

1. INTRODUÇÃO GERAL

Relatada, inicialmente, como síndrome por Maroteaux e Lamy (1965) (Maroteaux e Lamy, 1965), a picnodisostose (PKND) é uma displasia esquelética rara, autossômica recessiva, que atinge diferentes grupos étnicos e ambos os sexos, sendo relatada consangüinidade dos pais em mais de 30% dos casos. Essa displasia decorre de um defeito no gene codificador da enzima catepsina K (CK), localizada no cromossomo 1q21, resultando em deficiência na atividade dessa enzima e no consequente desequilíbrio no processo de reabsorção e aposição óssea (Maroteaux e Lamy, 1965; Gelb *et al.*, 1996).

As manifestações clínicas mais comuns da PKND incluem a baixa estatura, aumento na densidade óssea, frequentes fraturas, displasia clavicular, deformidades nos ossos do crânio com dificuldade de fechamento das suturas, acrosteólise das falanges distais, ossificação incompleta das fontanelas, unhas finas e hipoplásicas, proptose, esclerótica azul, nariz adunco, além de bossa frontal e parietal (Maroteaux e Lamy, 1965). Ness contexto, o diagnóstico diferencial da PYCD compreende outras doenças esqueléticas que afetam crânio, mandíbula e falanges distais, tais como a osteopetrose, a osteogênese imperfeita, a displasia cleidocraniana, a acondroplasia, a síndrome de Robinow e a doença de Camurati-Engelmann (Lazner *et al.*, 1999; Soliman *et al.*, 2001).

O exame intra-oral de pacientes com PKND geralmente revela mordida cruzada posterior e aberta anterior, severo apinhamento dental, pobre higiene oral, doença periodontal, dentes extremamente cariados, desenvolvimento de osteomielite, osteosclerose, fraturas e limitação de abertura bucal, além de anomalias esqueléticas com possível redução do espaço aéreo da faringe (Fonteles *et al.*, 2007).

Embora os conhecimentos genéticos e bioquímicos no campo das displasias ósseas estejam progredindo, as características clínicas e principalmente as imaginológicas ainda são as bases diagnósticas da PKND (Bertola *et al.*, 2010).

Alguns estudos têm relatado os achados clínicos e radiográficos relacionados à síndrome (Landa *et al.*, 2000; Soliman *et al.*, 2001), poucos têm relacionados medidas cefalométricas a essas descrições (Hunt *et al.*, 1998; Muto *et al.*, 2005; Fonteles *et al.*, 2007).

Hunt *et al.* (1998) relataram 3 casos de PKND, onde foi mensurado o ângulo ANB, tendo sido encontrado valores negativos para um dos casos descritos evidenciando a má oclusão (Hunt *et al.*, 1998). Em adição, Fonteles *et al.* (2007) descreveram dados cefalométricos de 4 casos, observando redução de medidas maxilares e redução no tamanho do corpo mandibular (Fonteles *et al.*, 2007). Todos os casos revelaram predomínio de crescimento vertical com inclinação do plano mandibular com rotação horária (SN.GoMe), com importante deficiência de crescimento do ramo mandibular (Goc-Ar) evidenciada pela deficiência na altura facial posterior (S-Goc) comprometendo o espaço aéreo da faringe (Hunt *et al.*, 1998; Fonteles *et al.*, 2007). Johal & Conaghan (2004) relacionam a morfologia maxilar com tais distúrbios (Johal e Conaghan, 2004).

No entanto, a relação entre o crescimento e desenvolvimento crânio-facial e a função naso-respiratória ainda permanece controversa apesar de vários estudos e pesquisas na área. Acredita-se que quando o volume aéreo do espaço nasofaríngeo apresenta-se diminuído, seja pela presença de adenóide hipertrófica ou por uma estrutura anatômica estreita da nasofaringe, o paciente pode desenvolver uma tendência de respiração bucal que, durante a fase de crescimento, pode desviar o desenvolvimento normal gerando características craniofaciais específicas, como: mandíbula retrognata, incisivos superiores vestibularizados, palato ogival, arco

maxilar atrésico, mordida aberta, lábio superior curto e hipotônico, musculatura peribucal flácida e aparência conhecida como “face adenoideana” resultante de uma postura constante de lábios entreabertos (Peltomaki, 2007). Tais alterações esqueléticas e dentárias podem ser responsáveis por uma maior ocorrência de distúrbios relacionados ao sono (Johal e Conaghan, 2004).

O sono é um fenômeno essencial à homeostasia, a partir do qual todo o organismo é renovado (Ito, 2005) e é fundamental para uma boa saúde mental e emocional (Andersen e Tufik, 2010). O sono é definido como processo dinâmico e fisiológico de perda de consciência e inativação muscular voluntária. A estrutura normal do sono é composta de cinco fases cíclicas: estágios 1, 2, 3, 4 do sono lento ou *Non Rapid Eye Movement (NREM – sem movimentos oculares rápidos)* e sono paradoxal ou *Rapid Eye Movement (REM)* - movimentos oculares rápidos (Ito, 2005; Andersen e Tufik, 2010).

Com o aumento das desordens respiratórias do sono, tais como ronco, síndrome de resistência das vias aéreas superiores (SRVAS) e síndrome da apnéia do sono (SAOS), houve a necessidade de melhores meios de diagnóstico e de tratamento para estes distúrbios (Battagel *et al.*, 2000). Nas últimas décadas, Medicina e Odontologia estiveram focadas nas desordens respiratórias ocorridas durante o sono (Dal Fabbro *et al.*, 2010). Nesse cenário, a SAOS têm sido definida como obstrução parcial ou total da via aérea superior durante o sono, por pelo menos 10 segundos, associado a sinais e sintomas clínicos (Bittencourt, 2008). Estes episódios apnéicos resultam em reduções da saturação sanguínea de oxigênio e despertares associados ao término destes eventos (Dal-Fabbro *et al.*, 2010).

Segundo a Academia Americana de Medicina do Sono (AASM), para o diagnóstico da SAOS é necessária a ocorrência de no mínimo cinco apneias e/ou hipopnéias por hora de sono, somada a sintomas clínicos dos quais os mais

importantes são ronco alto e sonolência diurna excessiva (Almeida, 2002). Os sinais e sintomas mais relacionados com a SAOS são: ronco, sono agitado, sudorese e hiper-sonolência noturna, respiração bucal, irritabilidade, hiperatividade, diminuição da atenção, cefaléia matinal e obesidade (Pignatari e Al., 2002).

A prevalência da SAOS é de 4% da população adulta masculina e 2% da feminina (Bondemark, 1999). O risco de se desenvolver essa condição aumenta de acordo com o histórico familiar e a partir da 4ª década de vida. Isso porque indivíduos acima de quarenta anos de idade têm maior propensão à obesidade (Índice de Massa Corpórea > 27) e às mudanças fisiológicas naturais que ocorrem ao longo dos anos, como a diminuição da profundidade da orofaringe; alongamento e estreitamento do palato mole; e a redução do tônus muscular (Battagel *et al.*, 2002). Todos esses fatores causam redução significativa da via aérea superior (Lowe *et al.*, 1986; Battagel *et al.*, 2000; Battagel *et al.*, 2002; Johal e Conaghan, 2004).

Como possíveis consequências advindas da SAOS pode-se citar hipoxia, hipercapnia, acidose e até hipertensão pulmonar e arterial sistêmica e insuficiência cardíaca, comprovados por exames laboratoriais (Gale *et al.*, 2000; Cavalcanti Filho, 2002). Ainda pode haver diminuição da função cognitiva de reflexos motores, com relatos de deterioração intelectual dificuldade de concentração, amnésia retrógrada, relacionamento inter-pessoal prejudicado, depressão, insônia, enurese, confusão matinal, alteração da função sexual, alucinações e aumento do apetite (Pignatari e Al., 2002). Além disso, estes pacientes também têm riscos aumentados de envolvimento em acidentes de trânsito e automobilísticos também têm sido descritos na literatura (Dal-Fabbro *et al.*, 2010). Dessa forma, para alguns autores o tratamento da SAOS tem grande impacto na qualidade e expectativa de vida dos pacientes (Hounsfield, 1973; Swennen *et al.*, 2006).

Para provimento do plano de tratamento, deve-se estabelecer o correto diagnóstico da SAOS, o qual exige uma equipe multidisciplinar composta por um médico especialista em medicina do sono, neurologista, otorrinolaringologista, psiquiatra ou pneumologista através de anamnese criteriosa, ou seja, a história do paciente, verificando incidência de ronco, sono agitado, paradas respiratórias, sonolência diurna excessiva e quadros de redução de função cognitiva e reflexos motores (Gale *et al.*, 2000; Bittencourt, 2008).

A polissonografia de noite inteira é considerada padrão-ouro para o diagnóstico de apneia e outras desordens do sono, por apresentar maior sensibilidade e especificidade (Silva e Garbuio). Polissonografia é um termo genérico que se refere ao registro simultâneo de variáveis fisiológicas durante o sono (Silva e Garbuio), que utiliza eletrodos e sensores para monitorização da atividade cerebral, eletroencefalograma (EEG), eletroculografia (EOG) eletromiografia (EMG), eletrocardiograma (ECG), esforço respiratório, fluxo aéreo nasal e bucal, saturação de oxigênio, posição corporal e ronco (Silva e Garbuio; Pignatari e Al., 2002). Todos os índices fornecidos pela polissonografia devem ser avaliados, porém o IAH é o fator principal, pois é a partir dele que se diagnostica a SAOS, auxiliando o planejamento terapêutico, além de ser um registro para avaliação da eficácia da terapia empregada (Cavalcanti Filho, 2002).

Para AASM a ocorrência de no mínimo cinco apneias e/ou hipopneias por hora de sono, somada a sintomas clínicos dos quais os mais importantes são ronco alto e sonolência diurna excessiva, caracterizam a síndrome (1999). Por essa classificação o paciente é considerado roncador primário quando o seu IAH estiver abaixo de cinco, como portador de SAOS média a moderada quando o IAH fica entre 15 e 30 e com SAOS severa quando o IAH for superior a 30, classificação também adotada pela Associação Brasileira do Sono (Bittencourt, 2008).

Várias técnicas de imagem têm sido empregadas para se investigar a etiologia da SAOS e as modificações decorrentes do tratamento com aparelhos intra-orais, estando entre elas a cefalometria, videofluoroscopia, tomografia computadorizada e ressonância magnética (Almeida *et al.*, 2008). A mudança no espaço aéreo superior, observada em diversos estudos, é confirmada através da radiografia cefalométrica, porém, esta é uma imagem bidimensional de estruturas tridimensionais, com pouca discriminação de pontos de referência (Garib e Al., 2007).

Durante a introdução da tomografia computadorizada como recurso diagnóstico, no início dos anos 70 (Hounsfield, 1973), sua utilização no cotidiano clínico enfrentava problemas como: o alto custo, o grande espaço necessário para a instalação do aparelho, o tempo de exposição longo e, o mais importante, a alta dose de radiação a que o paciente era submetido (Garib e Al., 2007).

O desenvolvimento de uma nova tecnologia em 1997, a tomografia computadorizada de feixe cônico (TCFC) resolveu as limitações da tomografia computadorizada de feixe em leque (Arai e Al., 2006). Os principais benefícios da TCFC referem-se à dose de radiação reduzida, ao menor custo e ao posicionamento mais confortável para o paciente (Garib e Al., 2007).

Através da TCFC, podem ser obtidas todas as imagens possíveis para a região dentomaxilofacial, visão espacial da articulação temporomandibular (ATM), bem como, tem-se a possibilidade de separar o lado direito do esquerdo da face, na análise cefalométrica, minimizando a sobreposição das estruturas ósseas (Quintero *et al.*, 1999; Kau *et al.*, 2005; Lamichane *et al.*, 2009). Em adição, a técnica viabiliza a captura de todo o volume do objeto num tempo inferior a um minuto (Quintero *et al.*, 1999) e os dados volumétricos são formados por blocos tridimensionais cubóides, conhecidos como *voxels*. Cada *voxel* representa um

específico grau de raios X absorvido, e o seu tamanho determinará a resolução da imagem. Comparativamente, a TC de feixe em leque, apresenta os *voxels* anisotrópicos, ou seja, são blocos retangulares, onde a maior dimensão está na direção axial. Apesar da sua superfície, na TC, poder ser tão pequena quanto um retângulo de 0,625 mm, sua profundidade é usualmente da ordem de 1 a 2 mm. Já na TCFC, os *voxels* são isotrópicos, ou seja, iguais em todas as três dimensões, com um tamanho médio de 0,4 mm (Sukovic, 2003; Scarfe *et al.*, 2006).

Diante de informações tão relevantes acerca das alterações crâniofaciais observadas em pacientes portadores de PKND, das modificações no espaço aéreo faríngeo e da SAOS, bem como, da escassez de estudos que tenham correlacionados achados cefalométricos, tomográficos e polissonográficos em paciente com PKND, justifica-se a realização da presente pesquisa.

2 PROPOSIÇÃO

Os objetivos do presente trabalho foram:

2.1 Objetivo Geral

Avaliar aspectos imaginológicos da via aérea superior e presença de distúrbios do sono em indivíduos com PKND.

2.2 Objetivos Específicos

- ✓ Caracterizar o perfil cefalométricos de indivíduos com PKND e compará-lo com o de indivíduos não sindrômicos.
- ✓ Caracterizar o volume da via aérea de indivíduos com PKND e compará-lo com o de indivíduos não sindrômicos.
- ✓ Caracterizar o perfil polissonográfico de indivíduos com PKND e compará-lo com o de indivíduos não sindrômicos.
- ✓ Correlacionar o perfil cefalométricos e o volume da via aérea superior com achados polissonográficos de indivíduos com PKND.

3 CAPÍTULOS

Esta tese está baseada no Artigo 46 do Regimento Interno do Programa de Pós-graduação em Odontologia da Universidade Federal do Ceará que regulamenta o formato alternativo para dissertações de Mestrado e teses de Doutorado e permite a inserção de artigos científicos de autoria ou co-autoria do candidato. Por se tratarem de pesquisas envolvendo seres humanos, ou partes deles, o projeto de pesquisa foi submetido à apreciação do Comitê de Ética em Pesquisa da Universidade Federal do Ceará, tendo sido aprovado sob o protocolo

Assim sendo, esta tese é composta de um capítulo, contendo artigo redigido de acordo com a revista científica escolhida (Anexo), conforme descrito abaixo:

3.1 Capítulo 1

Avaliação de aspectos cefalométricos, tomográficos e polissonográficos em indivíduos com picnodisostose

Autores: José Luciano Pimenta Couto, Alynne Vieira de Menezes Pimenta, Fábio Wildson Gurgel Costa, Pedro Felipe Carvalhedo de Bruin, Cauby Maia Chaves Júnior, Cristiane Sá Roriz Fonteles.

Este artigo seguiu as normas de publicação do periódico: *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics* (ISSN 1097-6752)

3.1 Capítulo 1

AVALIAÇÃO DE ASPECTOS CEFAOMÉTRICOS, TOMOGRÁFICOS E

POLISSONOGRÁFICOS EM INDIVÍDUOS COM PICNODISOSTOSE

RESUMO

Introdução: O objetivo do presente estudo foi avaliar a via aérea superior e a presença de distúrbios do sono em indivíduos com picnodisostose (PKND).

Métodos: Nove indivíduos com PKND realizaram exames polissonográficos, tomográficos e cefalométricos onde foram avaliada a presença da síndrome da apneia obstrutiva do sono (SAOS), o volume total de via aérea superior e a dimensão de cinco áreas transversais da faringe. Foram selecionadas imagens tomográficas e cefalométricas de 9 (nove) pacientes saudáveis, não-sindrômicos, pareados por idade e gênero para compor os controles do presente trabalho.

Resultados: Os indivíduos com PKND apresentaram grande comprometimento craniofacial, com um padrão de retrusão maxilar e mandibular, tendência a crescimento vertical e rotação horária da mandíbula, associado a um deslocamento inferior do osso hióide em relação ao grupo controle ($P < 0,05$), além de uma redução estatisticamente significativa no volume e nas cinco secções transversais avaliadas. O resultado polissonográfico revelou uma prevalência de SAOS em 55,6% da população de PKND estudada. **Conclusões:** Indivíduos com PKND apresentam uma série de alterações esqueléticas craniofaciais correlacionadas com um estreitamento das vias aéreas, estando esses fatores associados ao diagnóstico de SAOS.

Palavras-chave: Via aérea superior. Picnodisostose. Síndrome da apnéia obstrutiva do sono.

INTRODUÇÃO

O estudo da relação entre crescimento e desenvolvimento crânio-facial e função naso-respiratória tem demonstrado que alterações esqueléticas e dentárias podem ser responsáveis por uma maior ocorrência da síndrome de apnéia obstrutiva do sono (SAOS).^{1,2} A SAOS caracteriza-se pela presença de episódios recorrentes de obstrução parcial ou completa da via aérea superior (VAS) durante o sono.³ O diagnóstico das alterações do sono deve ser fornecido por meio de polissonografia (PSG), atualmente considerada pela Academia Americana de Medicina do Sono (AASM) o método padrão-ouro para o diagnóstico da SAOS.⁴

Existem evidências de que a VAS de pacientes com SAOS apresenta um maior grau de estreitamento que a de indivíduos normais. Essa redução tem causas multifatoriais, que incluem alterações craniofaciais, hipertrofia tonsilar e da adenóide, macroglossia, hiperplasia do tecido mole da orofaringe, protrusão da base da língua, retrognatía e posição inferior do hióide.^{5,6} Considerando que o colapso recorrente da VAS durante o sono é um dos fatores mais importantes na patogênese da SAOS, a detecção desse estreitamento usando exames por imagem tem sido objeto de vários estudos.⁷⁻⁹

A picnodisostose (PKND) (OMIM:265800) é uma displasia esquelética rara, autossômica recessiva, com incidência estimada de um para cada um milhão de nascimentos.^{10,11} Dentre os achados presentes, pode-se citar a baixa estatura, maior risco a fraturas, retardo no fechamento das suturas, atresia no terço médio da face, micrognatía e malformações dentárias.^{12,13} A avaliação das alterações craniofaciais relacionadas à PKND tem revelado o predomínio de crescimento vertical com inclinação do plano mandibular, rotação horária (SN.GoMe), com importante deficiência de crescimento do ramo mandibular (Goc-Ar) evidenciada pela

deficiência na altura facial posterior (S-Goc) comprometendo o espaço aéreo da faringe.¹³

A cefalometria lateral tem sido considerada uma ferramenta de diagnóstico padrão em pacientes com SAOS, especialmente quando se considera a avaliação da morfologia craniofacial.¹⁴ Porém, embora ofereça informações valiosas, torna-se limitada por permitir a análise da via aérea bidimensionalmente (plano sagital), não sendo possível uma análise tridimensional e volumétrica, como a obtida através da tomografia computadorizada (TC).¹⁵⁻¹⁷ Em contrapartida, a tomografia computadorizada de feixe cônico (TCFC) vem sendo utilizada na análise de vias aéreas superiores¹⁶⁻¹⁸, uma vez que essas imagens são adquiridas usando uma dose de radiação relativamente baixa, quando comparada à TC de feixe em leque, além de possibilitar a obtenção de reconstruções multiplanares e tridimensionais, possibilitando uma reprodução fidedigna das vias aéreas.¹⁸ Em paciente com PKND, embora apenas o trabalho de Lajjranchi et al tenha realizado uma caracterização morfológicacraniofacial de tais pacientes através de TCFC, não há estudos que tenham caracterizado a via aérea superior na PKND.¹⁸

O presente trabalho reuniu uma amostra significativa de pacientes portadores de PKND com o objetivo de avaliar aspectos imaginológicos da via aérea superior e a presença de distúrbios do sono em indivíduos com PKND, comparando com não-sindrômicos pareados por gênero e idade. Até a presente data, aparentemente não existem estudos que tenham avaliado simultaneamente tais parâmetros em indivíduos com PKND.

MATERIAL E MÉTODOS

Delineamento do estudo e aspectos éticos

Luciano Pimenta 30/5/15 10:35

Deleted: convencional

Trata-se de um estudo analítico, do tipo caso-controle (1:1), no qual uma amostra formada por 9 (nove) indivíduos com PKND, cadastrados e acompanhados pelo Serviço de Extensão a Menores Necessitando de Tratamento Especializado (SEMENTE) do curso de Odontologia da Universidade Federal do Ceará (Brasil). Após avaliação de um banco de dados com imagens cefalométricas e de TCFC de 150 indivíduos classificados como Classe I de Angle, provenientes de clínica radiológica de referência na cidade de Fortaleza, Ceará (Brasil) foram selecionadas imagens de 9 (nove) indivíduos não-sindrômicos, pareados por idade e gênero para compor os controles do presente trabalho. Apenas os exames por imagens dos controles foram usadas, sendo salvaguardadas quaisquer informações que permitissem a identificação desses indivíduos.

O presente estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos da Universidade Federal do Ceará (UFC) sob o protocolo n° 42855614.6.0000.5054. Todos os participantes da pesquisa assinaram o termo de consentimento informado (Anexo 1), antes da aquisição das imagens e exames polissonográficos.

Aquisição das imagens

As tomadas radiográficas cefalométricas foram realizadas numa mesma clínica de radiologia, por um técnico experiente, seguindo-se a instrução de manter o plano horizontal de Frankfurt paralelo ao solo e fazendo uso do cefalostato. As imagens por TCFC foram adquiridas por meio do tomógrafo i-CAT® (Imaging Sciences, Hatfield, PA, EUA), com parâmetros de exposição: 120 kVp, 14 mA e FOV de 23 x 17 cm.

Análise de parâmetros cefalométricos

Como valores a serem mensurados, foram utilizados os parâmetros cefalométricos para SAOS preconizados pela UNIFESP.¹⁹ Para análise cefalométrica foi utilizado o software Radiocef Studio 2 (RadioMemory Ltda., Belo Horizonte, MG, Brasil)(Fig 1).

Avaliação tomográfica da via aérea superior

Para análise das vias aéreas superiores, foram reconstruídas imagens tridimensionais, geradas por reconstruções multiplanares, pelas ferramentas próprias do software Insight ITK-SNAP 2.4.0[®] (www.itksnap.org) (Cognitica, Philadelphia, Pa, EUA). A confiabilidade das medidas volumétricas realizadas por esse software foi testada previamente por Grauer et al²⁰ e julgada como confiável e pouco suscetível a erro significativo.^{20,21}

As medições foram realizadas por um examinador previamente calibrado. A reconstrução do modelo 3D foi realizada com o modo de segmentação semiautomática do software. Os limites para delimitação da área de interesse para segmentação foram: (a) anterior: plano vertical que passa através da espinha nasal posterior (ENP), perpendicular ao plano sagital; (b) posterior: parede posterior da faringe com a ferramenta posicionada sobre as vértebras cervicais; (c) lateral: paredes laterais da faringe, incluindo todas as projeções laterais faríngeas; (d) inferior: plano tangente à projeção caudal medial da 4^a vértebra cervical, perpendicular ao plano sagital; (e) superior: ponto mais alto da nasofaringe (Fig. 2). Após finalizada a segmentação, a imagem do volume das vias aéreas superiores foi reconstruída na janela 3D do software (Fig. 3). O volume da estrutura foi mensurado em mm³. Para se determinar o valor das áreas transversais foram

definidos cinco planos, identificados no modelo 3D por cores distintas²². As áreas foram calculadas a partir dos dados obtidos pela utilização da ferramenta de segmentação do manual do software Insight ITK-SNAP 2.4.0[®] (Fig.4).

Dados antropométricos

Foram realizadas coletas de dados referentes a idade, gênero, peso e altura dos indivíduos com PKND para que pudessem ser correlacionados com os achados de VAS e polissonográficos.

Avaliação polissonográfica

Os indivíduos com PKND foram encaminhados para a realização de polissonografia no Laboratório de Sono (Faculdade de Medicina de Universidade Federal do Ceará), utilizando-se o Polissonógrafo Digital Alice 5 (Respironics). Os recursos do sistema de polissonografia computadorizada foram empregados segundo as normas internacionais estabelecidas para o monitoramento do sono.²² Somente os indivíduos pertencentes ao grupo teste foram submetidos a um exame polissonográfico completo, durante uma noite inteira de sono, em quarto com isolamento para sons externos, temperatura controlada e monitoramento audiovisual.

Como critério diagnóstico de SAOS, utilizou-se as normas da AASM²³ tendo sido considerado um índice de apneia/hipopneia (IAH) > 5 eventos/hora associado a sinais e/ou sintomas.

Análise estatística

Os resultados das variáveis de resposta foram expressos como média e desvio padrão. Inicialmente as médias das variáveis de resposta foram checadas quanto à distribuição normal usando o teste de Shapiro-Wilk. Para comparar o grupo controle com o grupo teste, inicialmente a homogeneidade de variâncias entre grupos foi avaliada pelo teste *F*. Em seguida, o teste *t*-Student para amostras independentes ou o teste não paramétrico de Mann-Whitney foram devidamente utilizados para comparações 2 a 2 entre as variáveis estudadas. Correlações estatísticas baseadas no coeficiente de Pearson (dados paramétricos) ou coeficiente de Spearman (dados não paramétricos) foram calculadas para verificar a existência e intensidade de associação entre as variáveis de resposta.²⁴ P-valores abaixo de 0,05 foram adotados para rejeitar a hipótese de nulidade.

Com intuito de verificar associações entre os grupos estudados, a Análise de Componentes Principais (ACP) e a Análise Hierárquica de Agrupamentos (AHA) foram aplicadas aos dados previamente auto-escalonados, de acordo com os métodos preconizados por Correia e Ferreira²⁵ e Souza e Poppi.²⁶ A ACP visa reduzir a dimensionalidade do conjunto de dados original, preservando a maior quantidade de informação (variância) possível. Nesse estudo, a ACP foi usada para separar os grupos teste e controle de acordo com os resultados médios para cada variável de resposta. A análise se baseou em correlações lineares e as variâncias foram computadas como soma dos quadrados/(n-1). Autovalores acima de 1,0 foram usados para explicar a projeção dos indivíduos no fator-plano (CP1 x CP2). Já a AHA foi utilizada para enfatizar a formação de grupos com características semelhantes, de acordo com variáveis de resposta pré-selecionadas. Os resultados são dispostos em um espaço bidimensional (dendrograma) e amostras (grupos controle e grupo teste) são dispostas de maneira muito mais simples para interpretação de todos os resultados experimentais. A AHA foi aplicada usando o

método de aglomeramento de Ward e distâncias Euclidianas foram empregadas como métrica para a geração de um dendrograma para os pacientes e outro para as variáveis de resposta.

Todas as análises foram realizadas utilizando o pacote estatístico Statistica v.7 (Statsoft, Tulsa, Estados Unidos) e Action v.8 (Statcamp, Campinas, Brazil).

RESULTADOS

O coeficiente de correlação intraexaminador mostrou valores maiores que 0,91 para todas as variáveis analisadas, o que confirma a calibração do operador.

A análise das grandezas cefalométricas nos pacientes portadores de [PKND](#) revelou grande comprometimento craniofacial, com um padrão de retrusão maxilar e mandibular, tendência a crescimento vertical e rotação horária da mandíbula, associado a um deslocamento inferior do osso hióide. Tais achados apresentaram diferença estatisticamente significativa em relação ao grupo controle (Tabela 1).

[Avaliando as dimensões do palato mole através da cefalometria, foi observado um aumento em comprimento e largura no palato mole \(ENP-P e LPMo\) de indivíduos com PKND em relação ao grupo controle.](#)

No que se refere a análise tomográfica das áreas transversais, observou-se uma redução estatisticamente significativa no volume total, assim como nas cinco áreas avaliadas: ENP-coronal, ENP-posterior, ENP-axial, PM e EP do grupo teste em relação ao controle (Tabela 1). Através da análise de componentes principais e da análise hierárquica de agrupamentos foi possível evidenciar a formação de dois grupos (Picnodisostose e Controle) baseados nas características cefalométricas e tomográficas (Figura 5 e Figura 6).

[Os valores de SNA e SNB demonstraram uma correlação positiva significativa](#) com os valores encontrados para o volume total da via aérea superior,

as cinco áreas transversais avaliadas, além das medidas da dimensão da faringe óssea e do espaço aéreo posterior superior (Tabela 2). As medidas angulares que avaliam o padrão de crescimento vertical e a rotação da mandíbula (SN.PM e FMA) expressaram uma correlação negativa, estatisticamente significativa, em relação ao volume total, às cinco secções transversais avaliadas no estudo, assim como com os valores da dimensão da faringe óssea e do espaço aéreo posterior superior. No que se refere à avaliação da posição do osso hióide, houve uma correlação negativa significativa entre os valores lineares de H-PM e as cinco secções transversais avaliadas, e entre os valores de espaço aéreo posterior com as medidas lineares de H-C3 e H-Rgn (Tabela 2).

Foi observado que 55,6% dos pacientes do grupo PKND apresentaram um índice de apnéia e hipopnéia por hora de sono ≥ 5 IAH/h, e portanto, foram diagnosticados como portadores de SAOS.

Diante da avaliação dos dados antropométricos dos indivíduos com PKND pertencentes ao estudo, identificou-se que 77,7% eram do gênero feminino, a faixa etária foi de 3 a 33 anos e o IMC variou de 17,9 a 20,48 (Tabela 3).

DISCUSSÃO

O envolvimento de alterações craniofaciais na etiopatogenia da SAOS tem sido estudado ao longo dos anos, uma vez que, várias destas modificações em estruturas anatômicas, seja de caráter dimensional, posicional e/ou rotacional, podem somar-se no sentido de contribuir para o aparecimento de colapsos faríngeos durante o sono.²⁷ Para tanto, diversos autores utilizaram-se da cefalometria radiográfica em suas investigações científicas.^{27,28}

No presente estudo, a análise cefalométrica nos pacientes com PKND revelou: retrusão maxilar e mandibular, tendência de crescimento vertical

associada à rotação horária da mandíbula e uma posição inferior do osso hióide, características essas que justificam o severo comprometimento crânio facial associado à SAOS. Apesar da dificuldade de comparação com a literatura em virtude da divergência dos parâmetros cefalométricos estudados, bem como por não ter sido encontrado trabalhos que tenham avaliados tais aspectos em pacientes com [PKND](#), as características citadas têm sido relacionadas na literatura com o colapso das vias aéreas,²⁷⁻³² que corrobora com o resultado do presente estudo, onde os [indivíduos](#) com [PKND](#) apresentaram redução nos parâmetros utilizados na análise da via aérea em relação ao grupo controle. Outra medida anatômica obtida foi a dimensão do palato mole, sendo esta dimensionalmente maior [no grupo](#) com [PKND](#), o que também está relacionada com o [diagnóstico de SAOS](#), como mostrado por [Rintala et al. \(1991\)](#).⁷

A telerradiografia cefalométrica tem sido tradicionalmente usada como uma ferramenta diagnóstica na determinação da morfologia craniofacial. No entanto, devido a sua natureza bidimensional e à inabilidade de promover uma análise volumétrica, esse método convencional tem valor limitado na avaliação tridimensional da via aérea.¹⁷ Para essa análise tridimensional, a TCFC tem sido utilizada com sucesso^{17, 20, 22, 23} trazendo informações relevantes sobre a relação entre características morfológicas da faringe e fatores como crescimento craniofacial e condições patológicas dentomaxilofaciais. A TCFC é capaz de fornecer medições precisas de volume e áreas de secção transversal da faringe, tendo sido descrita como um método padrão para análise da via aérea.^{18,34} Os trabalhos publicados utilizando TCFC para [tal finalidade](#), têm descrito uma diminuição da amplitude do espaço aéreo nos indivíduos com [apnéia](#).^{30,34,35} No presente estudo, foi observado uma redução do volume total da via aérea, bem

como das cinco secções transversais avaliadas, [quando comparado o grupo PKND](#) em relação ao grupo controle.

Para determinar a existência e a intensidade de associação das variáveis de resposta foi ainda calculada a correlação entre o comprometimento craniofacial típico da [PKND](#) com a caracterização da via aérea. Os pacientes com [PKND](#) apresentaram valores de SNA e SNB reduzidos em relação ao grupo controle, o que está de acordo com o relatado por HUNT et al.³⁶; MUTO et al.³⁷; FONTELES et al.¹³. Ao correlacioná-los com as medidas cefalométricas lineares do espaço aéreo faríngeo superior (Ba-ENP e EAPS), com o volume total da via aérea superior e as cinco áreas das secções transversais avaliadas no estudo, percebemos a existência de uma correlação positiva, ou seja, a posição da maxila e mandíbula está relacionada com o estreitamento da via aérea. Tal resultado corrobora os achados de Grauer et al.,²⁰ Kim et al.,³³ Hong et al.²² e Claudino et al.³⁸ que relataram haver influência [do](#) posicionamento ântero-posterior da maxila e da mandíbula [sobre o](#) volume da faringe.

Quanto ao padrão vertical, foi observado um aumento nos ângulos que relacionam o plano mandibular à base craniana e ao plano de Frankfurt (SN.PM e FMA), valores esses correlacionados negativamente com o espaço aéreo faríngeo superior, com o volume total da via aérea e com as cinco áreas seccionais. Esses dados descrevem uma tendência à um crescimento vertical, com inclinação e rotação horária do plano mandibular e uma deficiência na altura facial posterior comprometendo o espaço aéreo da faringe, o que está de acordo com o sugerido por Fonteles et al.,¹³ Lowe,³¹ Chaves Jr,²⁸ Anderson,²⁹ Bacon,²⁷; Tsuchya.⁹

A posição do osso hióide parece ter um papel importante na anatomia do espaço aéreo faríngeo de indivíduos com apnéia.³⁹ No presente estudo, o grupo [PKND](#) apresentou valores aumentados em relação ao grupo controle para as

medidas lineares da posição vertical do hióide (H-PM e H-RGN), tendo ainda sido observada uma correlação negativa entre os valores de H-PM com o volume total da via aérea superior, além das cinco áreas de secção transversal neste estudo avaliadas. As medidas lineares de H-C3 e H-Rgn também apresentaram uma correlação negativa com os valores de EAP, concordando com os achados de Rintala et al.,⁷ Prachartam,⁸ Tangugsorn et al.,¹⁴ Tsai et al.⁴⁹

Indivíduos com PKND apresentaram maior comprimento e largura do palato mole, característica essa também relatada nos portadores de SAOS.⁴¹⁻⁴³ No entanto, não foi observada correlação entre a dimensão do palato mole e os valores representativos da via aérea.

O resultado dos dados antropométricos dos indivíduos com PKND avaliados, revelou que 77,7% era gênero feminino, a faixa etária foi de 3 a 33 anos e o IMC variou de 17,9 a 20,48. No estudo do perfil epidemiológico de indivíduos que apresentaram diagnóstico de SAOS realizado por Mendes et al.⁴⁴ foi descrito um predomínio do gênero masculino e obesos moderados ou graves (IMC >30, podendo atingir valores maiores que 35). Confrontando esses dados, observa-se uma importante influência dos fatores morfológicos observados na VAS dos indivíduos com PKND na determinação de uma maior ocorrência da SAOS, uma vez que, apesar dos reduzidos valores de IMC e do maior número de indivíduos do gênero feminino no grupo avaliado, observou-se um elevado número de casos com diagnóstico de SAOS.

O conjunto dos achados cefalométricos e tomográficos descritos nos indivíduos com PKND sugeriram uma predisposição ao desenvolvimento da SAOS. E essa tendência foi reafirmada pelos resultados dos exames polissonográficos, os quais confirmaram o diagnóstico de SAOS em 55,6% dos

[pacientes portadores de PKND.](#) É essencial pontuar que a SAOS possui etiologia multifactorial, e que esses achados [de natureza radiográfica](#) por si, não são capazes de prever a gravidade ou a presença da doença, sendo, portanto a realização de estudo polissonográfico de noite inteira, realizado em laboratório sob supervisão de um técnico habilitado, uma vez que este é o método diagnóstico padrão para a avaliação dos distúrbios respiratórios do sono.⁴

CONCLUSÃO

Considerando a amostra utilizada nessa pesquisa, aparentemente inédita, a análise dos dados cefalométricos e tomográficos evidenciou que os indivíduos com PKND apresentaram uma série de alterações esqueléticas craniofaciais que se correlacionam com um maior estreitamento da via aérea, tendo sido esses fatores relacionados ao diagnóstico de SAOS.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Johal A, Conaghan C. Maxillary morphology in obstructive sleep apnea: a cephalometric and model study. *The Angle orthodontist*. 2004;74(5):648-56.
2. Cuccia AM, Campisi G, Cannavale R, Colella G. Obesity and craniofacial variables in subjects with obstructive sleep apnea syndrome: comparisons of cephalometric values. *Head & face medicine*. 2007;3:41.
3. Ogawa T, Enciso R, Shintaku WH, Clark GT. Evaluation of cross-section airway configuration of obstructive sleep apnea. *Oral surgery, oral medicine, oral pathology, oral radiology, and endodontics*. 2007;103(1):102-8.
4. Kushida CA, Littner MR, Morgenthaler T, Alessi CA, Bailey D, Coleman J, Jr., et al. Practice parameters for the indications for polysomnography and related procedures: an update for 2005. *Sleep*. 2005;28(4):499-521.
5. Palombini PO. Fisiologia dos distúrbios respiratórios. *J Bras Pneumol*. 2010;36(supl.2):S1-S61.
6. Dempsey JA, Veasey SC, Morgan BJ, O'Donnell CP. Pathophysiology of sleep apnea. *Physiological reviews*. 2010;90(1):47-112.
7. Rintala A, Nordstrom R, Partinen M, Ranta R, Sjoblad A. Cephalometric analysis of the obstructive sleep apnea syndrome. *Proceedings of the Finnish Dental Society Suomen Hammaslaakariseuran toimituksia*. 1991;87(1):177-82.

8. Prachartam N, Hans MG, Strohl KP, Redline S. Upright and supine cephalometric evaluation of obstructive sleep apnea syndrome and snoring subjects. *The Angle orthodontist*. 1994;64(1):63-73.
9. Tsuchiya M, Lowe AA, Pae EK, Fleetham JA. Obstructive sleep apnea subtypes by cluster analysis. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics*. 1992;101(6):533-42.
10. Gelb BD, Shi GP, Chapman HA, Desnick RJ. Pycnodysostosis, a lysosomal disease caused by cathepsin K deficiency. *Science (New York, NY)*. 1996;273(5279):1236-8.
11. Balaji MS, Sundaram RK, Karthik P, Asokan K. Pycnodysostosis: A bone dysplasia with unusual oral manifestation. *Indian journal of dentistry*. 2014;5(4):218-21.
12. Maroteaux P, Lamy M. THE MALADY OF TOULOUSE-LAUTREC. *Jama*. 1965;191:715-7.
13. Fonteles CS, Chaves CM, Jr., Da Silveira A, Soares EC, Couto JL, de Azevedo Mde F. Cephalometric characteristics and dentofacial abnormalities of pycnodysostosis: report of four cases from Brazil. *Oral surgery, oral medicine, oral pathology, oral radiology, and endodontics*. 2007;104(4):e83-90.
14. Tangugsorn V, Skatvedt O, Krogstad O, Lyberg T. Obstructive sleep apnoea: a cephalometric study. Part II. Uvulo-glossopharyngeal morphology. *European journal of orthodontics*. 1995;17(1):57-67.
15. Warren DW, Spalding PM. *Dentofacial morphology and breathing: a century of controversy*. 1st edition ed. Chicago: Quintessence; 1991 1991.

16. Aboudara C, Nielsen I, Huang JC, Maki K, Miller AJ, Hatcher D. Comparison of airway space with conventional lateral headfilms and 3-dimensional reconstruction from cone-beam computed tomography. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics*. 2009;135(4):468-79.
17. Aboudara CA, Hatcher D, Nielsen IL, Miller A. A three-dimensional evaluation of the upper airway in adolescents. *Orthodontics & craniofacial research*. 2003;6 Suppl 1:173-5.
18. Guijarro-Martinez R, Swennen GR. Cone-beam computerized tomography imaging and analysis of the upper airway: a systematic review of the literature. *International journal of oral and maxillofacial surgery*. 2011;40(11):1227-37.
19. Dal-Fabbro C, Chaves Júnior CM, Tufik S. Tratamento com aparelhos intra-orais (AIO). In: Dal-Fabbro, C.; Chaves Júnior, C.M.; Tufik, S. *A Odontologia na medicina do sono*. . Maringá: Dental Press; 2010.
20. Grauer D, Cevidanes LS, Styner MA, Ackerman JL, Proffit WR. Pharyngeal airway volume and shape from cone-beam computed tomography: relationship to facial morphology. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics*. 2009;136(6):805-14.
21. Yushkevich PA, Piven J, Hazlett HC, Smith RG, Ho S, Gee JC, et al. User-guided 3D active contour segmentation of anatomical structures: significantly improved efficiency and reliability. *NeuroImage*. 2006;31(3):1116-28.
22. Hong JS, Park YH, Kim YJ, Hong SM, Oh KM. Three-dimensional changes in pharyngeal airway in skeletal class III patients undergoing orthognathic surgery.

Journal of oral and maxillofacial surgery : official journal of the American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons. 2011;69(11):e401-8.

23. Almeida FR. Aparelho intrabucal para apnéia do sono: eficácia e avaliação da articulação têmporo-mandibular. São Paulo: UNIFESP; 2000.

24. Granato D, Calado VMA, Jarvis B. Observations on the use of statistical methods in food science and technology. . Food Research International. 2014;55:137-49.

25. Correia PRM, Ferreira MMC. Reconhecimento de padrões por métodos não supervisionados: explorando procedimentos quimiométricos para tratamento de dados analíticos. Química Nova. 2007;30(2):481-7.

26. Souza AM, Poppi RJ. Experimento didático de quimiometria para análise exploratória de óleos vegetais comestíveis por espectroscopia no infravermelho médio e análise de componentes principais: um tutorial, parte I. . Química Nova. 2012;35(1):223-9.

27. Bacon WH, Turlot JC, Krieger J, Stierle JL. Cephalometric evaluation of pharyngeal obstructive factors in patients with sleep apneas syndrome. The Angle orthodontist. 1990;60(2):115-22.

28. Chaves Júnior CM. Estudo cefalométrico radiográfico das características crânio- faciais em pacientes com síndrome da apnéia obstrutiva do sono.: Universidade Metodista de São Paulo, São Bernardo do Campo; 1997.

29. Andersson L, Brattstrom V. Cephalometric analysis of permanently snoring patients with and without obstructive sleep apnea syndrome. International journal of oral and maxillofacial surgery. 1991;20(3):159-62.

30. Lowe AA, Fleetham JA, Adachi S, Ryan CF. Cephalometric and computed tomographic predictors of obstructive sleep apnea severity. American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American

Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics. 1995;107(6):589-95.

31. Lowe AA, Santamaria JD, Fleetham JA, Price C. Facial morphology and obstructive sleep apnea. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics.* 1986;90(6):484-91.

32. Schwab RJ, Geftter WB, Hoffman EA, Gupta KB, Pack AI. Dynamic upper airway imaging during awake respiration in normal subjects and patients with sleep disordered breathing. *The American review of respiratory disease.* 1993;148(5):1385-400.

33. Kim YJ, Hong JS, Hwang YI, Park YH. Three-dimensional analysis of pharyngeal airway in preadolescent children with different anteroposterior skeletal patterns. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics.* 2010;137(3):306.e1-11; discussion -7.

34. Lenza MG, Lenza MM, Dalstra M, Melsen B, Cattaneo PM. An analysis of different approaches to the assessment of upper airway morphology: a CBCT study. *Orthodontics & craniofacial research.* 2010;13(2):96-105.

35. Yucel A, Unlu M, Haktanir A, Acar M, Fidan F. Evaluation of the upper airway cross-sectional area changes in different degrees of severity of obstructive sleep apnea syndrome: cephalometric and dynamic CT study. *AJNR American journal of neuroradiology.* 2005;26(10):2624-9.

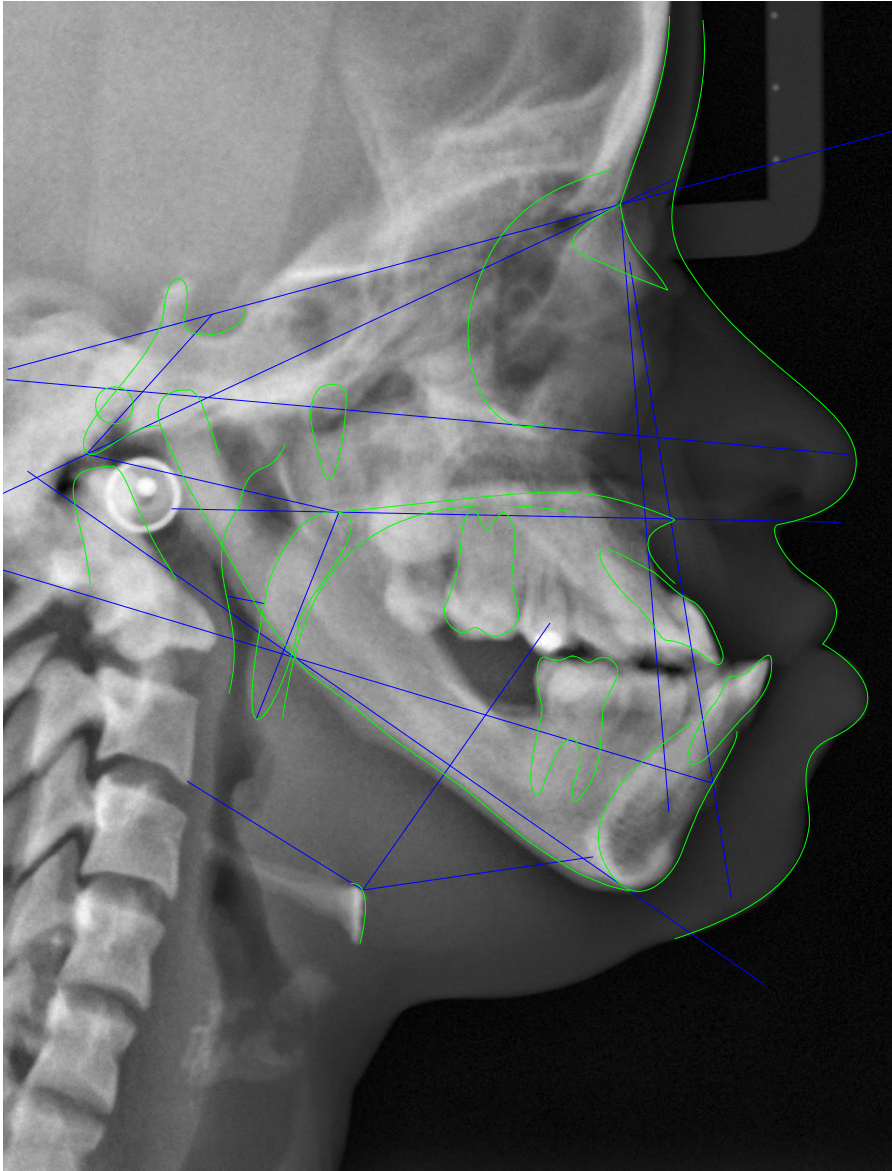
36. Hunt NP, Cunningham SJ, Adnan N, Harris M. The dental, craniofacial, and biochemical features of pyknodysostosis: a report of three new cases. *Journal of oral and maxillofacial surgery : official journal of the American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons.* 1998;56(4):497-504.

37. Muto T, Yamazaki A, Takeda S, Tsuji Y, Shibata T. Pharyngeal narrowing as a common feature in pycnodysostosis--a cephalometric study. *International journal of oral and maxillofacial surgery*. 2005;34(6):680-5.
38. Claudino LV, Mattos CT, Ruellas AC, Sant' Anna EF. Pharyngeal airway characterization in adolescents related to facial skeletal pattern: a preliminary study. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics*. 2013;143(6):799-809.
39. Djupesland G, Lyberg T, Krogstad O. Cephalometric analysis and surgical treatment of patients with obstructive sleep apnea syndrome. A preliminary report. *Acta oto-laryngologica*. 1987;103(5-6):551-7.
40. Tsai HH, Ho CY, Lee PL, Tan CT. Cephalometric analysis of nonobese snorers either with or without obstructive sleep apnea syndrome. *The Angle orthodontist*. 2007;77(6):1054-61.
41. Ceylan I, Oktay H. A study on the pharyngeal size in different skeletal patterns. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics*. 1995;108(1):69-75.
42. Brauer JS, Holt TV. TONGUE THRUST CLASSIFICATION. *The Angle orthodontist*. 1965;35:106-12.
43. de Freitas MR, Alcazar NM, Janson G, de Freitas KM, Henriques JF. Upper and lower pharyngeal airways in subjects with Class I and Class II malocclusions and different growth patterns. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics : official publication of the American Association of Orthodontists, its constituent societies, and the American Board of Orthodontics*. 2006;130(6):742-5.

44. Mendes FA, Marone SA, Duarte BB, Arenas AC. Epidemiologic profile of patients with snoring and obstructive sleep apnea in a university hospital. *International archives of otorhinolaryngology*. 2014;18(2):142-5.

LISTA DE FIGURAS

Fig.1



|

Fig.2

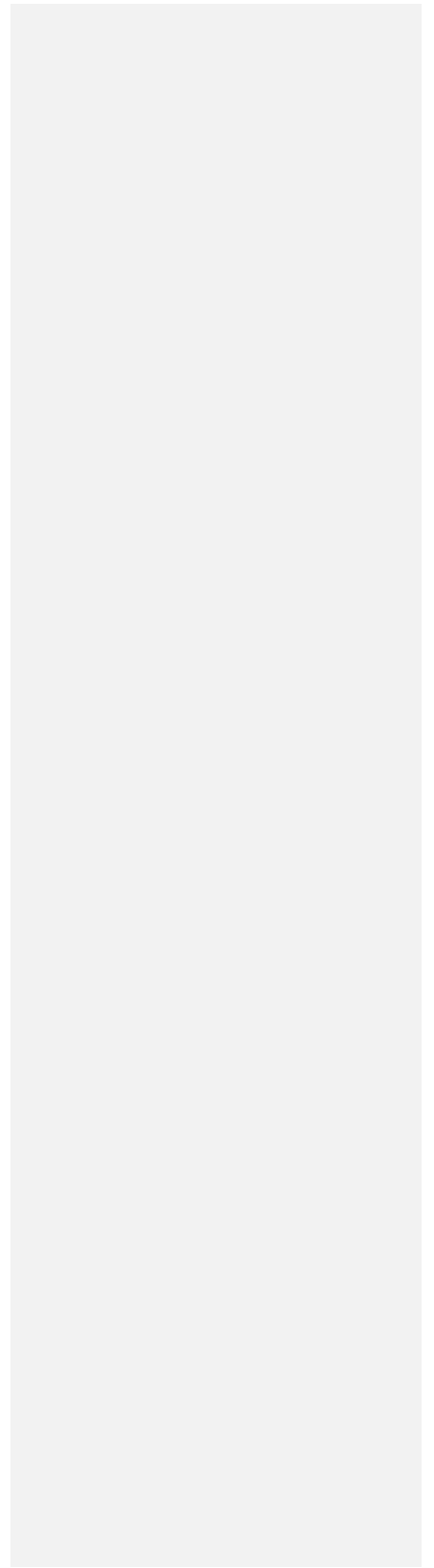
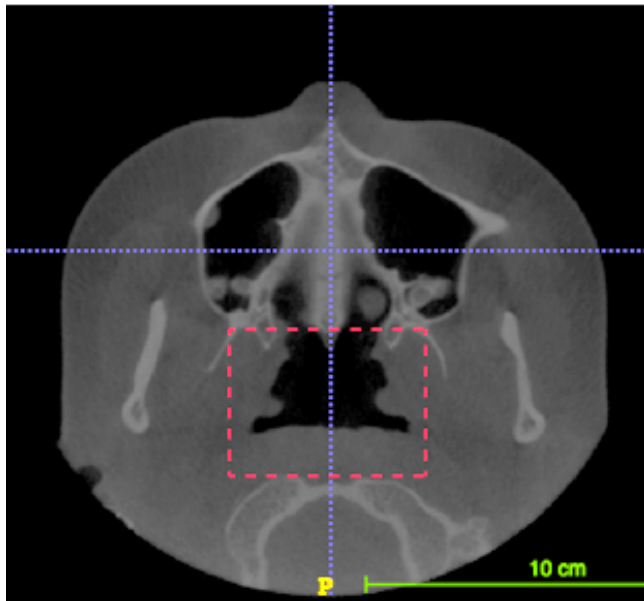
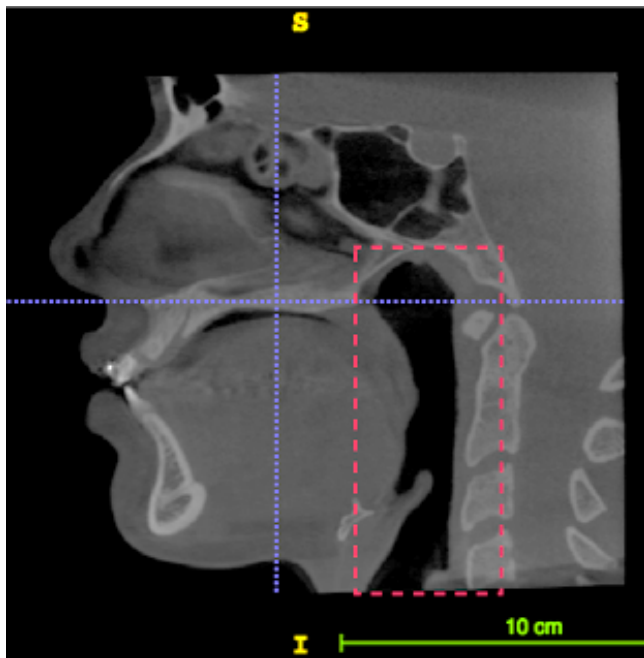


Fig.3

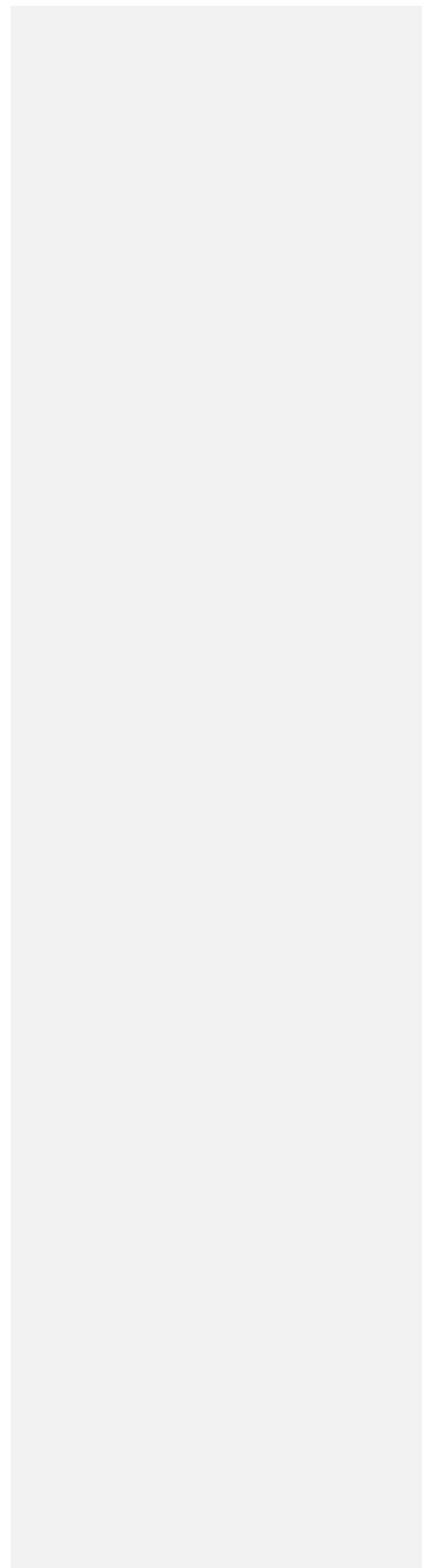
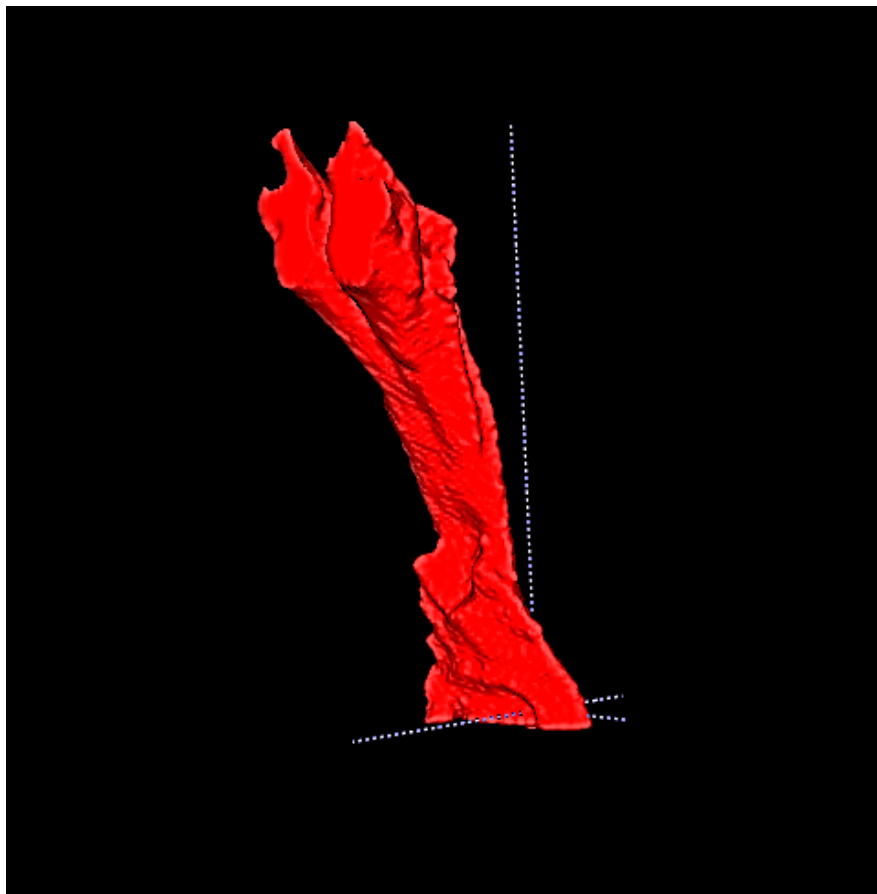


Fig. 4

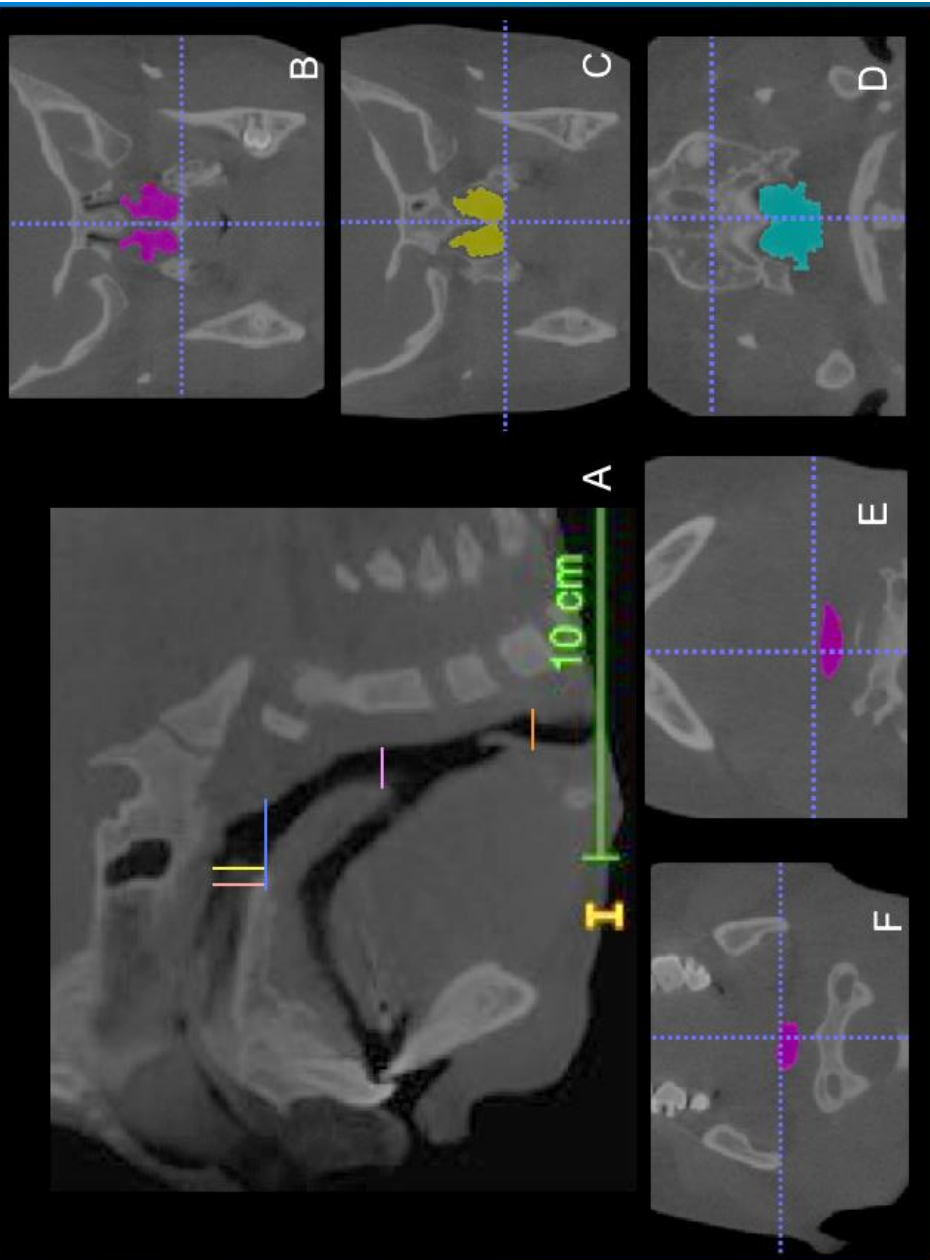


Fig. 5

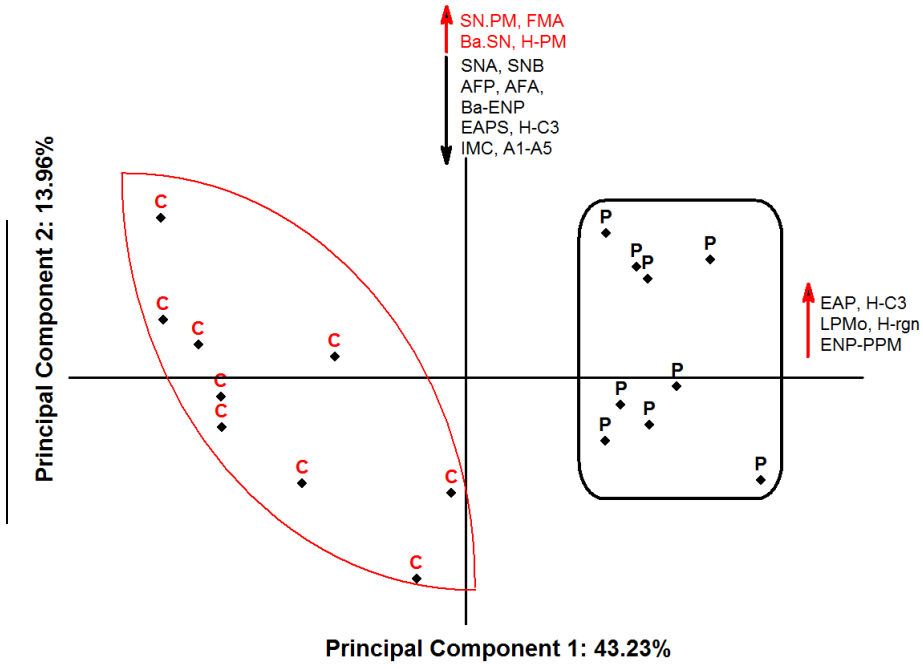
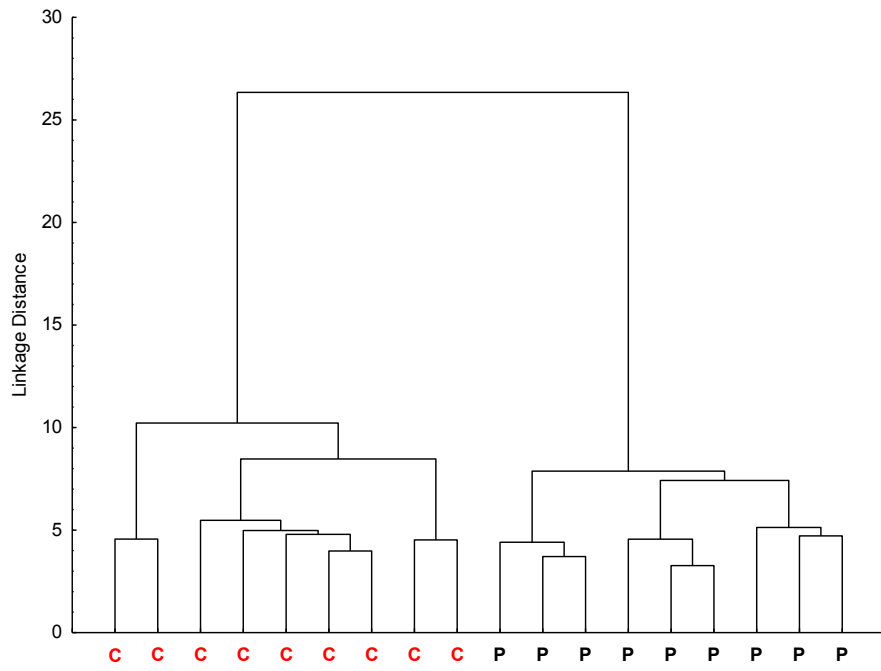


FIG. 6

Fig.6



LISTA DE LEGENDAS

Fig 1. Telerradiografia lateral de face com traçado cefalométrico sobreposto.

Fig 2. Limites para delimitação da área da segmentação. Anterior: plano vertical que passa através da espinha nasal posterior (ENP), perpendicular ao plano sagital; posterior: parede posterior da faringe com a ferramenta posicionada sobre as vértebras cervicais; lateral: paredes laterais da faringe, incluindo todas as projeções laterais da faríngeas; inferior: plano tangente à projeção caudal medial da 3ª vértebra cervical, perpendicular ao plano sagital; superior: ponto mais alto da nasofaringe.

Fig 3. Imagem volumétrica das vias aéreas superiores construídas na janela 3D do software [Insight ITK-SNAP 2.4.0[®]](#)

Fig 4. Referências na imagem sagital para marcação das áreas transversais (A): ponto ENP (reta vertical rosa); parede anterior da faringe a nível de ENP (reta vertical amarela); ponto ENP no plano axial (reta horizontal azul); ponto mais inferior do palato mole (reta horizontal lilás); base da epiglote (reta horizontal laranja). Área ENP-coronal (B). Área ENP-posterior (C). Área ENP axial (D). Área PM (E). Área EP (F).

Fig 5. Projeção dos pacientes agrupados em Teste (P) ou Controle (C) no fator-plano (PC1 x PC2) baseada nas características de IMC e análises cefalométrica e tomográficas usando a análise de componentes principais.

Fig 6. Análise hierárquica de agrupamentos evidenciando a classificação dos indivíduos analisados nos grupos Teste (P) ou Controle (C) baseada nas características de IMC e análises cefalométrica e tomográficas.

LISTA DE TABELAS

Tabela 1: Comparação estatística entre os grupos Controle e Teste para valores cefalométricos e tomográficos

Variável de resposta	Grupo PKND	Grupo Controle	t-valor	p-valor ^a
SNA(°)	72.93±3,89	82.83±3,44	-5.718	<0.001
SNB(°)	71.49±6,05	79.58±4,6	-3.195	0.006
ANB	1.33±5,87	3.25±2,73	-0.886	0.389
SN.PM(°)	53.06±6,27	34.08±6,81	6.151	<0.001
FMA(°)	34.18±6,74	20.87±6,71	4.197	0.001
AFP(mm)	48.69±7,07	69.58±13,08	-4.216	0.001
AFA(mm)	92.95±5,79	107.60±13,36	-2.678	0.017
AFP/AFA	45.80±17,85	29.47±34,35	1.265	0.229
Ba.SN(mm)	147.02±2,48	129.08±5,98	8.316	<0.001
Ba-ENP(mm)	35.18±2,82	42.58±3,83	-4.668	<0.001
EAPS(mm)	5.95±1,72	10.69±2,82	-4.307	0.001
EAP(mm)	11.16±3,18	11.48±3,48	-0.200	0.844
ENP-P(mm)	33.53±2,14	31.40±3,42	1.581	0.137
LPMo(mm)	10.41±2,60	8.86±1,93	1.436	0.172
H-PM(mm)	24.49±5,00	12.54±5,99	4.596	<0.001
H-C3(mm)	27.20±3,45	32.01±7,03	-1.842	0.084
H-Rgn(mm)	34.53±6,38	32.72±6,99	0.725	0.479
IMC	18.82±1,31	21.32±1,69	-3.516	0.003
V. TOTAL	10469,7	14347.0	1.042	<0.001
ENP	113.2	225.4	-3.625	0.002
Farige Ant	121.1	281.0	-4.287	0.001
Plano Palatino	165.8	470.1	-5.060	<0.001
Palato Mole	80.4	338.6	-4.056	0.001
Base Epiglote	122.3	234.0	-2.690	0.016

Nota: ^aValores de probabilidade obtidos a partir do teste t-Student para amostras independentes ou teste de Mann-Whitney

Tabela 2- Correlações estatísticas baseadas no coeficiente de Pearson (dados paramétricos) ou coeficiente de Spearman (dados não paramétricos) foram calculadas para verificar a existência e intensidade de associação entre as variáveis de resposta

Respostas	SNA(°)	SNB(°)	SN.PM(°)	FMA(°)	H-PM(mm)	H-C3(mm)	H-Rgn(mm)
SNA(°)	1.0000						
	p= ---						
SNB(°)	.7452	1.0000					
	p=.000	p= ---					
ANB	.2848	-.4263					
	p=.252	p=.078					
SN.PM(°)	-.6842	-.7896	1.0000				
	p=.002	p=.000	p= ---				
FMA(°)	-.5081	-.6936	.9335	1.0000			
	p=.031	p=.001	p=.000	p= ---			
Ba-ENP(mm)	.4958	.4548	-.7187	-.6410			
	p=.036	p=.058	p=.001	p=.004			
EAPS(mm)	.4757	.3917	-.6548	-.5972			
	p=.046	p=.108	p=.003	p=.009			
EAP(mm)	-.1623	-.1061	-.1049	-.2201			
	p=.520	p=.675	p=.679	p=.380			
ENP-PPM(mm)	-.3858	-.2979	.2378	.2658			
	p=.114	p=.230	p=.342	p=.286			
LPMo(mm)	-.3691	-.2357	.1937	.0552			
	p=.132	p=.346	p=.441	p=.828			
H-PM(mm)	-.5118	-.3978	.7260	.7035	1.0000		
	p=.030	p=.102	p=.001	p=.001	p= ---		
H-C3(mm)	.2119	.4012	-.5356	-.4784	-.4324	1.0000	
	p=.399	p=.099	p=.022	p=.045	p=.073	p= ---	
H-Rgn(mm)	-.2069	.1597	-.1043	-.1429	.3601	.5084	1.0000
	p=.410	p=.527	p=.680	p=.572	p=.142	p=.031	p= ---
V. TOTAL	-.2790	-.0048	.0190	-.1448	.1830	-.2257	.1567
	p=.262	p=.985	p=.940	p=.566	p=.467	p=.368	p=.535
A1	.6373	.3736	-.5123	-.3704	-.4414	.2953	-.1003
	p=.004	p=.127	p=.030	p=.130	p=.067	p=.234	p=.692
A2	.6275	.3806	-.6279	-.4905	-.5334	.3718	-.0805
	p=.005	p=.119	p=.005	p=.039	p=.023	p=.129	p=.751
A3	.6375	.5028	-.6815	-.5434	-.6699	.6636	-.0362
	p=.004	p=.033	p=.002	p=.020	p=.002	p=.003	p=.887
A4	.6358	.4774	-.6111	-.4913	-.3907	.3174	-.0854

A5	p=.005	p=.045	p=.007	p=.038	p=.109	p=.199	p=.736
	.5556	.5426	-.5023	-.3242	-.1958	.5786	.2049
	p=.017	p=.020	p=.034	p=.189	p=.436	p=.012	p=.415

Tabela 3- Dados Antropométricos (IMC, idade e gênero) dos Indivíduos com PKND

PKND	IMC	IDADE(anos)	GÊNERO
1	17,9	17	F
2	18,2	9	M
3	20,31	3	M
4	17,72	33	F
5	18,16	13	F
6	16,89	19	F
7	19,6	27	F
8	20,1	19	F
9	20,48	24	F

CONCLUSÕES GERAIS

A partir dos resultados obtidos, pôde-se concluir que:

1. Os indivíduos com PKND apresentam a VAS comprometida em decorrência da tendência a redução nos valores de SNA e SNB, além do padrão de rotação horária do plano mandibular, alterações estas, comumente relacionadas à redução na VAS.
2. Os indivíduos com PKND apresentam alterações na via aérea superior, com redução no volume total e menor secção transversal a nível de ENP, parede anterior da faringe, plano palatino, limite inferior do palate mole e base da epiglote em relação ao grupo controle pareado em idade e gênero.
3. Diante da realização do exame polissonográfico, observou-se o diagnostic de SAOS em 55,6% dos indivíduos com PKND
4. Foi evidenciado uma diversas alterações esqueléticas craniofaciais correlacionadas com um estreitamento das vias aéreas, estando esses fatores associados ao diagnóstico de SAOS.
5. O diagnostico de SAOS foi observado em 55,6% dos casos de PKND avaliados apesar dos dados antropométricos de tais indivíduos não se correlacionarem com o perfil epidemiológico de risco para SAOS.

Luciano Pimenta 30/5/15 01:42

Deleted: -

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

ABOUDARA, C. et al. Comparison of airway space with conventional lateral headfilms and 3-dimensional reconstruction from cone-beam computed tomography. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 135, n. 4, p. 468-79, Apr 2009. ISSN 0889-5406.

ABOUDARA, C. A. et al. A three-dimensional evaluation of the upper airway in adolescents. **Orthod Craniofac Res**, v. 6 Suppl 1, p. 173-5, 2003. ISSN 1601-6335 (Print)
1601-6335.

ALMEIDA, F. R. **Aparelho intrabucal para apnéia do sono: eficácia e avaliação da articulação têmporo-mandibular**. 2000. (Dissertação de Mestrado). UNIFESP, São Paulo.

_____. **Aparelhos intrabucais para o tratamento do ronco e síndrome da apnéia e hipopnéia obstrutivas do sono**. In: CAMPOS, C. A. H., COSTA, H. O. O. **Tratado de Otorrinolaringologia**. São Paulo: Roca, 2002.

ALMEIDA, F. R.; DAL-FABBRO, C.; CHAVES JUNIOR, C. M. **Síndrome da apnéia e hipopnéia obstutiva do sono (SAHOS): tratamento com aparelhos intra-orais**. In: TUFIK, S. **Medicina e biologia do sono**. . São Paulo: Manole, 2008.

Luciano Pimenta 30/5/15 03:40

Deleted: MAH, J.; HATCHER, D. Three-dimensional dimensional craniofacial imaging. *Am. J. Orth*

Luciano Pimenta 30/5/15 03:36

Deleted: MAH, J.; HATCHER, D. Three-dimensional craniofacial imaging. *Am. J. Orth*

ANDERSEN, M. L.; TUFIK, S. **Bases neurais e fisiologia do sono. In: Dal-Fabbro, C.; Chaves Júnior, C.; Tufik, S. A Odontologia na medicina do sono.** . Maringá: Dental Press, 2010.

ANDERSSON, L.; BRATTSTROM, V. Cephalometric analysis of permanently snoring patients with and without obstructive sleep apnea syndrome. **Int J Oral Maxillofac Surg**, v. 20, n. 3, p. 159-62, Jun 1991. ISSN 0901-5027 (Print) 0901-5027.

ARAI, Y.; AL., E. **Development of a compact computed tomographic apparatus for cephalometry: a color atlas and manual.** . New York: Spring, 2006.

BACON, W. H. et al. Cephalometric evaluation of pharyngeal obstructive factors in patients with sleep apneas syndrome. **Angle Orthod**, v. 60, n. 2, p. 115-22, Summer 1990. ISSN 0003-3219 (Print) 0003-3219.

BALAJI, M. S. et al. Pycnodysostosis: A bone dysplasia with unusual oral manifestation. **Indian J Dent**, v. 5, n. 4, p. 218-21, Oct 2014. ISSN 0975-962X (Print) 0975-962x.

BATTAGEL, J. M.; JOHAL, A.; KOTECHA, B. A cephalometric comparison of subjects with snoring and obstructive sleep apnoea. **Eur J Orthod**, v. 22, n. 4, p. 353-65, Aug 2000. ISSN 0141-5387 (Print)

0141-5387.

BATTAGEL, J. M. et al. Postural variation in oropharyngeal dimensions in subjects with sleep disordered breathing: a cephalometric study. **Eur J Orthod**, v. 24, n. 3, p. 263-76, Jun 2002. ISSN 0141-5387 (Print)
0141-5387.

BERTOLA, D. et al. Craniosynostosis in pycnodysostosis: broadening the spectrum of the cranial flat bone abnormalities. **Am J Med Genet A**, v. 152a, n. 10, p. 2599-603, Oct 2010. ISSN 1552-4825.

BITTENCOURT, L. R. A. **Diagnóstico e Tratamento da Síndrome da Apneia Obstrutiva do Sono (SAOS). Guia Prático.** São Paulo: Livraria Médica Paulista, 2008.

BONDEMARK, L. Does 2 years' nocturnal treatment with a mandibular advancement splint in adult patients with snoring and OSAS cause a change in the posture of the mandible? **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 116, n. 6, p. 621-8, Dec 1999. ISSN 0889-5406 (Print)
0889-5406.

BRAUER, J. S.; HOLT, T. V. TONGUE THRUST CLASSIFICATION. **Angle Orthod**, v. 35, p. 106-12, Apr 1965. ISSN 0003-3219 (Print)
0003-3219.

CAVALCANTI FILHO, P. O. **Síndrome da apnéia obstrutiva do sono na infância.** In: **Campos, C. A. H.; Costa, H. O. O. Tratado de Otorrinolaringologia.** . São Paulo: Roca, 2002.

CEYLAN, I.; OKTAY, H. A study on the pharyngeal size in different skeletal patterns. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 108, n. 1, p. 69-75, Jul 1995. ISSN 0889-5406 (Print) 0889-5406.

CHAVES JÚNIOR, C. M. **Estudo cefalométrico radiográfico das características crânio- faciais em pacientes com síndrome da apnéia obstrutiva do sono.** 1997. (Tese de Mestrado). Universidade Metodista de São Paulo, São Bernardo do Campo

CLAUDINO, L. V. et al. Pharyngeal airway characterization in adolescents related to facial skeletal pattern: a preliminary study. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 143, n. 6, p. 799-809, Jun 2013. ISSN 0889-5406.

CORREIA, P. R. M.; FERREIRA, M. M. C. Reconhecimento de padrões por métodos não supervisionados: explorando procedimentos quimiométricos para tratamento de dados analíticos. **Química Nova**, v. 30, n. 2, p. 481-487, 2007.

CUCCIA, A. M. et al. Obesity and craniofacial variables in subjects with obstructive sleep apnea syndrome: comparisons of cephalometric values. **Head Face Med**, v. 3, p. 41, 2007. ISSN 1746-160x.

DAL-FABBRO, C.; CHAVES JÚNIOR, C. M.; TUFIK, S. **Tratamento com aparelhos intra-orais (AIO). In: Dal-Fabbro, C.; Chaves Júnior, C.M.; Tufik, S. A Odontologia na medicina do sono.** . Maringá: Dental Press, 2010.

DAL FABBRO, C.; CHAVES, C. M. J.; TUFIK, S. A. **Odontologia na Medicina do Sono.** . Maringá-Paraná: Dental Press, 2010.

DE FREITAS, M. R. et al. Upper and lower pharyngeal airways in subjects with Class I and Class II malocclusions and different growth patterns. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 130, n. 6, p. 742-5, Dec 2006. ISSN 0889-5406.

DEMPSEY, J. A. et al. Pathophysiology of sleep apnea. **Physiol Rev**, v. 90, n. 1, p. 47-112, Jan 2010. ISSN 0031-9333.

DJUPESLAND, G.; LYBERG, T.; KROGSTAD, O. Cephalometric analysis and surgical treatment of patients with obstructive sleep apnea syndrome. A preliminary report. **Acta Otolaryngol**, v. 103, n. 5-6, p. 551-7, May-Jun 1987. ISSN 0001-6489 (Print) 0001-6489.

FONTELES, C. S. et al. Cephalometric characteristics and dentofacial abnormalities of pycnodysostosis: report of four cases from Brazil. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod**, v. 104, n. 4, p. e83-90, Oct 2007. ISSN 1079-2104.

FORCE, A. A. O. S. M. T. Sleep-related breathing disorders in adults: recommendations for syndrome definition and measurement techniques in clinical research. The Report of an American Academy of Sleep Medicine Task Force. **Sleep**, v. 22, n. 5, p. 667-89, Aug 1 1999. ISSN 0161-8105 (Print) 0161-8105.

GALE, D. J. et al. Do oral appliances enlarge the airway in patients with obstructive sleep apnoea? A prospective computerized tomographic study. **Eur J Orthod**, v. 22, n. 2, p. 159-68, Apr 2000. ISSN 0141-5387 (Print) 0141-5387.

GARIB, D. G.; AL., E. Tomografia computadorizada de feixe cônico (Cone beam): entendendo este novo método de diagnóstico por imagem com promissora aplicabilidade na Ortodontia. . **R. Dental Press Ortodon. Ortop. Facial**, v. 12, n. 2, p. 139-156, mar./abr. 2007.

GELB, B. D. et al. Pycnodysostosis, a lysosomal disease caused by cathepsin K deficiency. **Science**, v. 273, n. 5279, p. 1236-8, Aug 30 1996. ISSN 0036-8075 (Print) 0036-8075.

GRANATO, D.; CALADO, V. M. A.; JARVIS, B. Observations on the use of statistical methods in food science and technology. . **Food Research International**, v. 55, p. 137-149, 2014.

GRAUER, D. et al. Pharyngeal airway volume and shape from cone-beam computed tomography: relationship to facial morphology. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 136, n. 6, p. 805-14, Dec 2009. ISSN 0889-5406.

GUIJARRO-MARTINEZ, R.; SWENNEN, G. R. Cone-beam computerized tomography imaging and analysis of the upper airway: a systematic review of the literature. **Int J Oral Maxillofac Surg**, v. 40, n. 11, p. 1227-37, Nov 2011. ISSN 0901-5027.

HONG, J. S. et al. Three-dimensional changes in pharyngeal airway in skeletal class III patients undergoing orthognathic surgery. **J Oral Maxillofac Surg**, v. 69, n. 11, p. e401-8, Nov 2011. ISSN 0278-2391.

HOUNSFIELD, G. N. Computerized transverse axial scanning (tomography). 1. Description of system. **Br J Radiol**, v. 46, n. 552, p. 1016-22, Dec 1973. ISSN 0007-1285 (Print)
0007-1285.

HUNT, N. P. et al. The dental, craniofacial, and biochemical features of pyknodysostosis: a report of three new cases. **J Oral Maxillofac Surg**, v. 56, n. 4, p. 497-504, Apr 1998. ISSN 0278-2391 (Print)
0278-2391.

ITO, F. A. Conduas terapêuticas para tratamento da Síndrome da Apnéia e Hipopnéia Obstrutiva do Sono (SAHOS) e da Síndrome da Resistência das Vias

Aéreas Superiores (SRVAS) com enfoque no Aparelho Anti-Ronco (AAR-ITO). .
R. Dental Press Ortodon. Ortop. Facial, v. 10, n. 4, p. 143-156, jul./ago. 2005.

JOHAL, A.; CONAGHAN, C. Maxillary morphology in obstructive sleep apnea: a cephalometric and model study. **Angle Orthod**, v. 74, n. 5, p. 648-56, Oct 2004. ISSN 0003-3219 (Print) 0003-3219.

KAU, C. H. et al. Three-dimensional cone beam computerized tomography in orthodontics. **J Orthod**, v. 32, n. 4, p. 282-93, Dec 2005. ISSN 1465-3125 (Print) 1465-3125.

KIM, Y. J. et al. Three-dimensional analysis of pharyngeal airway in preadolescent children with different anteroposterior skeletal patterns. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 137, n. 3, p. 306.e1-11; discussion 306-7, Mar 2010. ISSN 0889-5406.

KUSHIDA, C. A. et al. Practice parameters for the indications for polysomnography and related procedures: an update for 2005. **Sleep**, v. 28, n. 4, p. 499-521, Apr 2005. ISSN 0161-8105 (Print) 0161-8105.

LAMICHANE, M. et al. Accuracy of reconstructed images from cone-beam computed tomography scans. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 136, n. 2, p. 156.e1-6; discussion 156-7, Aug 2009. ISSN 0889-5406.

LANDA, S. et al. Maxillofacial alterations in a family with pycnodysostosis. **Med Oral**, v. 5, n. 3, p. 169-176, May-Jul 2000. ISSN 1137-2834 (Print)
1137-2834.

LAZNER, F. et al. Osteopetrosis and osteoporosis: two sides of the same coin. **Hum Mol Genet**, v. 8, n. 10, p. 1839-46, 1999. ISSN 0964-6906 (Print)
0964-6906.

LENZA, M. G. et al. An analysis of different approaches to the assessment of upper airway morphology: a CBCT study. **Orthod Craniofac Res**, v. 13, n. 2, p. 96-105, May 2010. ISSN 1601-6335.

LOWE, A. A. et al. Cephalometric and computed tomographic predictors of obstructive sleep apnea severity. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 107, n. 6, p. 589-95, Jun 1995. ISSN 0889-5406 (Print)
0889-5406.

LOWE, A. A. et al. Facial morphology and obstructive sleep apnea. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 90, n. 6, p. 484-91, Dec 1986. ISSN 0889-5406 (Print)
0889-5406.

MAROTEAUX, P.; LAMY, M. THE MALADY OF TOULOUSE-LAUTREC. **Jama**, v. 191, p. 715-7, Mar 1 1965. ISSN 0098-7484 (Print)
0098-7484.

MENDES, F. A. et al. Epidemiologic profile of patients with snoring and obstructive sleep apnea in a university hospital. **Int Arch Otorhinolaryngol**, v. 18, n. 2, p. 142-5, Apr 2014. ISSN 1809-9777 (Print) 1809-4864.

MUTO, T. et al. Pharyngeal narrowing as a common feature in pycnodysostosis-- a cephalometric study. **Int J Oral Maxillofac Surg**, v. 34, n. 6, p. 680-5, Sep 2005. ISSN 0901-5027 (Print) 0901-5027.

OGAWA, T. et al. Evaluation of cross-section airway configuration of obstructive sleep apnea. **Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod**, v. 103, n. 1, p. 102-8, Jan 2007. ISSN 1079-2104.

PALOMBINI, P. O. Fisiologia dos distúrbios respiratórios. **J Bras Pneumol**, v. 36, n. supl.2, p. S1-S61, 2010.

PELTOMAKI, T. The effect of mode of breathing on craniofacial growth-- revisited. **Eur J Orthod**, v. 29, n. 5, p. 426-9, Oct 2007. ISSN 0141-5387 (Print) 0141-5387.

PIGNATARI, S. S. N.; AL., E. **Noções gerais sobre a síndrome da apnéia e da hipopnéia obstrutiva do sono em crianças e o papel da polissonografia. In: Campos, C. A. H.; Costa, H. O. O. Tratado de Otorrinolaringologia. . São Paulo: Roca, 2002.**

PRACHARKTAM, N. et al. Upright and supine cephalometric evaluation of obstructive sleep apnea syndrome and snoring subjects. **Angle Orthod**, v. 64, n. 1, p. 63-73, 1994. ISSN 0003-3219 (Print)
0003-3219.

QUINTERO, J. C. et al. Craniofacial imaging in orthodontics: historical perspective, current status, and future developments. **Angle Orthod**, v. 69, n. 6, p. 491-506, Dec 1999. ISSN 0003-3219 (Print)
0003-3219.

RINTALA, A. et al. Cephalometric analysis of the obstructive sleep apnea syndrome. **Proc Finn Dent Soc**, v. 87, n. 1, p. 177-82, 1991.

SCARFE, W. C.; FARMAN, A. G.; SUKOVIC, P. Clinical applications of cone-beam computed tomography in dental practice. **J Can Dent Assoc**, v. 72, n. 1, p. 75-80, Feb 2006. ISSN 0709-8936.

SCHWAB, R. J. et al. Dynamic upper airway imaging during awake respiration in normal subjects and patients with sleep disordered breathing. **Am Rev Respir Dis**, v. 148, n. 5, p. 1385-400, Nov 1993. ISSN 0003-0805 (Print)
0003-0805.

SILVA, R. S.; GARBUIO, S. A. **Polissonografia. In: Dal-Fabbro, C.; Chaves Júnior, C.; Tufik, S. A Odontologia na medicina do sono. .** Maringá: Dental Press.

SOLIMAN, A. T. et al. Pycnodysostosis: clinical, radiologic, and endocrine evaluation and linear growth after growth hormone therapy. **Metabolism**, v. 50, n. 8, p. 905-11, Aug 2001. ISSN 0026-0495 (Print) 0026-0495.

SOUZA, A. M.; POPPI, R. J. Experimento didático de quimiometria para análise exploratória de óleos vegetais comestíveis por espectroscopia no infravermelho médio e análise de componentes principais: um tutorial, parte I. . **Química Nova**, v. 35, n. 1, p. 223-229, 2012.

SUKOVIC, P. Cone beam computed tomography in craniofacial imaging. **Orthod Craniofac Res**, v. 6 Suppl 1, p. 31-6; discussion 179-82, 2003. ISSN 1601-6335 (Print) 1601-6335.

SWENNEN, G. R. J.; SCHUTYSER, F.; HAUSAMEN, J. E. **Three-dimensional cephalometry: a color atlas and manual**. New York: Spring, 2006.

TANGUGSORN, V. et al. Obstructive sleep apnoea: a cephalometric study. Part II. Uvulo-glossopharyngeal morphology. **Eur J Orthod**, v. 17, n. 1, p. 57-67, Feb 1995. ISSN 0141-5387 (Print) 0141-5387.

TSAI, H. H. et al. Cephalometric analysis of nonobese snorers either with or without obstructive sleep apnea syndrome. **Angle Orthod**, v. 77, n. 6, p. 1054-61, Nov 2007. ISSN 0003-3219 (Print)

0003-3219.

TSUCHIYA, M. et al. Obstructive sleep apnea subtypes by cluster analysis. **Am J Orthod Dentofacial Orthop**, v. 101, n. 6, p. 533-42, Jun 1992. ISSN 0889-5406 (Print)
0889-5406.

WARREN, D. W.; SPALDING, P. M. **Dentofacial morphology and breathing: a century of controversy**. 1st edition. Chicago: Quintessence, 1991.

YUCEL, A. et al. Evaluation of the upper airway cross-sectional area changes in different degrees of severity of obstructive sleep apnea syndrome: cephalometric and dynamic CT study. **AJNR Am J Neuroradiol**, v. 26, n. 10, p. 2624-9, Nov-Dec 2005. ISSN 0195-6108 (Print)
0195-6108.

YUSHKEVICH, P. A. et al. User-guided 3D active contour segmentation of anatomical structures: significantly improved efficiency and reliability. **Neuroimage**, v. 31, n. 3, p. 1116-28, Jul 1 2006. ISSN 1053-8119 (Print)
1053-8119.

Luciano Pimenta 30/5/15 03:15

Deleted: -

APÊNDICE

TERMO DE CONSENTIMENTO INFORMADO

“AVALIAÇÃO DE PARÂMETROS CEFALOMÉTRICOS, TOMOGRÁFICOS E POLISSONOGRÁFICOS EM INDIVÍDUOS COM PICNODISOSTOSE”

Você ou seu filho (a) está sendo convidado a participar de um projeto de pesquisa. Sua participação é importante, porém, não deve haver participação contra vontade própria. Leia com atenção as informações abaixo, sentindo-se livre para fazer qualquer pergunta que desejar, para que não haja dúvida alguma sobre os procedimentos a serem realizados.

Ao assinar este termo que consta de seu nome (ou responsável), você estará declarando que por meio de livre e espontânea vontade sua, estará participando como voluntário do projeto de pesquisa citado acima, de responsabilidade do Cirurgião-Dentista Jose Luciano Pimenta Couto da Faculdade de Odontologia, da Universidade Federal do Ceará. O abaixo-assinado estará ciente que:

- a) O objetivo da pesquisa é verificar se existe alguma diferença entre as vias aéreas de um paciente portador de picnodisostose, quando comparado com um paciente que não seja portador dessa síndrome.
- b) Durante a primeira consulta serão realizadas perguntas acerca da história médica e odontológica dos participantes. No segundo momento, será realizado o exame de imagem

Luciano Pimenta 26/5/15 10:13

Moved down [1]: ANEXO 1 - ANEXO

Luciano Pimenta 30/5/15 03:15

Deleted: - ANEXO

Luciano Pimenta 30/5/15 03:14

Deleted: 1 - ANEXO

Luciano Pimenta 30/5/15 03:14

Deleted: ANEXO

Luciano Pimenta 26/5/15 10:13

Deleted: 2

(tomografia computadorizada) e, em outro momento, o paciente será submetido ao exame que avalia a qualidade do seu sono.

- c) O paciente NÃO RECEBERÁ INJEÇÃO de anestésico local.
- d) Esses exames serão realizados para que se possa avaliar com perfeição se a qualidade do sono está comprometida e se a existência da síndrome causa alguma mudança nas estruturas da face que induz o comprometimento na qualidade do sono.
- e) Você tem a liberdade de desistir ou interromper a sua participação (do seu filho ou filha) neste estudo no momento que desejar, sem necessidade de qualquer explicação.
- f) A participação neste estudo lhe dá o direito, sem custos, tratamento dentário, profilaxia (limpeza dos dentes) e aplicação tópica de flúor para a prevenção, evitando novas cáries.
- g) Os resultados obtidos durante este estudo serão mantidos em sigilo. O Curso de Odontologia da UFC não identificará você (ou seu filho (a)) por ocasião da exposição e/ou publicação dos resultados desta pesquisa.
- h) O surgimento de resfriados ou viroses, com conseqüente uso de medicações por período de tempo limitado, não exclui o paciente (seu filho ou filha) do estudo.
- i) Caso venham a surgir dúvidas ou perguntas, sinta-se livre para contatar o Cirurgião-Dentista. Jose Luciano Pimenta Couto (responsável pelo projeto) na Faculdade de Odontologia (sala 1), rua Monsenhor Furtado, s/n, Rodolfo Teófilo ou no telefone 3366 8408. Pode-se ainda contatar o Comitê de Ética em

Pesquisa da Universidade Federal do Ceará no telefone 3366 8338.

- j) Incluir que não haverá tratamento com aparelhos saos
- k) Você poderá descontinuar a participação no estudo a qualquer momento, sem necessidade de justificativa.

Fortaleza, _____

Nome Completo: _____

Assinatura _____ **Voluntário** _____ **ou**

Responsável: _____

Testemunha 1: _____

Testemunha 2: _____



Jose Luciano Pimenta Couto
Responsável pela Pesquisa

ANEXO

Guidelines for Original Articles Submit Original Articles via EES:

<http://ees.elsevier.com/ajodo>

Before you begin, please review the guidelines below. To view a 7-minute video explaining how to prepare your article for submission, go to [Video on Manuscript Preparation](#).

1. *Title Page.* Put all information pertaining to the authors in a separate document. Include the title of the article, full name(s) of the author(s), academic degrees, and institutional affiliations and positions; identify the corresponding author and include an address, telephone and fax numbers, and an e-mail address. This information will not be available to the reviewers.

2. *Abstract.* Structured abstracts of 200 words or less are preferred. A structured abstract contains the following sections: Introduction, describing the problem; Methods, describing how the study was performed; Results, describing the primary results; and Conclusions, reporting what the authors conclude from the findings and any clinical implications.

3. *Manuscript.* The manuscript proper should be organized in the following sections: Introduction and literature review, Material and Methods, Results, Discussion, Conclusions, References, and figure captions. Express measurements in metric units, whenever practical. Refer to teeth by their full name or their FDI tooth number. For style questions, refer to the *AMA Manual of Style, 10th edition*. Cite references selectively, and number them in the order cited. Make sure that all

Luciano Pimenta 26/5/15 10:13

Moved (insertion) [1]

Luciano Pimenta 26/5/15 10:13

Deleted: 1

references have been mentioned in the text. Follow the format for references in "Uniform Requirements for Manuscripts Submitted to Biomedical Journals" (Ann Intern Med 1997;126:36-47); <http://www.icmje.org>. Include the list of references with the manuscript proper. Submit figures and tables separately (see below); do not embed figures in the word processing document.

4. *Figures.* Digital images should be in TIF or EPS format, CMYK or grayscale, at least 5 inches wide and at least 300 pixels per inch (118 pixels per cm). Do not embed images in a word processing program. If published, images could be reduced to 1 column width (about 3 inches), so authors should ensure that figures will remain legible at that scale. For best results, avoid screening, shading, and colored backgrounds; use the simplest patterns available to indicate differences in charts. If a figure has been previously published, the legend (included in the manuscript proper) must give full credit to the original source, and written permission from the original publisher must be included. Be sure you have mentioned each figure, in order, in the text.

5. *Tables.* Tables should be self-explanatory and should supplement, not duplicate, the text. Number them with Roman numerals, in the order they are mentioned in the text. Provide a brief title for each. If a table has been previously published, include a footnote in the table giving full credit to the original source and include written permission for its use from the copyright holder. Submit tables as text-based files (Word is preferred, Excel is accepted) and not as graphic elements. Do not use colors, shading, boldface, or italic in tables. Do not submit tables as parts A and B; divide into 2 separate tables. Do not "protect" tables by making them "read-only." The table title should be put above the table and not as a cell in the table. Similarly, table footnotes should be under the table, not table cells. 6. *Model release and permission forms.* Photographs of identifiable persons must be

accompanied by a release signed by the person or both living parents or the guardian of minors. Illustrations or tables that have appeared in copyrighted material must be accompanied by written permission for their use from the copyright owner and original author, and the legend must properly credit the source. Permission also must be obtained to use modified tables or figures.

7. Copyright release. In accordance with the Copyright Act of 1976, which became effective February 1, 1978, all manuscripts must be accompanied by the following written statement, signed by all authors: "The undersigned author(s) transfers all copyright ownership of the manuscript [insert title of article here] to the American Association of Orthodontists in the event the work is published. The undersigned author(s) warrants that the article is original, does not infringe upon any copyright or other proprietary right of any third party, is not under consideration by another journal, has not been previously published, and includes any product that may derive from the published journal, whether print or electronic media. I (we) sign for and accept responsibility for releasing this material." Scan the printed copyright release and submit it via EES.

8. Use the International Committee of Medical Journal Editors Form for the Disclosure of Conflict of Interest (ICMJE Conflict of Interest Form). If the manuscript is accepted, the disclosed information will be published with the article. The usual and customary listing of sources of support and institutional affiliations on the title page is proper and does not imply a conflict of interest. Guest editorials, Letters, and Review articles may be rejected if a conflict of interest exists.

9. Institutional Review Board approval. For those articles that report on the results of experiments of treatments where patients or animals have been used as the sample, Institutional Review Board (IRB) approval is mandatory. No experimental

studies will be sent out for review without an IRB approval accompanying the manuscript submission