those of healthy controls (Rose et al., 2003). The oropharyngeal musculature is also disrupted by the cleft, which impacts on speech and swallow, as well as adversely affects the maintenance of airway patency, particularly during sleep. Silvestre et al. (2014) screened 489 patients with UCLP for OSA by asking them to complete the Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ), and in this series, 14.7% of the respondents screened positive. Limitations of the present and the above mentioned studies are that these are questionnaire based without polysomnography confirmation.

Analysis of scores derived from the CPQ₈₋₁₀ indicated that the OHRQoL of UCLP patients was not markedly different from that of the healthy children. Although the difference in social well-being domain was statistically significant, the effect size suggested that the magnitude of the difference in mean score for the two groups was moderate in relation to the variability among the study participants as a whole. Moreover, the mean difference between the groups was only 1.7 on a scale that could range from 0 to 40. Ward et al. (2013) found lower OHRQoL for the social-emotional well-being and functional well-being subscales

among children with orofacial clefts compared with controls. Broder and Wilson-Genderson (2007) reported that craniofacial patients had greater negative impacts on social-emotional well-being and school environment than general pediatric or orthodontic patients. However the comparison between the present findings and the above mentioned studies should be interpreted with caution because the latter used another OHRQoL questionnaire (Child Oral Health Impact Profile – COHIP). In contrast, previous studies using CPQ found no statistically significant difference between eight- to ten-year-old children with UCLP and children with dental caries (Jokovic et al., 2004) and healthy groups (Wogelius et al., 2009) or found few differences in the OHRQoL of children aged 11 to 14 years with orofacial conditions, compared with children with dental caries. Accordingly, a small difference in the impact on social well-being domain (effect size=0.42) (Cohen, 1988) reported by UCLP patients and controls can be attributed to the high quality of clinical and psychosocial care provided to the former by The Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies treatment teams continuously from their birth throughout childhood. The lack of a marked difference in overall and other domains of CPQ₈₋₁₀ is also consistent with the contemporary models of disease/disorder and its consequences. The model by Wilson and Cleary (1995) indicates that health outcomes experienced by an individual are not determined only by the nature and severity of the disease/disorder, but also by the personal and environmental characteristics.

Moreover, evidence that the higher scores of CPQ₈₋₁₀ in UCLP group may not be that important is to be found in the responses to the two global items. Overall, UCLP patients rated the health of their teeth and mouth similar to controls and frequently reported that their condition had little effect on their life overall (40.7%). This leads to the conclusion that although UCLP group may encounter more challenges in daily life, their overall quality of life is no different from that of healthy children. This confirms the results of an earlier study that used CPQ₁₁₋₁₄ to measure the outcomes of orofacial conditions and dental caries in children aged 11 to 14 years (Locker et al., 2005). The OHRQoL of the participants with cleft lip and/or palate was similar to that with dental decay. The present and above mentioned findings are consistent with the observation by Strauss (2001), in a literature review, that, although appearance and speech may remain problematic for some people with orofacial conditions, the majority are “productive, contributing, happy, satisfied individuals.”

Correlation analysis between NOT-S and CPQ₈₋₁₀ scores indicated a greater

impairment of quality of life as a result to the orofacial dysfunctions in UCLP group. However, this is preliminary evidence that suggests an association between these constructs in children with UCLP. Leme et al. (2013) found significant correlations between NOT-S and CPQ scores in eight- to fourteen-yr-old children with oral habits (more frequently nail biting, followed by lip biting/sucking and cheek biting). Barsi et al. (2013) confirmed the influence of UCLP on the prevalence of oral habits, with lower prevalence of pacifier sucking for children with UCLP and higher prevalence for all other habits, which agreed with the postoperative counseling to remove the pacifier sucking habit when the child is submitted to palatoplasty, possibly representing a substitution of habits. Moreover, the pressure applied on the oral cavity muscles during sucking habits interferes with the repair of cleft lip and palate (Satyaprasad, 2009). However, when interpreting the present findings it is important to consider that significant associations were observed only for NOT-S interview scores. In other words, there is no clinical evidence to suggest that individuals with more orofacial dysfunctions (high NOT-S examination score) will necessarily reported that their condition had a lot of impact on their life overall.

The strength of this study was the sample size calculation, as this is an essential item to reduce the probability of error (Martínez-Mesa et al., 2014), and matching controls by age and gender, which allowed the homogeneous distribution of these variables in the groups. Another strength of this investigation was the use of the standardized questionnaires and also the standardized assessment of the oral conditions by calibrated/trained examiner. On the other hand, it is also important to recognize the limitations of the work performed in terms of the methodology and analytic strategies used. The lack of temporality limited the confidence in establishing the direction of associations. Notwithstanding, cross-sectional investigations are important tools to identify risk indicators to be included in further longitudinal assessments. So, further research is needed to better explain the link between orofacial dysfunctions and OHRQoL in UCLP patients.

CONCLUSIONS

The presence of UCLP was associated with clinical signs of orofacial dysfunctions related to breathing, facial symmetry/expression and speech. Moreover, there were few differences in the OHRQoL of UCLP patients compared with healthy children, with negative impacts only on social well-being domain related to OHRQoL. Finally, the more frequent reporting orofacial dysfunction, the greater the impairment of quality of life as a

result to the UCLP in this population.

ACKNOWLEDGMENTS

The authors gratefully acknowledge the financial support from the National Council for Scientific and Technological Development (CNPq, DF, Brazil, n. 140170/2014-6) and the volunteers for participating in this research.

REFERENCES

- Bakke M, Bergendal B, McAllister A, Sjögren L, Asten P. Development and evaluation of a comprehensive screening for orofacial dysfunction. *Swed Dent J.* 2007;31(2):75–84.
- Barbosa TS, Gaviao MBD. Oral health-related quality of life in children: part II. Effects of clinical oral health status. A systematic review. *Int J Dent Hyg.* 2008 May;6(2):100–7.
- Barbosa TS, Tureli M, Gavião M. Validity and reliability of the Child Perceptions Questionnaires applied in Brazilian children. *BMC Oral Health.* 2009;9(1):13.
- Barsi PC, Ribeiro da Silva T, Costa B, da Silva Dalben G. Prevalence of oral habits in children with cleft lip and palate. *Plast Surg Int.* 2013;247908.
- Broder HL, Wilson-Genderson M. Reliability and convergent and discriminant validity of the Child Oral Health Impact Profile (COHIP Child's version). *Community Dent Oral Epidemiol.* 2007 Aug;35 Suppl 1:20-31.
- Cohen J. Statistical Power Analysis for the Behavioural Sciences. Hillside, NJ: Lawrence Erlbaum Associates; 1988.
- Dak-Albab RJ, Dashash MA. The influence of socioeconomic status on oral health-related quality of life among Syrian children with cleft lip, or palate, or both. *Saudi Med J.* 2013;34(2):181–6.
- Desmedt DJ, Maal TJ, Kuijpers MA, Bronkhorst EM, Kuijpers-Jagtman AM, Fudalej PS. Nasolabial symmetry and esthetics in cleft lip and palate: analysis of 3D facial images. *Clin Oral Investig.* 2015;19(8):1833–42.

Fudalej P, Katsaros C, Hozyasz K, Borstlap WA, Kuijpers-Jagtman AM. Nasolabial symmetry and aesthetics in children with complete unilateral cleft lip and palate. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2012 Oct;50(7):621-5.

Guedes RS, Piovesan C, Antunes JL, Mendes FM, Ardenghi TM. Assessing individual and neighborhood social factors in child oral health-related quality of life: a multilevel analysis. *Qual Life Res.* 2014 Nov;23(9):2521-30.

Hortis-Dzierzbicka M, Radkowska E, Fudalej PS. Speech outcomes in 10-year-old children with complete unilateral cleft lip and palate after one-stage lip and palate repair in the first year of life. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2012 Feb;65(2):175-81.

Jokovic A, Locker D, Tompson B, Guyatt G. Questionnaire for Measuring Oral Health-related Quality of Life in Eight- to Ten-year-old Children. *Pediatr Dent.* 2004;26(6):512-8.

Klassen AF, Tsangaris E, Forrest CR, Wong KW, Pusic AL, Cano SJ, Syed I, Dua M, Kainth S, Johnson J, Goodacre T. Quality of life of children treated for cleft lip and/or palate: A systematic review. *J Plast Reconstr Aesthetic Surg.* 2012;65(5):547-57.

Kramer MS, Feinstein AR. Clinical biostatistics: LIV. The biostatistics of concordance. *Clin Pharmacol Ther.* 1981;29(1):111-23.

Kuijpers MA, Desmedt DJ, Nada RM, Bergé SJ, Fudalej PS, Maal TJ. Regional facial asymmetries in unilateral orofacial clefts. *Eur J Orthod.* 2015 Dec;37(6):636-42.

Leme MS, Souza Barbosa Td, Gavião MB. Relationship among oral habits, orofacial function and oral health-related quality of life in children. *Braz Oral Res.* 2013 May-Jun;27(3):272-8.

Locker D, Jokovic A, Tompson B. Health-related quality of life of children aged 11 to 14 years with orofacial conditions. *Cleft Palate Craniofac J.* 2005 May;42(3):260-6.

O'Gara MM, Logemann JA, Rademaker AW. Phonetic features by babies with unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 1994 Nov;31(6):446-51.

- Marcus CL, Brooks LJ, Draper KA, Gozal D, Halbower AC, Jones J, et al. Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2012 Sep;130(3):576e84.
- Martínez-Mesa J, González-Chica DA, Bastos JL, Bonamigo RR, Duquia RP. Sample size: how many participants do I need in my research? *An Bras Dermatol.* 2014 Jul-Aug;89(4):609-15.
- Matthews JK, Oddone-Paolucci E, Harrop R a. The Epidemiology of Cleft Lip and Palate in Canada, 1998 to 2007. *Cleft Palate-Craniofacial J.* 2015;52(4):417-24.
- Melink S, Vagner MV, Hocevar-Boltezar I, Ovsenik M. Posterior crossbite in the deciduous dentition period, its relation with sucking habits, irregular orofacial functions, and otolaryngological findings. *Am J Orthod Dentofacial Orthop.* 2010 Jul;138(1):32-40.
- Paradowska-Stolarz A, Kawala B. Occlusal disorders among patients with total clefts of lip, alveolar bone, and palate. *Biomed Res Int.* 2014;2014:583416.
- Queiroz Herkrath AP, Herkrath FJ, Rebelo MA, Vettore MV. Measurement of health-related and oral health-related quality of life among individuals with nonsyndromic orofacial clefts: a systematic review and meta-analysis. *Cleft Palate Craniofac J.* 2015 Mar;52(2):157-72.
- Rodrigues K, Sena MF, Roncalli AG, Ferreira MA. Prevalence of orofacial clefts and social factors in Brazil. *Braz Oral Res.* 2009 Jan-Mar;23(1):38-42.
- Rose E, Thissen U, Otten JE, Jonas I. Cephalometric assessment of the posterior airway space in patients with cleft palate after palatoplasty. *Cleft Palate Craniofac J* 2003 Sep;40(5):498-503.
- Satyaprasad S. An unusual type of sucking habit in a patient with cleft lip and palate. *J Indian Soc Pedod Prev Dent.* 2009 Oct-Dec;27(4):260-2.
- Setó-Salvia N, Stanier P. Genetics of cleft lip and/or cleft palate: Association with other common anomalies. *Eur J Med Genet.* 2014;57(8):381-93.
- Shrout PE, Fleiss JL. Intraclass correlations: uses in assessing rater reliability. *Psychol Bull.* 1979 Mar;86(2):420-8.

- Silvestre J, Tahiri Y, Paliga JT, Taylor JA. Incidence of positive screening for obstructive sleep apnea in patients with isolated cleft lip and/or palate. *Can J Plast Surg* 2014 Winter;22(4):259e63.
- Strauss RP. "Only skin deep": health, resilience, and craniofacial care. *Cleft Palate Craniofac J.* 2001 May;38(3):226-30.
- Tan HL, Kheirandish-Gozal L, Abel F, Gozal D. Craniofacial syndromes and sleep-related breathing disorders. *Sleep Med Rev.* 2015 Jun 6;27:74-88.
- Tecco S, Festa F. Prevalence of signs and symptoms of temporomandibular disorders in children and adolescents with and without crossbites. *World J Orthod.* 2010 Spring;11(1):37-42.
- van Lierde KM, Bettens K, Luyten A, Pletinck J, Bonte K, Vermeersch H, Roche N. Oral strength in subjects with a unilateral cleft lip and palate. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2014 Aug;78(8):1306-10.
- Ward JA, Vig KW, Firestone AR, Mercado A, da Fonseca M, Johnston W. Oral health-related quality of life in children with orofacial clefts. *Cleft Palate Craniofac J.* 2013 Mar;50(2):174-81.
- Wilson IB, Cleary PD. Linking clinical variables with health-related quality of life. A conceptual model of patient outcomes. *JAMA.* 1995 Jan 4;273(1):59-65.
- Wogelius P, Gjørup H, Haubek D, Lopez R, Poulsen S. Development of Danish version of child oral-health-related quality of life questionnaires (CPQ8-10 and CPQ11-14). *BMC Oral Health.* 2009 Apr 22;9:11.

2.2 Artigo: Occlusal, chewing and tasting characteristics associated with orofacial dysfunctions in children with unilateral cleft lip and palate: a case-control study

Ana Beatriz Marangoni Montes¹, Thais Marchini Oliveira², Maria Beatriz Duarte Gavião¹,
Taís de Souza Barbosa¹

¹ Department of Pediatric Dentistry, Piracicaba Dental School, State University of Campinas, Piracicaba/SP, Brazil

² Department of Pediatric Dentistry, Bauru School of Dentistry, University of São Paulo, Bauru/SP, Brazil

E-mails:

anabheatriz@yahoo.com.br

marchini@usp.br

mbgaviao@fop.unicamp.br

tais_sb@fop.unicamp.br

Correspond with:

Prof. Taís de Souza Barbosa

Faculdade de Odontologia de Piracicaba/UNICAMP – Departamento de Odontologia Infantil
– Área de Odontopediatria

Address: Av. Limeira 901, Piracicaba/SP, Brasil / Zip code: 13414-903 Phone: 55 19 2106 5287 – Fax: #55-19-21065218

E-mail: tais_sb@fop.unicamp.br

ABSTRACT

Aim: To assess the malocclusion differences between UCLP and healthy children and the associations between orofacial dysfunctions with malocclusion, masticatory performance and taste in children with and without unilateral cleft lip and palate (UCLP). **Material and Methods:** A patient-based, matched, case-control study was conducted involving 108 children aged 8-10 years enrolled at the selected from the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies, University of São Paulo, Bauru, SP and public schools of Piracicaba, SP. The case (children with UCLP) and control (healthy children) groups were matched for age and gender at a 1:1 ratio. Orofacial dysfunctions were evaluated using the Brazilian Portuguese version of the Nordic Orofacial Test-Screening (NOT-S). The Goslon Yardstick Index (GYI) and the Index of Orthodontic Treatment Need – Dental Health Component (IOTN-DHC) were used for orthodontic treatment need of patients and controls, respectively. Masticatory performance was assessed by the individual's ability to comminute a chewable test material in order to determine median particle size (X_{50}) and distribution of particles in different sieves (b value). Taste perception was evaluated using four liquid solutions (sweet, salty, bitter or acid) in three different concentrations. Data analysis involved descriptive statistics, correlation test and linear regression analysis to verify the independent variables associated with NOT-S scores. **Results:** More than half of UCLP children needed orthodontic surgery (53.7%; $p<0.0001$), while 66.7% of controls had slight treatment need ($p<0.0001$). UCLP group presented higher median particle size ($X_{50}=5.0$ vs. 4.2, $p<0.0001$) and needed more chewing cycles to comminute the artificial test into particles smaller than the median ($b=5.8$ vs. 3.0, $p<0.0001$) than controls. UCLP group also had less perception of salty flavour than their counterparts (2.2 vs. 2.5, $p<0.05$). There was positive correlation between b value and NOT-S examination score ($r=0.49$, $p<0.0001$) for UCLP children. In multiple linear regression, a significant interrelationship was observed between NOT-S examination score and b value ($\beta=2.59$, $p<0.05$). **Conclusions:** UCLP children had worst malocclusion than healthy children and negative impact on masticatory performance and alteration in taste perception, with the former being also associated with more orofacial dysfunctions.

Key words: child, cleft lip, cleft palate, disability evaluation, malocclusion, mastication, taste.

INTRODUCTION

Orofacial clefts are one of the most common congenital facial anomalies that result from a failed fusion of the medial, lateral and maxillary processes, which should occur from the 4th to the 9th week of intrauterine life, approximately (WHO, 2004). The prevalence of orofacial clefts was approximately 1 per 700 live births worldwide (Rodrigues et al., 2009; Martelli et al., 2012); while in Brazil prevalence ranges from 0.19 to 1.54:1,000 live births (Martelli-Júnior et al., 2007; Rodrigues et al., 2009). Orofacial clefts can be classified into three categories: isolated cleft lip, cleft lip and palate (extended from the upper lip to the hard or soft palate) and isolate cleft palate; and can occur on one or both sides of the mouth (unilateral or bilateral clefts, respectively) (Farronato et al., 2014). Among these, the more frequent was cleft lip and palate (CLP), observed in 53.4% of Brazilian patients and predominantly in males than females (59.8% vs. 45.5%; 1.56:1) (Martelli et al., 2012). Moreover, unilateral involvement of CLP is more frequent than the bilateral involvement (26.19% vs. 13.49%) in Brazilian children (Martelli-Júnior et al., 2007).

Unilateral CLP (UCLP) can results in morphological and functional disorders, such as malocclusions (Paradowska-Stolarz e Kawala, 2014) and speech disturbances (Hortis-Dzierzbicka et al., 2014), respectively. The severity and type of UCLP both affect the prognosis of the occlusion and methods required for rehabilitation (Harila et al., 2014). Martelli et al. (2012) found a prevalence of 53.4% of cleft lip and palate, with higher frequency among males. Malocclusions associated with UCLP may compromise the growth of dentofacial structures and the development of the vertical, anteroposterior and transversal occlusal relationships (Harila et al., 2014). It is important to assess the dental arch relationship and predict the outcome of the treatment in order to prioritize treatment to those most in need and likely to benefit from orthodontic treatment (Ireland et al., 2014). Several malocclusions affect facial appearance and it is well known that unilateral clefts show more facial asymmetry (Kuijpers et al., 2015), especially nasolabial asymmetry (Fudalej et al., 2012). Previous studies were conducted to check if UCLP can affect oral functions, no difference was observed in oral strength of patients vs. controls (van Lierde et al., 2014), but more oral habits (Barsi et al., 2013) and impairment on breathing, swallowing (Tan et al., 2015) and speeching (Hortis-Dzierzbicka et al., 2014) was found among cleft children.

Mastication is a developmental function which matures as a result of learning

experiences; if adequate, it stimulates and provides proper function for the normal development of the maxilla and mandible. In the oral cavity, food is subjected to several mechanical and chemical processes. The food is fractured by the teeth, diluted and broken down by saliva, forming a bolus to finally be swallowed (van der Bilt et al., 2010). As mastication reduces the food size and prepares it for swallowing and digestion, its performance can be measured by determining the individual capacity to comminute a test food (Gavião et al., 2007). Sieving of fragmented food particles has proven to be a reliable method for quantifying masticatory performance after grinding and pulverising a test food (Speksnijder et al., 2009). Chewable test materials may be preferred to natural foods for measuring masticatory performance because of their physical properties, and more reproducible particle size and shape (Gavião et al., 2007). Another important determinant of oral functions is the sense of taste, which is activated during the initial stage of ingestion of food particles allowing for identification of essential nutrients and of harmful and potentially toxic compounds (Gavião et al., 2007). Altered taste sensations may lead to behavioral changes avoiding certain foods that are dry, spicy or crunchy and develop a preference for sweet food stuffs. Altered diet may lead to nutritional intake problems, atrophy of the masticatory muscles and decreased masticatory ability (Dusek et al., 1996). However, the importance of understanding the direct consequences of UCLP in the masticatory and gustatory functions of the stomatognathic system is still poorly explored and studied.

The treatment of patients with UCLP involves a multidisciplinary team approach including pediatrics, oral and maxillofacial surgery, otolaryngology, prosthodontics, speech therapy, genetics, and others. Rehabilitation is initiated in the first months of life and is continued until adult age. Because of its complexity, the treatment of UCLP requires knowledge of the alterations of the stomatognathic system of these subjects for complete rehabilitation (Neville, 2002). Considering the above information, it is relevant to analyse factors that can affect the operation of biological structures, especially those related to physiological oral functions in these patients. It is important to understand the direct associations of UCLP with the structures and functions of the stomatognathic system in order to estimate treatment possibilities and plan the allocation of resources for these patients. According to our knowledge, the present study is the first to examine the effects of orofacial dysfunctions as a result of UCLP on mastication and taste, and thus, the purpose was to evaluate the associations between orofacial dysfunctions with malocclusion, masticatory performance and taste in eight- to ten-yr-old children with UCLP compared to children

without orofacial clefts.

MATERIAL AND METHODS

Ethical approval was obtained from the Human Research Ethics Committee of the Hospital for Rehabilitation of Craniofacial Anomalies (HRAC), University of São Paulo (USP), Bauru, SP, Brazil (protocol n. 318.871/2013). Participants and their parents were informed about the examination procedures and assured of the confidentiality of the collected information. Only those who signed the informed consent form were included in the study.

Study Design and Sample Characteristics

A case-control study was carried out among children aged 8 to 10 years enrolled at HRAC/USP diagnosed with unilateral cleft lip and palate (UCLP group) under the same treatment protocol and at public schools in the city of Piracicaba, SP, Brazil (control group). Data collection was conducted from July 2013 to November 2014. This case-control study was composed by 108 children matched by gender and age, resulting in 54 matched pairs.

The exclusion criteria were tooth decay (n=38), current use of orthodontic appliance (n=74), syndromes associated with cleft lip and palate (e.g., Treacher Collins, Van der Woude, Pierre Robin, Apert and others) (n=14) (Setó-Salvia e Stanier, 2014) and missed consultation (n=41).

Outcome Variable

The outcome variable was orofacial functions as measured by the Brazilian Portuguese version (Leme et al., 2013) of the Nordic Orofacial Test-Screening (NOT-S) protocol (Bakke et al., 2007). This protocol consists of a structured interview and a clinical examination, each part with six domains. In the interview, the following functions are assessed: (I) sensory function, (II) breathing, (III) habits, (IV) chewing and swallowing, (V) drooling and (VI) dryness of the mouth. In the examination, the following functions are assessed: (1) face at rest, (2) nose breathing, (3) facial expression, (4) masticatory muscle and jaw function, (5) oral motor function and (6) speech. Each domain contains one to five items, reflecting the complexity of the specific function. NOT-S was applied individually by the same trained researcher (ABMM), in a vacant room, with the child seated in an upright position. The NOT-S interview was held by asking the questions in the screening form. To assess orofacial dysfunction in the clinical examination, the subjects were requested to carry

out tasks for each item in conjunction with the illustrated manual. Each item has criteria for the respective function. An answer of YES or a task that met the criteria for impaired function resulted in a score of 1, indicating a dysfunction in the scored domain. An answer of NO or a task that did not meet the criteria resulted in a score of 0 (zero). The total score was the sum of the score for each domain, ranging from 0 to 12. The higher the score the worse the orofacial dysfunction.

Independent Variables

Orthodontic Treatment Need

Regarding UCLP group, the dental arch relationships were assessed and the casts ranked using the Goslon Yardstick Index (Mars et al., 1987) by the orthodontic professionals at HRAC-USP, and the information was obtained in prontuario. According to this method, the clinical features considered most important in characterising malocclusion in the early permanent dentition stages of children with clefts are the anteroposterior arch relationship, the vertical labial segment relationship and the transverse relationship. The models were allocated to five categories according to the method: 1 = Excellent, 2 = Good, 3 = Fair, 4 = Poor, 5 = Very poor outcome. Group 1 and 2 have occlusions that require simple or no orthodontic treatment, group 3 requires complex orthodontic treatment, but a good result can be anticipated. Patients in group 4 are at the limits of orthodontic treatment without orthognathic surgery to correct skeletal malocclusion, and 5 would need orthognathic surgery to correct the skeletal relationship.

The occlusion of control group was evaluated by the Index of Orthodontic Treatment Need – Dental Health Component (IOTN-DHC) (Üçüncü e Ertugay, 2001) by one calibrated researcher (n=17 students; Intraclass correlation coefficient – ICC = 0.78; indicating substantial agreement) (Kramer e Feinstein, 1981). The DHC was examined using a millimetre probe, and the occlusal characteristics of a malocclusion that harm the teeth and adjacent structures were recorded. There are five levels, ranging from Degree 1 (there is no need for treatment) up to Degree 5 (there is a great need for treatment). In UCLP the IOTN-DHC were degree 5, the Goslon Yardistck Index was used to dicern the severity of malocclusion in this children.

Masticatory Performance

Masticatory performance was assessed by the determination of the individual capacity of fragmentation of an artificial food denominated Optosil Silicona (Slagter et al., 1993). The components were blended and placed in metal moulds with cubic compartments measuring 5.6 mm, under mechanical pressure. The subjects received 17 cubes (3.6 g), which were chewed for 20 mastication cycles, visually monitored by the examiner. The fragmented particles were then expelled from the oral cavity into recipients with plastic sieves covered with a paper filter. The remaining particles were washed with water and disinfected using 70% alcohol dispersion. After drying, the particles were removed from the paper filter, weighed and passed through a series of 10 granulometric sieves with meshes ranging from 5.60 to 0.71 mm, connected in decreasing order and closed with a metal base. The particles were placed in the first sieve of the series and the set was maintained under vibration for 20 min. The particles retained on each sieve were removed and weighed on an analytical scale with a precision of 0.001 g. The distribution of the particles by weight was described by a cumulative function (Rosim-Ramler equation). The degree of fragmentation of the material is then given by the median particle size (X_{50}), which is the aperture of a theoretical sieve through which 50% of the weight of the fragmented material could pass (van der Bilt et al., 1993):

$$Q_w(X) = 1 - 2 - (X/X_{50})^b$$

where Q_w is the fraction of the weight of the particles with a size less than X . The variable b (broadness variable) represents the distribution of particles in the different sieves. As the experiment was carried out twice, median between repetitions was considered.

Taste Perception

For the evaluation of flavours thresholds it was used a modified methodology proposed by Mueller et al. (2003). Four liquid solutions were used in three different concentrations: sweet, 0.2, 0.1, 0.05 g/ml of sucrose; sour, 0.165, 0.09, 0.05 g/ml of citric acid; salty, 0.1, 0.04, 0.016 g/ml of sodium chloride; bitter, 0.0024, 0.0009, 0.0004 g/ml of quinine hydrochloride. Two drops of liquid were placed on the middle of the tongue at a distance of approximately 1.5 cm from the tip using a dropper; the subjects were allowed to close the mouth. The sequence of administration was randomized across trials. The trials had four different possibilities (A1, A2, B1 and B2). The participant chosen for each test one of

four options: sweet, salty, bitter or acid (sour); there was no limit for the test. The tests started with the lowest concentration. The subjects' task was to identify the correct taste. Then the mouth was rinsed with a sip of tap water. For each correct taste, it was attributed the value "1". The result for the entire test was the sum of the results for individual taste qualities (range 0 to 12).

Statistical Analysis

Statistical analysis was performed using SPSS 22.0 (SPSS Inc., Chicago, IL, USA) and BioEstat 5.0 (Mamirauá, Belém, PA, Brazil) with a 5% significance level. Data normality was assessed using the Kolmogorov-Smirnov test. The classification of orthodontic treatment need for each group was assessed by Chi-squared partition test. Differences in masticatory performance values (X_{50} and b) and taste perception scores between groups were evaluated by means of unpaired t test and Mann-Whitney test, respectively. The correlation between NOT-S and independent variables (orthodontic treatment need, masticatory performance values and taste perception scores) for UCLP group was evaluated by Spearman's correlation test. Linear regression analysis was used to verify predicting variables of NOT-S scores.

Intraexaminer Reliability

Intraexaminer reliability calculations were performed on 17 healthy subjects (mean age=8.25 ± 0.45 years; ♀=52.9%) not included in the studied sample, on two separate occasions at an interval of 14 days. The two most commonly accepted methods for assessing the intraexaminer reliability were used. When the clinical examination variable could be measured on a continuous scale (X_{50} values and taste scores), reliability was assessed by computing the intraclass correlation coefficient (ICC), using the one-way analysis of variance random effect parallel model. The ICC for X_{50} values and taste scores were 0.70 and 0.48, indicating substantial and moderate agreement, respectively (Kramer e Feinstein, 1981). Acceptable agreement was found for IOTN-DHC scores, with kappa value of 0.56 (Cohen, 1960).

RESULTS

Orofacial dysfunctions

Descriptive statistics of NOT-S scores is shown on Table 1. NOT-S

total score ranged from 1 to 9, with a mean (standard deviation) of 4.3 (1.5) and a median (interquartile deviation) of 4.0 (2.0). There were no participants with either floor effects (*i.e.*, zero score) or ceiling effects (*i.e.*, maximum score). NOT-S interview showed moderate floor (16.7%) and no ceiling effects. In NOT-S examination, there were no children with either floor or ceiling effects. According to the percent of responding “yes” in interview, 70.4% reported impairment on (IV) chewing and swallowing. Approximately one third of this population also reported dysfunctions related to (III) habits (31.5%) and (II) breathing (29.6%). In clinical examination, (1) face at rest was the most frequent affected domain (100%), followed by (6) speech (77.8%) and (3) facial expression (63%).

Table 1. Descriptive statistics of NOT-S scores for UCLP group (n=54)

Total scale [0-12]		Interview [0-6]			Examination [0-6]		
Mean	4.3 (1.5)	Mean			Mean		
(SD)		(SD)			(SD)		
Median	4.0 (2.0)	Median	1.0 (1.0)		Median	3.0 (1.0)	
(IQD)		(IQD)			(IQD)		
Score range	1-9	Score range	0-5		Score range	1-5	
		Domains	n (%)	P*	Domains	n (%)	P*
		I	4 (7.4)		1	54 (100.0)	
		II	16 (29.6)	0.026 ^a	2	0 (0.0)	<0.0001 ^a
		III	17 (31.5)	0.164 ^a	3	34 (63.0)	0.388 ^a
		IV	38 (70.4)	<0.0001 ^a	4	15 (27.8)	0.033 ^a
		V	2 (3.7)	0.0002 ^a	5	4 (7.4)	0.0001 ^a
		VI	7 (13.0)	0.056 ^a	6	42 (77.8)	0.003 ^a
P*<0.0001^b				P*<0.0001^b			

NOT-S, nordic orofacial test-screening; UCLP, unilateral cleft lip and palate; SD, standard deviation; IQD, interquartile deviation

Domains: I, sensory function; II, breathing; III, habits; IV, chewing and swallowing; V, drooling; VI, dry mouth; 1, face at rest; 2, nose breathing; 3, facial expression; 4, masticatory muscle and jaw function; 5, oral motor function; 6, speech

[] range of possible scores

*P-value obtained from Chi-squared partition test (^aeach step; ^boverall)

Orthodontic Treatment Need

The classification of orthodontic treatment need according to groups is shown on Table 2. More than half of children with UCLP needs orthodontic surgery (53.7%; p<0.0001), while 66.7% of controls had slight treatment need (p<0.0001).

Table 2. Classification [n (%)] of orthodontic treatment need according to groups.

Goslon Yardstick Index		UCLP group
Grade 1	Straightforward orthodontic treatment	0 (0.0)
Grade 2	Straightforward orthodontic treatment	11 (20.4)
Grade 3	Complex orthodontic treatment	14 (25.9)
Grade 4	Limits of orthodontic treatment without orthognathic surgery	0 (0.0)
Grade 5	Orthognathic surgery will be required	29 (53.7)
		<0.0001*
IOTN-DHC		Control group
Grade 1	No treatment need	0 (0.0)
Grade 2	Slight treatment need	36 (66.7)
Grade 3	Moderate treatment need	8 (14.8)
Grade 4	Great treatment need	0 (0.0)
Grade 5	Extremely great treatment need	10 (18.5)
		<0.0001*

UCLP, unilateral cleft lip and palate; IOTN-DHC, index of orthodontic treatment need – dental health component

* P-value obtained from Chi-squared partition (comparison inside the group)

Masticatory Performance

Table 3 shows the comparison of masticatory performance values (X_{50} and b) between groups. UCLP group presented higher median particle size (5.0 vs. 4.2, $p<0.0001$) and needed more chewing cycles to comminute the artificial test into particles smaller than the median (5.8 vs. 3.0, $p<0.0001$) than controls.

Table 3. Comparison of masticatory performance between groups.

	UCLP group	Control group	P^*
	Mean (SD)	Mean (SD)	
X_{50}	5.0 (0.9)	4.2 (0.7)	<0.0001
b	5.8 (4.5)	3.0 (0.6)	<0.0001

UCLP, unilateral cleft lip and palate; SD, standard deviation; X_{50} , median particle size; b , broadness variable

*P-value obtained from unpaired t test

Taste Perception

UCLP group also had less perception of salty flavour than controls (2.2 vs. 2.5, $p<0.05$), as shown on Table 4.

Table 4. Comparison of taste perception scores between groups.

	UCLP group	Control group	P^*
	Mean (SD)	Mean (SD)	
Total score	9.3 (2.1)	9.6 (1.9)	0.392
Sweet	2.8 (0.4)	2.6 (0.6)	0.109
Salty	2.2 (1.0)	2.5 (0.8)	0.035
Sour	1.9 (1.2)	1.9 (1.2)	0.936
Bitter	2.4 (0.9)	2.5 (0.8)	0.352

UCLP, unilateral cleft lip and palate; SD, standard

deviation *P-value obtained from unpaired t test

Correlation Analysis

Correlation between NOT-S and independent variables for UCLP group was shown on Table 5. There was positive correlation between *b* value and NOT-S examination ($r=0.49$, $p<0.0001$) score.

Table 5. Correlation between NOT-S scores and independent variables for UCLP group ($n=54$).

	NOT-S scores		
	Total scale	Interview	Examination
GYI score	0.16	0.06	0.18
X ₅₀	0.02	-0.06	0.22
<i>b</i>	0.19	-0.09	0.49*
Taste score	-0.10	-0.03	-0.08

UCLP, unilateral cleft lip and palate; GYI, goslon yardstick index; NOT-S, nordic orofacial test-screening; X₅₀,

median particle size; *b*, broadness variable

* $p<0.0001$ (Spearman correlation test)

Linear regression analysis

Table 6 shows the results of the multiple linear regression analysis predicting NOT-S scores. It can be observed a significant interrelationship between *b* value and NOT-S examination score ($B=2.59$, $p<0.05$).

Table 6. Results of linear regression analysis predicting NOT-S scores (UCLP group).

	B	P
<i>Dependent variable: NOT-S total scale</i>		
GYI score	1.16	0.251
X ₅₀	-0.08	0.929
<i>b</i>	1.52	0.133
Taste score	-0.13	0.890
Adjusted R ²	= 0.029	
<i>Dependent variable: NOT-S interview</i>		
GYI score	0.70	0.485
X ₅₀	-0.63	0.527
<i>b</i>	0.05	0.957
Taste score	-0.35	0.720
Adjusted R ²	= - 0.056	
<i>Dependent variable: NOT-S examination</i>		
GYI score	1.02	0.310
X ₅₀	0.76	0.450
B	2.59	0.012
Taste score	0.27	0.785
Adjusted R ²	= 0.162	

UCLP, unilateral cleft lip and palate; NOT-S, nordic orofacial test-screening; GYI, goslon yardstick index

DISCUSSION

To the best of our knowledge, this is the first matched case-control study to investigate the occlusal, chewing and tasting characteristics associated with orofacial dysfunctions of children with UCLP and their counterparts. Matching (for age and gender) allowed the homogeneous distribution of these variables in the groups, which eliminated their

effect on the outcome and contributed to the reliability of the data (Sturmer et al., 2000). Another strength of this investigation was the sample size calculation, as this is an essential item to reduce the probability of error, define the logistics of the study and improve its success rates (Martínez-Mesa et al., 2014). Moreover, the case-control design provides results with stronger scientific evidence in comparison with the longitudinal design, which is the design used in the majority of studies involving children with UCLP (Bos et al., 2011; Hortis-Dzierzbicka et al., 2012).

In comparison analysis, UCLP children had poor masticatory performance and less taste perception than controls. Mastication is the first step in the process of digestion, in which the mechanical degradation of food facilitates the action of salivary enzymes and prepares the food for swallowing and further processing in the digestive system (Marquezin et al., 2013). The severity of malocclusions is one of the several factors that potentially influence masticatory performance (Rios-Vera et al., 2010). The poorer masticatory performance in individuals with malocclusion may be partially justified by the small number and area of occlusal contacts (Owens et al., 2002). Several methods have been introduced to evaluate and categorise malocclusions in patients with cleft deformities (Altalabi et al., 2013). The GYI was found to be a simple, valid and reliable tool which categorises the dental arch relationships in the late mixed or early permanent dentition stage into five categories (Mars et al., 1987). This method was also the most commonly used index with the longest time of use. The severity of the initial cleft and also cleft type both affect the prognosis of the occlusion as well as of orthodontic treatment and methods required. In the present study, the outcomes of the patients were mostly “very poor” (score 5), representing more than half of all cases (53.7%). Of the remaining subjects, 25.9% of cases had “fair” prognosis (score 3) and 20.4% had “good” prognosis (score 2). Previous studies reported a lower proportion of GYI ratings of 4 (poor) or 5 (very poor) compared with the present outcomes. An inter-center study of treatment outcomes for American patients (6 to 12 years) with complete unilateral UCLP identified one center of five with significantly poorer dental arch relationships (scores 4 and 5); this poorer center’s treatment protocol was unique

from all others in that it was the only center that used primary bone grafting (Hathaway et al., 2011). Harila et al. (2014) found “fair” (score 3) and “poor/very poor” (scores 4 and 5) prognosis in 10.4% and 12.5% of Finnish UCLP children (5.8-7.8 years; 36 girls and 26 boys), respectively. Using the GYI assumptions, only 25% of Brazilian children (mean age of 11 years, ♂=50%) with complete unilateral UCLP presented scores 4 and 5, suggesting favorable outcomes, with 75% of cases with no need of orthognathic surgery (Lacerda et al., 2014). These conflicting findings may be because the different treatment protocols used are so complex; various elements such as the timing of the repair, or the participation of surgeons with a large workload, may influence the final outcome. However, their identification is impossible in a cross-sectional investigation, children with UCLP in the present study received the same treatment protocols at HRAC-USP, which suggest that some stage of treatment could be revised to obtain better occlusal results.

The taste perception was also altered in UCLP group, with less perception of salty flavour than controls. Olfaction and taste are distinct modalities which are often activated concomitantly in daily life. In health and disease, modification of one sense leads to changes in the other sense and vice versa. According to Landis et al. (2010), a longstanding impaired olfactory function is associated with decreased gustatory function. The decrease in gustatory function after acquired olfactory impairment has been associated to regions of central nervous changes (Rolls, 2015), specially the orbitofrontal cortex (Small et al., 1997). Position Emission Tomography imaging study investigating activation after smell, taste and mixed stimulation revealed that bimodal (smell and taste together) stimulation leads to an activation that is more than simply the sum of its parts (Small et al., 1997). The response to salty taste in children is less characteristic and involves towards attraction with age, depending on context, but the activation of salty receptors it is still unclear (Nicklaus et al., 2005). According to Talmant et al. (2007), the nasal sequels of unilateral cleft patient are the worst in terms of consequence on facial growth, that is, 75% of complete unilateral cleft children are more oral than nasal breathers. Silvestre et al. (2014), in a recent publication, suggested that sleep-disordered breathing may occur concomitantly or secondary to UCLP in children, despite possessing normal

mandibular architecture, children with UCLP are at greater risk for upper airway obstruction, because a deviated nasal septum and acute airway obstruction are common in children with unilateral cleft lip, and often results after surgical intervention, and the chronic obstruction can compromise the nasal airway and manifest as obstructive sleep apnea. In the present study, approximately one third of the evaluated children with UCLP reported orofacial dysfunctions related to breathing (NOT-S interview, domain II), specially snoring when sleep, a common symptom of obstructive apnea syndrome (Sakellaropoulou et al., 2012). As the current reference standard for diagnosing of sleep-disordered breathing is polysomnography (American Academy of Pediatrics, 2002), it is not possible to postulate of a co-existing association between UCLP and sleep-disordered breathing in the evaluated sample.

The correlation and regression analyses revealed that masticatory performance did associated with orofacial dysfunctions as a result to the UCLP. Orofacial function includes a large number of vital actions such as breathing, chewing and swallowing, and acts as the basis for social interaction in terms of speech, emotional communication, facial expression and appearance. The masticatory process includes the selection of food particles that are placed onto the teeth by jaw, tongue and cheek movements. After this the particles are fractionated, depending on the morphological and functional characteristics of the orofacial structures that generate bite force (Katsuhiko et al., 2004). If some of the orofacial functions are compromised, they can negatively impact the masticatory process. According to the present results, UCLP children with higher NOT-S examination scores needed more chewing cycles to comminute the artificial test into particles smaller than the median; that is, had poorer masticatory performance. To our knowledge, this is the first study to investigate masticatory performance of children with UCLP, and the poorer mastication observed may be a consequence of the skeletal and/or soft tissue asymmetry (100%), deviant lip position in opening mouth (63%), difficulty in pouting and rounding the lips symmetrically (57.4%) and uncleared speech with one or more indistinct sounds or abnormal nasality (74.1%). The unique study in the literature aimed to evaluate masticatory function of adults (18 to 26 years of age) with UCLP, by analyzing the bite force developed by these individuals (Sipert et al., 2009). They found

significant deficit in bite force in males with UCLP compared to controls, suggesting that the use of orthodontic appliance by 92.6% of UCLP can decrease the bite force more remarkably in males than in females. However the comparison between the present findings and the abovementioned study should be interpreted with caution because they used different methods to measure masticatory function (sieving of fragmented artificial food particles *vs.* maximum voluntary bite force) and different populations (children *vs.* young adults).

CONCLUSIONS

Children with UCLP presented severe malocclusion, instead control group had satisfactory occlusion. The presence of UCLP was associated with poor masticatory performance and less perception of salty flavor, compared to control group, probably as a result of the very poor prognosis of orthodontic treatment need and mouth breathing, respectively. Moreover, UCLP group frequently reported difficulty in chewing and swallowing and had impairment in facial symmetry/expression and speech. Finally, the more frequent clinically diagnosed orofacial dysfunctions, the greater the need of chewing cycles to comminute the artificial test into particles smaller than the median; that is, poorer masticatory performance.

ACKNOWLEDGMENTS

The authors gratefully acknowledge the financial support from the National Council for Scientific and Technological Development (CNPq, DF, Brazil, n. 140170/2014-6) and the volunteers for participating in this research.

REFERENCES

- Altalibi M, Saltaji H, Edwards R, Major PW, Flores-Mir C. Indices to assess malocclusions in patients with cleft lip and palate. *Eur J Orthod.* 2013;35(6):772–82.
- American Academy of Pediatrics . Section on Pediatric Pulmonology, Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Clinical practice guideline: Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002;109:704-12.

- Bakke M, Bergendal B, McAllister A, Sjögren L, Asten P. Development and evaluation of a comprehensive screening for orofacial dysfunction. *Swed Dent J.* 2007;31(2):75–84.
- Barsi PC, Ribeiro da Silva T, Costa B, da Silva Dalben G. Prevalence of oral habits in children with cleft lip and palate. *Plast Surg Int.* 2013;2013:247908.
- Bos A, Prahl C. Oral health-related quality of life in Dutch children with cleft lip and/or palate. *Angle Orthod.* 2011;81(5):865–71.
- Cohen J. A coefficient of agreement for nominal scales. *This week's Cit Class.* 1960;20(3):37–46.
- Dusek M, Simmons J, Buschang PH, al-Hashimi I. Masticatory function in patients with xerostomia. *Gerodontology.* 1996 Jul;13(1):3–8.
- Farronato G, Kairyte L, Giannini L, Galbiati G, Maspero C. How various surgical protocols of the unilateral cleft lip and palate influence the facial growth and possible orthodontic problems? Which is the best timing of lip, palate and alveolus repair? literature review. *Stomatol Balt Dent Maxillofac J.* 2014;16(2):53–60.
- Fudalej P, Katsaros C, Dudkiewicz Z, Offert B, Piwowar W, Kuijpers M, Kuijpers-Jagtman AM. Dental Arch Relationships following Palatoplasty for Cleft Lip and Palate Repair. *J Dent Res.* 2012;91(1):47–51.
- Gavião MBD, Raymundo VG, Rentes AM. Masticatory performance and bite force in children with primary dentition. *Braz Oral Res.* 2007;21(2):146–52.
- Harila V, Ylikontiola LP, Sandor GK. Dental arch relationships assessed by GOSLON Yardstick in children with clefts in Northern Finland. *Eur J Paediatr Dent.* 2014;15(4):389–91.

Hathaway R, Daskalogiannakis J, Mercado A, Russell K, Long RE, Cohen M, et al. The Americleft Study: An Inter-Center Study of Treatment Outcomes for Patients With Unilateral Cleft Lip and Palate Part 2. Dental Arch Relationships. *Cleft Palate-Craniofacial J.* 2011;48(3):244–51.

Hortis-Dzierzbicka M, Radkowska E, Fudalej PS. Speech outcomes in 10-year-old children with complete unilateral cleft lip and palate after one-stage lip and palate repair in the first year of life. *J Plast Reconstr Aesthetic Surg.* 2012;65(2):175–81.

Hortis-Dzierzbicka M, Radkowska E, Stecko E, Dudzinski L, Fudalej PS. Speech outcome in complete unilateral cleft lip and palate - a comparison of three methods of the hard palate closure. *J Oral Rehabil.* 2014;41(11):809–15.

Ireland AJ, Cunningham SJ, Petrie A, Cobourne MT, Acharya P, Sandy JR, Hunt NP. An index of orthognathic functional treatment need (IOFTN). *J Orthod.* 2014 Jun;41(2):77-83.

Katsuhiko K, Takahiro O, Garrett NR, Minoru T. Assessment of masticatory performance: methodologies and their application. *Prosthodont Res Pract.* 2004;3:33–45.

Kramer MS, Feinstein AR. Clinical biostatistics: LIV. The biostatistics of concordance. *Clin Pharmacol Ther.* 1981;29(1):111–23.

Kuijpers MA, Desmedt DJ, Nada RM, Bergé SJ, Fudalej PS, Maal TJ. Regional facial asymmetries in unilateral orofacial clefts. *Eur J Orthod.* 2015 Dec;37(6):636-42.

Lacerda RHW, Ozawa TO, Ramos TB, Furtado PGC, de Oliveira LA, de Oliveira AFB. Facial growth evaluation of complete unilateral cleft lip and palate operated patients: a cleft reference center in Paraíba, Brazil, using the “GOSLON” yardstick. *Oral Maxillofac Surg.* 2014;18(4):403–7.

Landis BN, Scheibe M, Weber C, Berger R, Brämerson A, Bende M, et al. Chemosensory interaction: Acquired olfactory impairment is associated with decreased taste function. *J Neurol.* 2010;257(8):1303–8.

Leme MS, Souza Barbosa Td, Gavião MB. Relationship among oral habits, orofacial function and oral health-related quality of life in children. *Braz Oral Res.* 2013 May-Jun;27(3):272-8.

Marquezin MCS, Kobayashi FY, Montes ABM, Gavião MBD, Castelo PM. Assessment of masticatory performance, bite force, orthodontic treatment need and orofacial dysfunction in children and adolescents. *Arch Oral Biol.* 2013;58(3):286–92.

Mars M, Plint DA, Houston WJB, Bergland O, Semb G. The Goslon Yardstick - a new system of assessing dental arch relationships in children with unilateral clefts lip and palate.pdf. *Cleft Palate J.* 1987;24(2):314-22.

Martelli DRB, Machado RA, Swerts MSO, Rodrigues LAM, de Aquino SN, Martelli Júnior H. Non syndromic cleft lip and palate: relationship between sex and clinical ectension. *Braz J Otorrinolaryngol.* 2012;78(5):116-20.

Martelli-Junior H, Porto LV, Martelli DR, Bonan PR, Freitas AB, Della Coletta R. Prevalence of nonsyndromic oral clefts in a reference hospital in the state of Minas Gerais, Brazil, between 2000-2005. *Braz Oral Res.* 2007 Oct-Dec;21(4):314-7.

Martínez-mesa J, Bonamigo RR, González-chica DA, Duquia RP. Sample size : how many participants do I need in my research? *An Bras Dermatol.* 2014 Jul-Aug;89(4):609-15.

Mueller C, Kallert S, Renner B, Stiassny K, Temmel a. FP, Hummel T, et al. Quantitative assessment of gustatory function in a clinical context using impregnated “taste strips.” *Rhinology.* 2003;41(1):2–6.

Neville B, Damm D, Allen C, Bouquot J. *Oral e Maxillofacial Pathology:* Philadelphia, W.B. Saunders; 1995.

Nicklaus S, Boggio V, Issanchou S. Les perceptions gustatives chez l'enfant. *Arch Pédiatrie.* 2005;12(5):579–84.

Owens S, Buschang PH, Throckmorton GS, Palmer L, English J. Masticatory performance and areas of occlusal contact and near contact in subjects with normal occlusion and malocclusion. *Am J Orthod Dentofac Orthop.* 2002 Dec 28;121(6):602–9.

Paradowska-Stolarz A, Kawala B. Occlusal Disorders among Patients with Total Clefts of Lip, Alveolar Bone, and Palate. *Biomed Res Int.* 2014;2014:1–6.

Rios-Vera V, Cunha R, Rodrigues M. Relationship among malocclusion , number of occlusal pairs and mastication. *Braz Oral Res.* 2010;24(4):419–24.

Rodrigues K, Sena MF De, Roncalli AG, Ferreira MAF. Prevalence of orofacial clefts and social factors in Brazil. *Braz Oral Res.* 2009;23(1):38–42.

Rolls ET. Taste, olfactory, and food texture processing in the brain, and the control of food intake. *Physiol Behav.* 2005 May 19;85(1):45-56.

Sakellaropoulou AV, Hatzistilianou MN, Emporiadou MN, Aivazis VT, Goudakos J, Markou K, Athanasiadou-Piperopoulou F. Association between primary nocturnal enuresis and habitual snoring in children with obstructive sleep apnoea-hypopnoea syndrome. *Arch Med Sci.* 2012 Jul 4;8(3):521-7.

Setó-Salvia N, Stanier P. Genetics of cleft lip and/or cleft palate: Association with other common anomalies. *Eur J Med Genet.* 2014;57(8):381–93.

Silvestre J, Tahiri Y, Paliga JT, Taylor JA. Incidence of positive screening for obstructive sleep apnea in patients with isolated cleft lip and/or palate. *Plast Surg (Oakv).* 2014 Winter;22(4):259-63.

Sipert CR, Sampaio AC, Trindade IE, Trindade AS Jr. Bite force evaluation in subjects with cleft lip and palate. *J Appl Oral Sci.* 2009 Mar-Apr;17(2):136-9.

Slagter AP, Bosman F, van der Glas HW, van der Bilt A. Human jaw-elevator muscle activity and food comminution in the dentate and edentulous state. *Arch Oral Biol.* 1993 Mar;38(3):195-205.

- Small DM, Jones-Gotman M, Zatorre RJ, Petrides M, Evans AC. Flavor processing: more than the sum of its parts. *Neuroreport*. 1997 Dec 22;8(18):3913-7.
- Speksnijder CM, Abbink JH, Van Der Glas HW, Janssen NG, Van Der Bilt a. Mixing ability test compared with a comminution test in persons with normal and compromised masticatory performance. *Eur J Oral Sci*. 2009;117(5):580–6.
- Sturmer T, Brenner H. Potential gain in precision and power by matching on strong risk factors in case-control studies: the example of laryngeal cancer. *J Epidemiol Biostat*. 2000;5(2):125–31.
- Talmant J-C, Talmant J-C, Lumineau J-P. [Nasal sequels of unilateral clefts: analysis and management]. *Rev Stomatol Chir Maxillofac*. 2007;108(4):275–88.
- Tan HL, Kheirandish-Gozal L, Abel F, Gozal D. Craniofacial syndromes and sleep-related breathing disorders. *Sleep Med Rev*. 2015 Jun 6;27:74-88.
- Üçüncü N, Ertugay E. The use of the index of orthodontic treatment need (IOTN) in a school population and referred population. *J Orthod*. 2001;28(1):45-52.
- van der Bilt A, Olthoff LW, Bosman F, Oosterhaven SP. The effect of missing postcanine teeth on chewing performance in man. *Arch Oral Biol*. 1993;38(5):423–9.
- van der Bilt A, Mojet J, Tekamp FA, Abbink JH. Comparing masticatory performance and mixing ability. *J Oral Rehabil*. England; 2010 Feb;37(2):79–84.
- van Lierde KM, Bettens K, Luyten A, Plettinck J, Bonte K, Vermeersch H, et al. Oral strength in subjects with a unilateral cleft lip and palate. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2014;78(8):1306–10.

World Health Organization. Global strategies to reduce the health care burden of craniofacial anomalies: report of WHO meetings on international collaborative research on craniofacial anomalies. *Cleft Palate Craniofac J.* 2004 May;41(3):238-43.

3 DISCUSSÃO

O presente trabalho consistiu de dois estudos caso-controle que objetivaram avaliar as funções orofaciais e a QVRSB e suas associações (*Artigo 1*) e verificar a interrelação das disfunções orofaciais com a maloclusão, performance mastigatória e paladar (*Artigo 2*) em crianças com FULP, selecionadas no HRAC/USP, Bauru, e pareadas por gênero ($\hat{\delta}=57,41\%$) e idade ($9,07 \pm 0,80$ anos) com escolares da rede pública de Piracicaba, totalizando 54 crianças de oito a dez anos de idade em cada grupo. Até o nosso conhecimento, este é o primeiro estudo caso-controle a verificar a associação entre disfunções orofaciais e QVRSB em crianças com FULP, bem como a investigar as características oclusais, mastigatórias e gustativas associadas às disfunções orofaciais nestes pacientes. O pareamento (por gênero e idade) permite a distribuição homogênea das variáveis nos grupos, eliminando a influência das mesmas nos resultados e contribuindo para a confiabilidade dos dados (Sturmer et al., 2000). Outro ponto positivo foi o cálculo da amostra que é essencial para a redução da probabilidade de erro (Martínez-Mesa et al., 2014). O uso de questionários válidos e confiáveis, bem como a calibração e treinamento dos examinadores, também são fatores importantes deste estudo.

No *Artigo 1*, crianças com FULP apresentaram mais sinais clínicos de disfunções orofaciais (NOT-S exame) do que os controles, especialmente relacionados aos domínios (1) face em repouso (100% vs. 13%), (3) expressão facial (63% vs. 22,2%) e (6) fala (77,8% vs. 27,8%). Em relação ao domínio (1) face em repouso, todos os pacientes apresentaram assimetria esquelética ou do tecido mole, enquanto 63% apresentou desvio da posição dos lábios na abertura da boca. A assimetria nasolabial é frequente em pacientes com FULP, sendo observadas diferenças na morfologia facial dos lados com e sem fissura (Farkas et al., 1993; Duffy et al., 2000; Fudalej et al., 2012b). Em relação ao domínio (3) expressão facial, 63% das crianças com FULP apresentava um déficit na força labial ao tentar assobiar ou assoprar. Por outro lado, van Lierde et al. (2014) encontraram forças de lábio e na elevação lingual normais em crianças com FULP unilateral. A fissura palatina tem um impacto maior na fisiologia oral com

consequências funcionais, por exemplo, há maior elevação da língua durante a elevação do trato aerodigestivo em pacientes com fissura palatina, que representa a primeira fase da deglutição (Malek, 2001; Peterson-Falzone et al., 2001). Sobre o domínio (3) fala, 74,1% dos pacientes apresentou fala não muita clara com um ou mais sons indistinguíveis ou nasalidade anormal. A condição anatômica alterada nestes pacientes deve ser reconstruída durante a infância para o desenvolvimento de padrões cinestésicos normais, evitando a incorporação de articulações compensatórias no sistema da fala (Hortis-Dzierzbicka et al., 2012).

Em relação aos sintomas de disfunções orofaciais (NOT-S entrevista), um terço dos pacientes com FULP relatou alterações na respiração como roncar durante o sono, ao contrário de 7,4% dos controles. Segundo Tan et al. (2015), crianças com FULP apresentam maior incidência de apnéia obstrutiva do sono, a qual é caracterizada por obstrução parcial e/ou intermitente prolongada das vias aéreas superiores que compromete a normalidade da ventilação e dos padrões neurofisiológicos do sono (Marcus et al., 2012). Estes pacientes também apresentam menores dimensões das vias aéreas faríngeas e do sistema craniofacial em comparação com crianças saudáveis (Rose et al., 2003). A musculatura da orofaringe também é interrompida pela fenda, que os impactos sobre o discurso e engolir, bem como afeta negativamente a manutenção da permeabilidade das vias aéreas, especialmente durante o sono.

As crianças com FULP relataram maior comprometimento do aspecto social do CPQ₈₋₁₀ do que os controles. Enquanto alguns encontraram maior impacto negativo nos domínios social (Broder and Wilson-Genderson, 2007; Ward et al., 2013) e funcional (Ward et al., 2013) em crianças com FULP comparadas a outras condições bucais (Broder e Wilson-Genderson, 2007) e controles (Ward et al., 2013), outros não encontraram diferença estatística entre os grupos (Jokovic et al., 2004; Wogelius et al., 2009). A magnitude do efeito encontrado no presente estudo foi moderada e a média da diferença entre os grupos foi somente de 1,7 pontos em uma escala que poderia variar de 0 a 40 pontos. A pequena diferença encontrada no domínio social pode ser atribuída à alta qualidade dos cuidados clínico e psicossocial fornecidos pelo HRAC/USP,

desde o nascimento até o decorrer de toda a infância. Ainda, a maioria dos pacientes com FULP classificaram a saúde bucal dos dentes ou boca como “muito boa” ou “boa” e relataram “nem um pouco” um “só um pouquinho” de incômodo no dia-a-dia decorrente dos dentes ou boca. Os resultados supracitados sugerem que embora as crianças com FULP possam encontrar maiores dificuldades no dia-a-dia, a qualidade de vida destas não diferiu das crianças sem fissuras, corroborando o estudo de Locker et al. (2005) que também não encontrou diferença significativa entre os grupos com FULP e cárie dentária. Segundo Strauss (2001), embora a aparência e a fala possam estar prejudicadas nestes pacientes, a maioria das crianças é “produtiva, colaboradora, feliz e satisfeita”.

Leme et al. (2013) encontraram correlação positiva significativa entre disfunção orofacial e QVRSB em crianças de oito a 14 anos que apresentavam hábitos orais (principalmente onicofagia), sugerindo que doenças orais ou alterações craniofaciais, como fissura labiopalatina, pelo comprometimento nas funções orais, consequentemente teriam influencia negativa na QVRSB. Barsi et al. (2013) confirmaram a influência da FULP na prevalência de hábitos orais, com menor frequência de sucção de chupeta, porém maior prevalência dos outros hábitos em crianças de 3 a 6 anos de idade, o que corrobora com o aconselhamento pós-operatório de remoção de hábitos de sucção após a palatoplastia devido à pressão aplicada sobre os músculos da cavidade oral que interfere na reparação tecidual, porém com consequente substituição por outros hábitos orais. O presente estudo confirmou a correlação entre os escores do NOT-S e do CPQ8-10, sugerindo que quanto maior a presença de disfunções orofaciais reportadas por crianças com FULP pior a QVRSB delas, no entanto não foi encontrada maior prevalência de hábitos nas crianças com FULP nesta faixa etária.

Considerando a alta prevalência de disfunções orofaciais nas crianças avaliadas com FULP, o *Artigo 2* avaliou as características oclusais e funcionais, especificamente performance mastigatória e paladar, associadas a estas alterações. Na análise de comparação entre grupos, crianças com FULP apresentaram pior performance mastigatória e menor percepção gustativa do que os controles. A

mastigação é a primeira etapa do processo de digestão, no qual a degradação mecânica do alimento facilita a ação das enzimas salivares e prepara o alimento para deglutição e posterior processamento no sistema digestivo (Marquezin et al., 2013). A severidade das maloclusões é um dos fatores que influenciam negativamente a performance mastigatória (English et al., 2002; Rios-Vera et al., 2010), sendo esta relação parcialmente justificada pelos menores número e área de contatos oclusais (van den Braber et al., 2001; Owens et al., 2002). No presente estudo, mais de metade dos pacientes necessitavam de cirurgia ortodôntica (escore GYI = 5), ao contrário de 66,7% dos controles que apresentavam leve/pequena necessidade de tratamento ortodôntico (escore IOTN = 2). O prognóstico ortodôntico muito ruim, indicativo de necessidade futura de cirurgia ortognática, apresentado por 53,7% dos pacientes pode ter relação com a pior performance mastigatória, isto é, no maior tamanho mediano da particular (valor X_{50}) e na maior necessidade de ciclos mastigatórios para triturar o alimento teste (valor de *b*).

Em relação ao paladar, a menor percepção gustativa pelas crianças com FULP pode ser justificada pelo padrão respiratório predominantemente bucal neste pacientes, encontrado em 75% das crianças com fissuras unilaterais (Talmant et al., 2007). Segundo Nicklaus et al. (2005), o sabor salgado é menos característico em crianças e sua atratividade depende da idade e do contexto, sendo o mecanismo de ativação de seus receptores ainda desconhecido. Ainda, publicações recentes tem sugerido que as desordens respiratórias do sono podem ocorrer concomitante ou secundariamente a FULP em crianças (Paliga et al., 2014; Silvestre et al., 2014), as quais apresentam maior risco de obstrução aérea superior como resultado da intervenção cirúrgica (Silvestre et al., 2014). A obstrução crônica pode comprometer as vias aéreas nasais e manifestar como apnéia obstrutiva do sono (Silvestre et al., 2014). No presente estudo, aproximadamente um terço das crianças com FULP relataram disfunções orofaciais relacionadas à respiração (NOT-S entrevista, domínio II), especialmente roncar enquanto dorme, sintoma este comum na síndrome da apnéia obstrutiva (Sakellaropoulou et al., 2012). Entretanto a relação causal entre estas variáveis não pode ser confirmada neste estudo, uma vez que a referência

diagnóstica para desordens respiratórias do sono é a polissografia (American Academy of Pediatrics, 2002).

As análises de correlação e regressão detectaram a performance mastigatória como variável associada às disfunções orofaciais como resultado da FULP. As funções orofaciais incluem um grande número de ações vitais como respiração, mastigação e deglutição e age como base da interação social em termos de fala, comunicação emocional, expressão facial e aparência. O processo mastigatório inclui a seleção de partículas alimentares que são posicionadas sobre os dentes pelos movimentos da mandíbula, língua e bochecha. As partículas são fracionadas em função das características morfológicas e funcionais das estruturas orofaciais que geram a força de mordida (Katsuhiko et al., 2004). Se alguma das funções orofaciais está comprometida, o processo mastigatório também fica comprometido. No presente estudo, pacientes com mais disfunções orofaciais, diagnosticadas clinicamente, necessitavam de mais ciclos mastigatórios para triturar o alimento teste em partículas menores do que a mediana; isto é, apresentaram pior performance mastigatória. Até o nosso conhecimento, este é o primeiro estudo que avaliou a performance mastigatória em crianças com FULP. O único estudo na literatura, desenvolvido por Sipert et al. (2009), objetivou avaliar a função mastigatória em adultos (18 a 26 anos de idade) com FULP mensurando a força de mordida. Estes autores encontraram déficit na força de mordida de homens com FULP comparados aos controles, no entanto esta diferença não foi verificada entre mulheres, considerando que 92,6% dos pacientes avaliados fizeram uso de aparelho ortodôntico, este déficit pode estar mais relacionado ao uso de aparelho ortodôntico do que à fissura. Entretanto a comparação entre os resultados do presente estudo e do supracitado deve ser feita com cautela considerando os diferentes métodos para mensurar a função mastigatória (capacidade individual de fragmentação do alimento teste e máxima força de mordida) e diferentes populações (crianças e adultos jovens), respectivamente.

Por fim é importante considerar que prejuízos a QVRSB podem estar relacionados ao nível socioeconômico, e apesar dos cuidados proporcionados pelo

HRAC-USP as crianças com FULP, há ampla variação no acompanhamento emocional a estas crianças nas cidades de origem tanto pela formação de equipes multiprofissionais quanto pela humanização de atendimento. A realização de pesquisas futuras com outros tipos de fissuras labiopalatais pode trazer mais informações sobre a relação entre as disfunções orofaciais e as demais variáveis estudadas, buscando verificar as funções que acarretam maiores impactos na QVRSB.

4 CONCLUSÃO

A partir dos resultados apresentados as seguintes conclusões foram estabelecidas:

- Entre os doze itens avaliando as disfunções orofaciais, os relacionados à respiração, simetria e expressão faciais e fala foram os mais frequentes em crianças com fissura unilateral de lábio e palato comparados as crianças do grupo controles;
- Crianças com fissura unilateral de lábio e palato relataram maior comprometimento da qualidade de vida relacionada à saúde bucalapenas do aspecto social;
- Quanto mais frequentes as disfunções orofaciais, maior o comprometimento da qualidade de vida relacionada à saúde bucal nas crianças com fissura unilateral de lábio e palato;
- Crianças com fissura unilateral de lábio e palato apresentaram maior comprometimento da performance mastigatória e menor percepção gustativa do sabor salgado, do que nos controles;
- A presença de fissura unilateral de lábio e palato esteve associada à pior performance mastigatória;
- Mais da metade das crianças com fissura unilateral de lábio e palato apresentou maloclusão severa, indicativa de necessidade futura de cirurgia ortognática, enquanto 66,7% das crianças do grupo controle apresentaram oclusão satisfatória, entretanto a severidade da maloclusão nas crianças com fissura não esteve relacionada as disfunções orofaciais.

REFERÊNCIAS

Amato JN, Tuon RA, Castelo PM, Gaviao MBD, Barbosa T de S. Assessment of sleep bruxism, orthodontic treatment need, orofacial dysfunctions and salivary biomarkers in asthmatic children. *Arch Oral Biol.* England; 2015 May;60(5):698–705.

American Academy of Pediatrics . Section on Pediatric Pulmonology, Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Clinical practice guideline: Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002;109:704-12.

Åsten P, Akre H, Persson C. Associations between speech features and phenotypic severity in Treacher Collins syndrome. *BMC Med Genet* [Internet]. 2014;15(1):47.

Bakke M, Bergendal B, McAllister A, Sjögren L, Åsten P. Development and evaluation of a comprehensive screening for orofacial dysfunction. *Swed Dent J*. 2007;31(2):75–84.

Bakke M, Larsen SL, Lautrup C, Karlsborg M. Orofacial function and oral health in patients with Parkinson's disease. *Eur J Oral Sci. Denmark*; 2011 Feb;119(1):27–32.

Barbosa T de S, Gavião MBD. Qualidade de vida e saúde bucal em crianças - parte II: versão brasileira do Child Perceptions Questionnaire Quality of life and oral health in children - Part II: Brazilian version of the Child Perceptions Questionnaire. *Ciênc saúde coletiva*. 2011;16(7):3267–76.

Barsi PC, Ribeiro da Silva T, Costa B, da Silva Dalben G. Prevalence of oral habits in children with cleft lip and palate. *Plast Surg Int.* 2013;2013:247908.

Bergendal B, Bakke M, McAllister A, Sjögren L, Åsten P. Profiles of orofacial dysfunction in different diagnostic groups using the Nordic Orofacial Test (NOT-S) – A review. *Acta Odontol Scand.* 2014;72(8):578–84.

Broder HL, Wilson-Genderson M. Reliability and convergent and discriminant validity of the Child Oral Health Impact Profile (COHIP Child's version). *Community Dent Oral Epidemiol.* 2007 Aug;35 Suppl 1:20-31.

Bromley SM; Doty RL. Clinical disorders affecting taste: an update. In: RL Doty (Ed), *Handbook of Olfaction and Gustation*. New York: Wiley-Liss, 2012.

Cunha DA Da, Silva GAP Da, Silva HJ Da. Repercussões da respiração oral no estado nutricional: por que acontece? *Arq Int Otorrinolaringol.* 2011;15(2):223–30.

Dak-Albab RJ, Dashash MA. The influence of socioeconomic status on oral health-related quality of life among Syrian children with cleft lip, or palate, or both. *Saudi Med J.* 2013;34(2):181–6.

Desmedt DJ, Maal TJ, Kuijpers MA, Bronkhorst EM, Kuijpers-Jagtman AM, Fudalej PS. Nasolabial symmetry and esthetics in cleft lip and palate: analysis of 3D facial images. *Clin Oral Investig.* 2015;19(8):1833–42.

Duffy S, Noar JH, Evans RD, Sanders R. Three-dimensional analysis of the child cleft face. *Cleft Palate Craniofac J.* 2000 Mar;37(2):137-44.

Dusek M, Simmons J, Buschang PH, al-Hashimi I. Masticatory function in patients with xerostomia. *Gerodontology.* 1996 Jul;13(1):3–8.

Edvinsson SE, Lundqvist LO. Prevalence of orofacial dysfunction in cerebral palsy and its association with gross motor function and manual ability. *Dev Med Child Neurol.* 2015 Sep 10.

English JD, Buschang PH, Throckmorton GS. Does Malocclusion Affect Masticatory Performance? *Angle Orthod.* Edward H. Angle Society of Orthodontists; 2002 Feb 1;72(1):21–7.

Farkas LG, Hajnis K, Posnick JC. Anthropometric and anthroposcopic findings of the nasal and facial region in cleft patients before and after primary lip and palate repair. *Cleft Palate Craniofac J.* 1993 Jan;30(1):1-12.

Farronato G, Kairyte L, Giannini L, Galbiati G, Maspero C. How various surgical protocols of the unilateral cleft lip and palate influence the facial growth and possible orthodontic problems? Which is the best timing of lip, palate and alveolus repair? literature review. *Stomatol Balt Dent Maxillofac J.* 2014;16(2):53–60.

Fontijntekamp F, Vanderbilt A, Abbink J, Bosman F. Swallowing threshold and masticatory performance in dentate adults. *Physiol Behav.* 2004;83(3):431–6.

Fudalej P, Katsaros C, Dudkiewicz Z, Offert B, Piwowar W, Kuijpers M, Kuijpers-Jagtman AM. Dental Arch Relationships following Palatoplasty for Cleft Lip and Palate Repair. *J Dent Res.* 2012a;91(1):47–51.

Fudalej P, Katsaros C, Hozyasz K, Borstlap WA, Kuijpers-Jagtman AM. Nasolabial symmetry and aesthetics in children with complete unilateral cleft lip and palate. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2012b Oct;50(7):621-5.

Gavião MBD, Raymundo VG, Rentes AM. Masticatory performance and bite force in children with primary dentition. *Braz Oral Res.* 2007;21(2):146–52.

Guedes RS, Piovesan C, Antunes JL, Mendes FM, Ardenghi TM. Assessing individual and neighborhood social factors in child oral health-related quality of life: a multilevel analysis. *Qual Life Res.* 2014 Nov;23(9):2521-30.

Harila V, Ylikontiola LP, Sandor GK. Dental arch relationships assessed by GOSLON Yardstick in children with clefts in Northern Finland. *Eur J Paediatr Dent.* 2014;15(4):389–91.

Hortis-Dzierzbicka M, Radkowska E, Fudalej PS. Speech outcomes in 10-year-old children with complete unilateral cleft lip and palate after one-stage lip and palate repair in the first year of life. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2012 Feb;65(2):175-81.

Hortis-Dzierzbicka M, Radkowska E, Stecko E, Dudzinski L, Fudalej PS. Speech outcome in complete unilateral cleft lip and palate - a comparison of three methods of the hard palate closure. *J Oral Rehabil.* 2014;41(11):809–15.

Hsieh Y-J, Liao Y-F, Shetty A. Predictors of poor dental arch relationship in young children with unilateral cleft lip and palate. *Clin Oral Investig.* 2012;16(4):1261–6.

Hunt O, Burden D, Hepper P, Johnston C. The psychosocial effects of cleft lip and palate: a systematic review. *Eur J Orthod.* 2005;27(3):274–85.

Ireland AJ, Cunningham SJ, Petrie A, Cobourne MT, Acharya P, Sandy JR, et al. An Index of Orthognathic Functional Treatment Need (IOFTN). *J Orthod.* 2014;41(2):77–83.

Jokovic A, Locker D, Stephens M, Kenny D, Tompson B, Guyatt G. Validity and reliability of a questionnaire for measuring child oral-health-related quality of life. *J Dent Res.* 2002 Jul;81(7):459-63.

Jokovic A, Locker D, Tompson B, Guyatt G. Questionnaire for Measuring Oral Health-related Quality of Life in Eight- to Ten-year-old Children. *Pediatr Dent.* 2004;26(6):512–8.

Katsuhiko K, Takahiro O, Garrett NR, Minoru T. Assessment of masticatory performance: methodologies and their application. *Prosthodont Res Pract.* 2004;3:33–45.

Klassen AF, Tsangaris E, Forrest CR, Wong KW, Pusic AL, Cano SJ, Syed I, Dua M, Kainth S, Johnson J, Goodacre T. Quality of life of children treated for cleft lip and/or palate: A systematic review. *J Plast Reconstr Aesthetic Surg.* 2012;65(5):547–57.

Kuijpers MA, Desmedt DJ, Nada RM, Bergé SJ, Fudalej PS, Maal TJ. Regional facial asymmetries in unilateral orofacial clefts. *Eur J Orthod.* 2015 Dec;37(6):636-42.

Leme MS, Souza Barbosa T De, Gavião MBD. Versão Brasileira do The Nordic Orofacial Test – Screening (NOT-S) para Avaliação de Disfunções Orofaciais. *Pesqui Bras Odontopediatria Clin Integr.* 2011;11(2):281–9.

Leme MS, Souza Barbosa Td, Gavião MB. Relationship among oral habits, orofacial function and oral health-related quality of life in children. *Braz Oral Res.* 2013 May-Jun;27(3):272-8.

Locker D, Jokovic A, Tompson B. Health-related quality of life of children aged 11 to 14 years with orofacial conditions. *Cleft Palate Craniofac J.* 2005 May;42(3):260-6.

Malek R. *Cleft Lip and Palate, Lesions, Pathophysiology and Primary Treatment.* Martin Dunitz: London, 2001.

Marcus CL, Brooks LJ, Draper KA, Gozal D, Halbower AC, Jones J, et al. Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2012 Sep;130(3):576e84.

Marquezin MCS, Kobayashi FY, Montes ABM, Gavião MBD, Castelo PM. Assessment of masticatory performance, bite force, orthodontic treatment need and orofacial dysfunction in children and adolescents. *Arch Oral Biol.* 2013;58(3):286–92.

Martelli DRB, Machado RA, Swerts MSO, Rodrigues LAM, de Aquino SN, Martelli Júnior H. Non syndromic cleft lip and palate: relationship between sex and clinical ectension. *Braz J Otorrinolaryngol.* 2012;78(5):116–20.

Martelli-Junior H, Porto LV, Martelli DR, Bonan PR, Freitas AB, Della Coletta R. Prevalence of nonsyndromic oral clefts in a reference hospital in the state of Minas Gerais, Brazil, between 2000-2005. *Braz Oral Res.* 2007 Oct-Dec;21(4):314-7.

Martínez-mesa J, Bonamigo RR, González-chica DA, Duquia RP. Sample size : how many participants do I need in my research? *An Bras Dermatol.* 2014 Jul-Aug;89(4):609-15.

Melinck S, Vagner MV, Hocevar-Boltezar I, Ovsenik M. Posterior crossbite in the deciduous dentition period, its relation with sucking habits, irregular orofacial functions, and otolaryngological findings. *Am J Orthod Dentofac Orthop.* American Association of Orthodontists; 2010;138(1):32-40.

Munz SM, Edwards SP, Inglehart MR. Oral health-related quality of life, and satisfaction with treatment and treatment outcomes of adolescents/young adults with cleft lip/palate: an exploration. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2011;40(8):790-6.

Neville B, Damm D, Allen C, Bouquot J. *Oral e Maxillofacial Pathology:* Philadelphia, W.B. Saunders; 2002.

Nicklaus S, Boggio V, Issanchou S. Les perceptions gustatives chez l'enfant. *Arch Pédiatrie.* 2005;12(5):579-84.

Ono Y, Lin Y, Iijima H, Miwa Z, Shibata M. Masticatory training with chewing gum on young children. *Kokubyo Gakkai Zasshi.* 1992;59(2):512-7.

Owens S, Buschang PH, Throckmorton GS, Palmer L, English J. Masticatory performance and areas of occlusal contact and near contact in subjects with normal occlusion and malocclusion. *Am J Orthod Dentofac Orthop.* 2002 Dec 28;121(6):602-9.

Paliga JT, Tahiri Y, Silvestre J, Taylor JA. Screening for obstructive sleep apnea in children treated at a major craniofacial center. *J Craniofac Surg.* 2014 Sep;25(5):1762-5.

Paradowska-Stolarz A, Kawala B. Occlusal disorders among patients with total clefts of lip, alveolar bone, and palate. *Biomed Res Int.* 2014;2014:583416.

Pedersen AM, Bardow A, Jensen SB, Nauntofte B. Saliva and gastrointestinal functions of taste, mastication, swallowing and digestion. *Oral Dis.* 2002 May;8(3):117–29.

Pereira LJ, Duarte Gaviao MB, Van Der Bilt A. Influence of oral characteristics and food products on masticatory function. *Acta Odontol Scand.* Norway; 2006 Aug;64(4):193– 201.

Peterson-Falzone S, Hardin-Jones M, Karnell M. Surgical management of cleft lip and palate. In: Peterson-Falzone S, Hardin-Jones M, Karnell M (Eds.). *Cleft Palate Speech*, Mosby, St. Louis, 2001.

Pocztaruk RDL, Frasca LCDF, Rivaldo EG, Fernandes EDL, Gavião MBD. Protocol for production of a chewable material for masticatory function tests (Optocal - Brazilian version). *Braz Oral Res.* 2008;22(4):305–10.

Queiroz Herkrath AP, Herkrath FJ, Rebelo MA, Vettore MV. Measurement of health-related and oral health-related quality of life among individuals with nonsyndromic orofacial clefts: a systematic review and meta-analysis. *Cleft Palate Craniofac J.* 2015 Mar;52(2):157-72.

Rios-Vera V, Cunha R, Rodrigues M. Relationship among malocclusion , number of occlusal pairs and mastication. *Braz Oral Res.* 2010;24(4):419–24.

Rodrigues K, Sena MF, Roncalli AG, Ferreira MA. Prevalence of orofacial clefts and social factors in Brazil. *Braz Oral Res.* 2009 Jan-Mar;23(1):38-42.

Rose E, Thissen U, Otten JE, Jonas I. Cephalometric assessment of the posterior airway space in patients with cleft palate after palatoplasty. *Cleft Palate Craniofac J* 2003 Sep;40(5):498-503.

Saeves R, Asten P, Storhaug K, Bagesund M. Orofacial dysfunction in individuals with Prader-Willi syndrome assessed with NOT-S. *Acta Odontol Scand*. England; 2011 Sep;69(5):310–5.

Sakellaropoulou AV, Hatzistilianou MN, Emporiadou MN, Aivazis VT, Goudakos J, Markou K, Athanasiadou-Piperopoulou F. Association between primary nocturnal enuresis and habitual snoring in children with obstructive sleep apnoea-hypopnoea syndrome. *Arch Med Sci*. 2012 Jul 4;8(3):521-7.

Silvestre J, Tahiri Y, Paliga JT, Taylor JA. Incidence of positive screening for obstructive sleep apnea in patients with isolated cleft lip and/or palate. *Can J Plast Surg* 2014 Winter;22(4):259e63.

Sipert CR, Sampaio AC, Trindade IE, Trindade AS Jr. Bite force evaluation in subjects with cleft lip and palate. *J Appl Oral Sci*. 2009 Mar-Apr;17(2):136-9.

Speksnijder CM, Abbink JH, Van Der Glas HW, Janssen NG, Van Der Bilt a. Mixing ability test compared with a comminution test in persons with normal and compromised masticatory performance. *Eur J Oral Sci*. 2009;117(5):580–6.

Strauss RP. "Only skin deep": health, resilience, and craniofacial care. *Cleft Palate Craniofac J*. 2001 May;38(3):226-30.

Stürmer T, Günther KP, Brenner H. Obesity, overweight and patterns of osteoarthritis: the Ulm Osteoarthritis Study. *J Clin Epidemiol*. 2000 Mar 1;53(3):307-13.

Talmant J-C, Talmant J-C, Lumineau J-P. [Nasal sequels of unilateral clefts: analysis and management]. *Rev Stomatol Chir Maxillofac*. 2007;108(4):275–88.

Tan HL, Kheirandish-Gozal L, Abel F, Gozal D. Craniofacial syndromes and sleep-related breathing disorders. *Sleep Med Rev*. 2015 Jun 6;27:74-88.

Tecco S, Festa F. Prevalence of signs and symptoms of temporomandibular disorders in children and adolescents with and without crossbites. World J Orthod. 2010 Spring;11(1):37-42.

van den Braber W, Van Der Glas HW, Van Der Bilt A, Bosman F. Chewing efficiency of pre-orthognathic surgery patients: selection and breakage of food particles. Eur J Oral Sci. 2001 Oct 1;109(5):306–11.

van der Bilt A, Mojet J, Tekamp FA, Abbink JH. Comparing masticatory performance and mixing ability. J Oral Rehabil. England; 2010 Feb;37(2):79–84.

van Lierde KM, Bettens K, Luyten A, Pletinck J, Bonte K, Vermeersch H, Roche N. Oral strength in subjects with a unilateral cleft lip and palate. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2014 Aug;78(8):1306-10.

Vettore MV, Sousa Campos AE. Malocclusion characteristics of patients with cleft lip and/or palate. Eur J Orthod. 2011 Jun;33(3):311-7.

Vieira I. Avaliação da percepção do paladar em indivíduos jovens com glossite migratória benigna [Dissertação de Mestrado]. Curitiba: Universidade Federal do Paraná, Curitiba, 2010.

Ward JA, Vig KW, Firestone AR, Mercado A, da Fonseca M, Johnston W. Oral health-related quality of life in children with orofacial clefts. Cleft Palate Craniofac J. 2013 Mar;50(2):174-81.

Whitaker ME, de Souza Freitas JA, Pegoraro-Krook MI, Ozawa TO, de Cássia Moura Carvalho Lauris R, Lauris JRP, et al. Relationship Between Occlusion and Lisping in Children With Cleft Lip and Palate. Cleft Palate-Craniofacial J. 2012;49(1):96–103.

Wogelius P, Gjørup H, Haubek D, Lopez R, Poulsen S. Development of Danish version of child oral-health-related quality of life questionnaires (CPQ8-10 and CPQ11-14). BMC Oral Health. 2009 Apr 22;9:11.

World Health Organization. Global strategies to reduce the health care burden of craniofacial anomalies: report of WHO meetings on international collaborative research on craniofacial anomalies. Cleft Palate Craniofac J. 2004 May;41(3):238-43.

APÊNDICES

Apêndice 1 – Termo de Consentimento Livre e Esclarecido

Pelo presente instrumento que atende às exigências legais, o(a) Sr(a)

_____, portador da cédula de identidade _____,

_____ , responsável pelo paciente * _____,

após leitura minuciosa deste documento, devidamente explicado pelos profissionais em seus mínimos detalhes, ciente dos serviços e procedimentos aos quais será submetido, não restando quaisquer dúvidas a respeito do lido e explicado, firma seu CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO concordando em participar da pesquisa: “Avaliação das funções oro-bucofaciais e qualidade de vida em crianças com fissuras labiais e palatinas”, realizada por: Ana

Bheatriz Marangoni Montes, nº do Conselho: CRO/SP 88.102 e Dra. Thaís Marchini de

Oliveira, nº do Conselho: CRO/SP 65.047, sob orientação da Dra. Taís de Souza Barbosa, nº

do Conselho: CROSP/SP 74.983 e co-orientação da Dra. Maria Beatriz Duarte Gavião, nº do

Conselho: CROSP/SP 17.669, que tem como objetivo: avaliar as funções orais, capacidade de

mastigação, sensação de paladar, presença e gravidade das maloclusões e qualidade de vida.

Este estudo é justificado pela grande quantidade de alterações bucais presentes em indivíduos

com fissura labial e palatina e que podem prejudicar funções vitais para o desenvolvimento

correto desses indivíduos, bem como a qualidade de vida.

Para tal serão selecionados 170 crianças com idade entre 8 e 10 anos, 85 com fissura

labial e palatina unilateral transforame incisivo em atendimento no Hospital de Reabilitação

de Anomalias Craniofaciais da Universidade de São Paulo (HRAC/USP) em Bauru – SP,

Brasil, e 85 sem alterações craniofaciais selecionadas em escolas públicas do município de

Piracicaba – SP, Brasil, nas quais serão realizados os seguintes métodos para avaliação:

Anamnese – entrevista com o responsável para verificar: histórico pré-natal, natal e pós-natal,

histórico dentário, uso de medicamentos, histórico familiar de fissuras. Exame clínico

intrabucal e extrabucal – avaliação dos dentes e da face, o material utilizado será o mesmo

utilizado normalmente na clínica (pinça, sonda exploradora e espelho bucal), além de

equipamentos de proteção individual (gorro, máscara, jaleco e luvas). Será verificada a fase

das trocas de dentes decíduos (“de leite”), o número de dentes decíduos e permanentes

presentes e oclusão dentária. Além disso, serão realizadas as medições de peso e altura para

comparar com as outras avaliações a seguir. Exame morfológico da oclusão – nos pacientes com fissura labial e palatina, será realizado em modelos de gesso já existentes e pertencentes ao arquivo do HRAC-USP, nas crianças sem fissuras será realizado por meio do exame clínico intrabucal. Avaliação das disfunções orofaciais – cada criança será avaliada por meio de exame físico simples e perguntas seguindo um roteiro específico (The Nordic Orofacial Test – Screening). Sensibilidade gustativa – será avaliada gotejando com conta-gotas no dorso da língua, quatro soluções com gostos diferentes, em três concentrações. Para cada uma das soluções a criança deverá dizer umas das opções de gosto sentido: doce, salgado, amargo ou ácido (azedo). Performance Mastigatória – a capacidade de mastigação de cada criança será verificada pela mastigação observada de um alimento teste artificial chamado Optocal plus, que são cubos pequenos parecidos com borracha, confeccionado com material não-tóxico e que não será deglutido (engolido) e, sim eliminado, cuspindo em uma peneira para posterior avaliação, este procedimento será realizado duas vezes em sequencia, com intervalo de 1 minuto entre as repetições. Qualidade de vida – avaliada por meio do questionário Child Perceptions Questionnaires (CPQ), irá verificar o impacto das alterações orais no bem-estar físico e psicológico e social, inclui perguntas gerais e específicas de doenças bucais.

Todas as avaliações serão realizadas nos locais de seleção das crianças, com duração de aproximadamente 40 a 50 minutos. Estas avaliações no HRAC/USP deverão ocorrer nos horários livres da criança (períodos entre as consultas ou após as mesmas), sem ocasionar comprometimento ou quaisquer prejuízos aos atendimentos previamente programados pelo HRAC/USP. Para as crianças das escolas, as avaliações serão realizadas conforme a liberação das atividades escolares neste período.

Para a avaliação de qualidade de vida, 20 crianças em tratamento no HRAC residentes em Bauru ou nas cidades próximas serão selecionadas para participar de uma segunda aplicação do questionário de qualidade de vida após 14 dias, e caso tenham disponibilidade para retornar, os custos com transporte do paciente e do responsável serão reembolsados pela pesquisadora.

Com esse estudo é esperado verificar qual o se a condição oral do paciente prejudica seu bem-estar, e desta forma poderá ser avaliada a qualidade do tratamento da criança para que possam ser sugeridas melhorias do atendimento das crianças com fissura labial e palatina tanto no tratamento quanto na reabilitação, conforme as maiores necessidades e prejuízos presentes em sua saúde oral. Não há riscos previstos para os indivíduos participantes.

O responsável pelo sujeito será esclarecido sobre a condição oral da criança, e esta deverá receber assistência e acompanhamento odontológicos preventivos adequados pela pesquisadora, dentro de suas atribuições, durante o período de duração da pesquisa, bem como, se necessário, os esclarecimentos para que procure atendimento por profissionais de outras áreas de saúde, como psicólogos, fonoaudiólogos, etc.

"Caso o sujeito da pesquisa queira apresentar reclamações em relação a sua participação na pesquisa, poderá entrar em contato com o Comitê de Ética em Pesquisa em Seres Humanos, do HRAC-USP, pelo endereço Rua Silvio Marchione, 3-20 no Serviço de Apoio ao Ensino, Pesquisa e Extensão ou pelo telefone (14) 3235-8421".

Fica claro que o sujeito da pesquisa ou seu representante legal, pode a qualquer momento retirar seu CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO e deixar de participar desta pesquisa e ciente de que todas as informações prestadas tornar-se-ão confidenciais e guardadas por força de sigilo profissional (Art. 9º do Código de Ética Odontológica).

Por estarem de acordo assinam o presente termo.

Bauru-SP, _____ de _____ de _____.

Assinatura do responsável pelo sujeito da pesquisa

Assinatura do pesquisador responsável

* CAMPO A SER PREENCHIDO PELO REPRESENTANTE LEGAL DO MENOR OU INCAPAZ.

Nome do Pesquisador Responsável: Ana Bheatriz Marangoni Montes

Endereço Institucional (Rua, Nº): Rua Sílvio Marchione, 3-55 - Vila Universitária

Cidade: Bauru Estado: SP CEP: 17012-230

Telefone: (14) 3235-8133 / 3234-5699 E-mail: anabheatriz@yahoo.com.br

Apêndice 2 – Ficha Clínica

Avaliação do paladar

Teste sorteado:

AVALIAÇÃO DO PALADAR

5mL / 2 gotas de cada solução

Ordem	Sabor detectado	Pontuação

Aplicar com conta gotas (duas gotas) no dorso da língua:

- ✓ Sortear a ordem de apresentação dos testes (A1, A2, B1 e B2)
- ✓ O participante deverá escolher para cada um dos testes uma das quatro opções: doce, salgado, amargo ou ácido (azedo), sem limite de tempo para a realização do teste
- ✓ Todos os sabores serão testados de forma que a administração dos testes respeite a ordem crescente das concentrações
- ✓ Entre cada teste: enxaguar a boca com água mineral

A	B	1	2
Doce 3	Ácido 3	Salgado 1	Amargo 1
Amargo 3	Salgado 3	Ácido 1	Doce 1
Salgado 3	Amargo 3	Doce 1	Ácido 1
Ácido 3	Doce 3	Amargo 1	Salgado 1
Ácido 2	Salgado 2		
Doce 2	Amargo 2		
Amargo 2	Doce 2		
Salgado 2	Ácido 2		

Para cada teste identificado corretamente, soma-se 1 ponto Respostas incorretas ou não conseguir identificar: não soma

ANEXOS

Anexo 1 – Certificado do Comitê de Ética em Pesquisa

The screenshot shows the Plataforma Brasil website with a green header bar. On the left, there's a sidebar with 'Saúde' and 'Ministério da Saúde' at the top, followed by the 'Plataforma Brasil' logo, 'Público', 'Pesquisador' (which is highlighted in blue), 'Alterar Meus Dados', and 'Cadastrados'. The main content area has a light gray background. A large button on the left says 'DETALHAR PROJETO DE PESQUISA'. To its right, a section titled 'DADOS DA VERSÃO DO PROJETO DE PESQUISA' contains the following information:

- Título da Pesquisa:** Avaliação das funções oro-bucofaciais e qualidade de vida em crianças com fissuras labiais e palatinas
- Pesquisador Responsável:** Ana Bheatriz Marangoni Montes
- Área Temática:**
- Versão:** 3
- CAAE:** 09293912-5.0000-5441
- Submetido em:** 14/05/2013
- Instituição PropONENTE:** Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais da JSP
- Situação da Versão do Projeto:** Aprovado
- Localização atual da Versão do Projeto:** Pesquisador Responsável
- Patrocinador Principal:** Faculdade de Odontologia de Piracicaba - Unicamp

On the right side of the detail page, there's a circular stamp with the text 'COORDENADOR ORIGINAL' around the perimeter and 'Plataforma Brasil' in the center. Below the stamp, it says 'Comprovante de Recepção: PB_COMPROVANTE_RECEPCAO_92939'.

Anexo 2 – Nordic Orofacial Test – Screening



Nordic Orofacial Test - Screening

NOT-S



O NOT-S é usado quando um paciente tem dificuldade para falar, mastigar ou engolir.

A seção de anamnese é conduzida como uma entrevista estruturada. O examinador faz a pergunta, explica, e faz perguntas adicionais quando necessário, interpreta a resposta e preenche o questionário.

A entrevista do NOT-S contém seis sessões: Função Sensorial, Respiração, Hábitos, Mastigando e Engolindo, Salivação e Secura da Boca (I-VI).

O exame do NOT-S contém seis sessões: Face em Repouso, Respiração Nasal, Expressão Facial, Músculos Mastigatórios e Função Mandibular, Função motora oral e Fala (1-6).

O manual ilustrado deve ser utilizado durante o exame.

País: _____

Fonoaudióloga	Dentista	Médico	Fisioterapeuta	Outros
<input type="checkbox"/>				

Data do exame ____/____/_____

Data de nascimento ____/____/_____ ♀ || ♂ ____

Nome: _____

Primeiro Diagnóstico Médico (especificar somente um): _____

Código de diagnóstico (ICD-10): _____

Posição durante o exame:

Sentado
 Deitado

Posição da cabeça quando sentado:

Normal (reta e vertical)
 Outra

Respostas com ajuda de outra pessoa:

CÓDIGO PARA AVALIAÇÃO: O ESCORE TOTAL DO NOT-S PODE VARIAR DE 0 A 12	X = SIM 0 = NÃO - = NÃO AVALIADO	SE EM UMA SESSÃO HOUVER UMA OU MAIS RESPOSTAS X, COLOQUE O ESCORE 1 NA CAIXA DA COLUNA À DIREITA
--------------------------------------------------------------------------------	----------------------------------------	--------------------------------------------------------------------------------------------------

NOT-S	ESCORE TOTAL	<input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/>
-------	--------------	---------------------------------------------------

ENTREVISTA NOT-S

		Pontuação
I	Função Sensorial	
	A- Escovar seus dentes faz você ter ânsia de vômito? Isso acontece muitas vezes?	<input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/>
	Desconforto óbvio como enjoô, vômito, ou refluxo – aumento de sensibilidade.	<input type="checkbox"/>
	B- Você coloca tanta comida na boca que fica difícil de mastigar? Isso acontece todo dia?	<input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/>
	Não consegue perceber quando a boca está cheia – diminuição da sensibilidade.	
II	Respiração	
	A- Você respira normalmente ou usa algum suporte para respirar? CPAP, Oxigênio, respirador, outros.	<input type="checkbox"/>
	B- Você ronca muito quando dorme? Isso acontece toda noite?	<input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/>
	Ronco ou apnéia; não se aplica a sintomas de asma ou alergias.	
III	Hábitos	
	A- Você roe as unhas, ou chupa os dedos ou outros objetos todos os dias? Hábito de sucção de chupeta e dedos não é avaliado abaixo dos 5 anos.	<input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/>
	B- Você chupa ou morde seus lábios, língua ou bochechas todos os dias?	<input type="checkbox"/>
	C- Você aperta forte seus dentes ou range eles durante o dia?	<input type="checkbox"/>

IV	Mastigando e Engolindo	
<p>A- Não come com a boca <input type="checkbox"/></p> <p>Tubo nasogástrico, gastrostomia, outros – pular perguntas B-E</p> <p>B- Você acha difícil comer alimentos com certa consistência (mais duros)? <input type="checkbox"/></p> <p>Excluir alergias e dietas especiais como vegetarianismo e intolerância ao glúten</p> <p>C- Você demora mais do que 30 minutos para comer uma refeição completa? <input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/></p> <p>D- Você engole grandes pedaços sem mastigar? <input type="checkbox"/></p> <p>E- Você costuma tossir durante as refeições? <input type="checkbox"/></p> <p>Acontece em quase todas as refeições.</p>		
V	Salivação	
<p>A - Você fica com saliva no canto da boca ou escorre saliva para o queixo todos os dias? Tem que limpar a boca, não se aplica enquanto dorme. <input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/></p>		
VI	Secura da boca	
<p>A- Você precisa beber algum tipo de líquido para conseguir comer uma torrada? <input type="checkbox"/></p> <p>B- Você sente dor na mucosa (pele) da boca ou na língua? <input type="checkbox"/> <input type="checkbox"/></p> <p>Dor recorrente ou sensação de formigamento pelo menos uma vez na semana; não se aplica</p> <p>a dor de dente ou vesículas (lesões bolhosas) na boca.</p>		
Nome: <u>ENTREVISTA NOT-S</u>		Soma:

EXAME NOT-S

		Pontuação
1	Face em repouso <i>Figura 1</i>	Observe a figura por um minuto, começando agora. Observação de um minuto. Avalie A-D
	A- Assimetria (considerar tanto osso quanto tecidos moles)	<input type="checkbox"/>
	B- Desvio da posição dos lábios (boca aberta ou outros desvios em mais de 2/3 do tempo)	<input type="checkbox"/>
	C- Desvio da posição da língua (ponta da língua visivelmente entre os dentes em mais de 2/3 do tempo)	<input type="checkbox"/>
	D- Movimentos involuntários	<input type="checkbox"/>
2	Respiração nasal <i>Figura 2</i>	
	A- Feche a boca e faça 5 profundas inspirações pelo nariz (cheire) Não consegue fazer 5 inspirações sucessivas pelo nariz. Se o paciente não consegue fechar os lábios, o paciente ou o examinador pode, manualmente ajudar a manter os lábios fechados. Não avaliar se o paciente estiver resfriado.	<input type="checkbox"/>
3	Expressão facial <i>Figura 3</i>	
	A- Feche os olhos bem forte Os músculos faciais não estão ativados, esteticamente, em simetria.	<input type="checkbox"/>
	 <i>Figura 4</i>	
	B- Mostre seus dentes Os lábios e os músculos faciais não são simetricamente ativados então os dentes são facilmente visíveis.	<input type="checkbox"/>
	 <i>Figura 5</i>	
	C- Tente assobiar/assoprar Não consegue fazer biquinho com os lábios simetricamente.	<input type="checkbox"/>

4	Músculos mastigatórios e função mandibular		
	Figura 6	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	A- Morda forte com seus dentes do fundo	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Não se pode registrar atividade simétrica quando dois dedos ficam pressionando os músculos mandibulares (m. masseter dos dois lados).		
	Figura 7	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	B- Abra a boca o máximo que conseguir	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Não consegue abrir a boca numa distância correspondente à largura do dedo indicador e do dedo do meio da mão esquerda do paciente. Se os dentes anteriores estiverem ausentes, use a largura de três dedos (indicador, dedo do meio e anelar) como medida.		
5	Função motora oral		
	Figura 8	<input type="checkbox"/>	
	A- Ponha sua língua para fora o quanto puder	<input type="checkbox"/>	
	Não consegue alcançar a borda do vermelhão dos lábios com a ponta da língua.		
	Figura 9	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	B- Lamba os seus lábios	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	Não consegue usar a ponta da língua para molhar os lábios e alcançar os cantos da boca.		
	Figura 10	<input type="checkbox"/>	
	C- Encha sua boca de ar e segure por pelo menos 3 segundos ...	<input type="checkbox"/>	
	Não consegue encher a boca de ar sem vazamento de ar ou sem fazer barulhos.		
	Figura 11	<input type="checkbox"/>	
	D- Abra a boca bem grande e diga ah-ah-ah!	<input type="checkbox"/>	
	Não se nota elevação da úvula e o palato mole é observado.		
6	Fala		
	A- Não fala Pular perguntas B-C.	<input type="checkbox"/>	
	Figura 12	<input type="checkbox"/>	
	B- Conte alto até 10	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	A fala não é clara com um ou mais sons indistinguíveis ou nasalidade anormal. Abaixo de 5 anos de idade exclua sons de R, S da avaliação.	<input type="checkbox"/>	
	Figura 13	<input type="checkbox"/>	
	C- Diga BANANA, FAQUEIRO, VACA, CEBOLA, CARRO	<input type="checkbox"/>	
	<u>EXAME NOT-S</u>	Soma:	

Anexo 3 – Child Perceptions Questionnaire 8-10

Olá,

Obrigado por nos ajudar com nosso estudo!

Estamos fazendo este estudo para entender melhor as coisas que podem acontecer com as crianças por causa de seus **dentes e sua boca**.

POR FAVOR, LEMBRE-SE:

- ☺ Não escreva seu nome no questionário.
- ☺ Isto **não é uma prova** e não existem respostas certas ou erradas.
- ☺ Responda o mais **honestamente** que puder.
- ☺ **Não converse com ninguém** sobre as perguntas enquanto as estiver respondendo.
- ☺ **Ninguém** que Você conhece verá suas respostas.
- ☺ Leia cada pergunta **cuidadosamente** e pense sobre as coisas que aconteceram com Você nas últimas **4 semanas**.
- ☺ Antes de responder, pergunte a Você mesmo: “**Isto acontece comigo por causa dos meus dentes ou da minha boca?**”
- ☺ Coloque um **X** na caixa () à frente da resposta que for **melhor** para Você.

Data de hoje: _____ / _____ / _____

Dia Mês Ano

PRIMEIRO, RESPONDA ALGUMAS PERGUNTAS SOBRE VOCÊ

1. Você é um menino ou uma menina?

- Menino
- Menina

2. Quando você nasceu? _____ / _____ / _____ Idade _____

Dia Mês Ano

3. Quando você pensa em seus dentes ou boca, Você acha que eles são:

- Muito bons
- Bons
- Mais ou menos
- Ruins

4. Quanto seus dentes ou boca lhe incomodam no dia-a-dia?

- Nem um pouco
- Só um pouquinho
- Mais ou menos
- Muito

**AGORA RESPONDA ALGUMAS PERGUNTAS SOBRE O QUE ACONTECEU COM
SEUS DENTES E SUA BOCA NAS ÚLTIMAS 4 SEMANAS**

5. Você teve dor em seus dentes ou em sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

6. Você teve locais doloridos em sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

7. Você teve dor em seus dentes quando tomou bebidas geladas ou comeu alimentos quentes?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

8. Você sentiu alimento grudado em seus dentes?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

9. Você teve mau hálito?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

RESPONDA AINDA SOBRE O QUE ACONTECEU NAS ÚLTIMAS 4 SEMANAS

10. Você precisou de mais tempo que os outros para comer seus alimentos devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

11. Você teve dificuldade para morder ou mastigar alimentos duros, como maçã, milho verde na espiga ou bife devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

12. Você teve dificuldade para comer o que gostaria devido a problemas nos seus dentes ou na sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

13. Você teve dificuldade para dizer algumas palavras devido a problemas aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

14. Você teve problemas enquanto dormia devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

AGORA RESPONDA ALGUMAS PERGUNTAS SOBRE O QUE ACONTEceu COM
SEUS SENTIMENTOS NAS ÚLTIMAS 4 SEMANAS

15. Você ficou triste devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

16. Você se sentiu aborrecido devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

17. Você ficou tímido devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

CONTINUE AS RESPOSTAS SOBRE O QUE ACONTECEU COM SEUS SENTIMENTOS

NAS ÚLTIMAS 4 SEMANAS

18. Você ficou preocupado com o que as outras pessoas pensam sobre seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

19. Você ficou preocupado porque Você não é tão bonito quanto os outros por causa de seus dentes ou sua boca nas últimas 4 semanas?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

**RESPONDA ALGUMAS PERGUNTAS SOBRE O QUE ACONTECEU NA SUA
ESCOLA NAS ÚLTIMAS 4 SEMANAS**

20. Você faltou à escola devido a problemas nos seus dentes ou na sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

21. Você teve dificuldade para fazer sua lição de casa devido a problemas com seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

22. Você teve dificuldade para prestar atenção na aula devido a problemas nos seus dentes ou na sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

23. Você não quis falar ou ler em voz alta na aula devido a problemas nos seus dentes ou na sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

RESPONDA ALGUMAS PERGUNTAS SOBRE VOCÊ JUNTO COM OUTRAS PESSOAS QUE ACONTECERAM NAS ÚLTIMAS 4 SEMANAS

24. Você não quis sorrir ou rir quando estava com outras crianças devido a problemas nos seus dentes ou na sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

25. Você não quis conversar com outras crianças devido aos problemas com seus dentes ou boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

26. Você não quis ficar perto de outras crianças devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

27. Você não quis participar de esportes e ir ao parque devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

28. Outras crianças tiraram sarro de você ou lhe apelidaram devido aos seus dentes ou sua boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

29. Outras crianças fizeram perguntas sobre seus dentes ou boca?

- Nunca
- Uma ou duas vezes
- Algumas vezes
- Várias vezes
- Todos os dias ou quase todos os dias

PRONTO, ACABOU!

OBRIGADA POR SUA AJUDA

Anexo 4 – Índice de Tratamento Ortodôntico – Componente Dentário

Avaliado por meio da utilização de uma régua específica, o mesmo é dividido em cinco pontuações ou escores, cada um correspondendo a uma das categorias abaixo relacionadas:

Categoria 1 (nenhuma necessidade)

1. más-oclusões extremamente pequenas, com deslocamento do ponto de contato menor do que 1mm.

Categoria 2 (leve/pequena necessidade)

3.a. superposição aumentada acima de 3,5mm, mas menor ou igual a 6mm, com selamento labial.

2.b. superposição reversa maior do que 0mm, mas menor ou igual a 1 mm.

2.c. mordida cruzada anterior e posterior com discrepância menor ou igual a 1 mm entre a posição de contato retroverso e a intercúspides.

2.d. deslocamento do ponto de contato maior do que 1mm, mas menor ou igual a 2mm.

2.e. mordida aberta anterior ou posterior maior do que 1mm, mas menor ou igual a 2mm. 2.f. aumento da sobremordida maior ou igual a 3,5mm, sem contato gengival.

2.g. oclusões pré-normais sem nenhuma outra anomalia.

Categoria 3 (moderada necessidade)

3.a. aumento da superposição para acima de 3,5mm, mas menor ou igual a 6mm, sem selamento labial.

3.b. superposição reversa maior do que 1mm, mas menor ou igual a 3,5mm.

3.c. mordidas cruzadas anterior e posterior com discrepancia maior do que 1mm, mas menor ou igual a 2mm entre a posição de contato retroverso e a posição intercúspides.

3.d. deslocamento no ponto de contato maiores do que 2mm, mas menores ou iguais a 4mm. 3.e. mordida aberta lateral e anterior maior do que 2mm, mas menor ou igual a 4mm.

3.f. sobremordida completa e profunda nos tecidos gengivais e palatais, mas sem trauma.

Categoria 4 (grave necessidade)

- 4.h. hipodontia menos extensa, necessitando de ortodontia pré-restauradora ou ortodôntica para fechamento de espaço (um dente por quadrante).
- 4.a. aumento da superposição para acima de 6mm, mas menor ou igual a 9mm.
- 4.b. superposição reversa maior que 1mm, mas menor que 3,5mm, com dificuldade de mastigação e fala.
- 4.c. mordidas cruzadas anterior e posterior com uma discrepância maior que 2mm entre as posições de contato retroverso e a intercúspides.
- 4.l. mordida cruzada lingual posterior sem nenhum contato oclusal funcional em um ou ambos os segmentos bucais.
- 4.d. deslocamentos graves no ponto de contato maiores do que 4mm. 4.e. mordidas abertas extremas anterior e posterior maiores do que 4mm. 4.f. sobremordida completa e aumentada com trauma gengival ou palatal.
- 4.t. dentes parcialmente erupcionados, inclinados e impactados contra os adjacentes. 4.x. presença de número excedente de dentes.

Categoria 5 (extrema necessidade)

- 5.i. impedimento da erupção dos dentes (exceto o terceiro molar) devido a aglomeração, deslocamento, presença de número extra de dentes da primeira dentição e alguma causa patológica.
- 5.h. hipodontia excessiva com implicações restaurativas (mais de um dente por quadrante) requerendo ortodontia pré-protética.
- 5.a. aumento da superposição para acima de 9mm.
- 5.m. superposição reversa maior que 3,5mm, com relatos de dificuldade de mastigação e fala. 5.p. fendas labiais e palatais e outras anormalidades craniofaciais.
- 5.s. primeira dentição inclusa.