

# **Distúrbio de deglutição e miofuncional orofacial em crianças com Síndrome congênita pelo Zika vírus**

## **RESUMO**

**Introdução:** A infecção congênita por Zika vírus (ZIKV) é acompanhada de microcefalia e outras alterações incluindo distúrbios neurológicos, visuais, auditivos, de deglutição que, em conjunto, caracterizam a Síndrome Congênita do vírus Zika (SCZ). Crianças com SCZ podem apresentar alterações miofuncionais orofaciais e disfagia com risco de infecções respiratórias e desnutrição, sendo indispensável a avaliação e acompanhamento fonoaudiológico. **Objetivo:** Avaliar prospectivamente a deglutição e a motricidade orofacial de crianças com Síndrome Congênita do vírus Zika (SCZ) nos primeiros cinco anos de vida. **Metodologia:** Estudo longitudinal, prospectivo, de série de casos com bebês nascidos em maternidades de referência em Salvador, Bahia, Brasil, entre outubro de 2015 e fevereiro de 2016, com suspeita clínica de infecção congênita por ZIKV com: Alterações neurológicas em exames de imagem sugestivas de infecção por ZIKV e; Sorologia positiva para ZIKV ou; Sintomas maternos de infecção por ZIKV durante a gestação (sem uso de drogas ou outras substâncias que possam causar malformações) ou; Microcefalia ao nascer. Bebês com sorologia positiva para outras infecções congênitas ou; que realizaram uma única avaliação fonoaudiológica foram excluídos do estudo. Os bebês foram selecionados por amostra de conveniência, classificados de acordo com os critérios de França *et al.*, 2016 e submetidos a três avaliações fonoaudiológicas da deglutição e miofuncional orofacial prospectiva e exame de videoendoscopia da deglutição (VED). **Resultados:** De 13 bebês, 9 foram acompanhadas por mediana de 45,1 meses. Oito das nove mães apresentaram sintomas sugestivos de infecção por ZIKV,

sobretudo no primeiro trimestre de gestação. Sete mães apresentaram sorologia (IgM e IgG) positiva para ZIKV. Todas as mães negaram consanguinidade, comorbidades, consumo de álcool, drogas ou tabagismo durante a gestação. De acordo com os critérios de França *et al.*, 2016: 7 casos foram considerados definitivos, 1 como altamente provável e 1 como moderadamente provável. Todos os bebês apresentaram alterações neurológicas características de SCZ nos exames de imagem, além de alterações visuais e osteomioarticulares. Dos 9 bebês, 8 apresentaram IgG positiva e 7 IgM positiva para ZIKV. A mediana de idade dos bebês na primeira avaliação foi de 4 meses, onde foram identificadas os primeiros sinais de disfagia principalmente com alterações na pega/captação/preensão e escape extra oral em 3 crianças e engasgos em 5 crianças. A mediana de idade das crianças na segunda avaliação foi de 35,2 meses e na terceira avaliação de 45,1 meses, onde foram identificadas alterações de tônus e mobilidade de lábios, língua e bochechas, e alterações na fase oral da deglutição em todas as crianças avaliadas, nas duas avaliações, além de alterações na fase faríngea em todas as consistências avaliadas, sobretudo com líquido fino. A videoendoscopia da deglutição (VED) foi realizada em sete crianças, onde foram observados resíduos em 4 crianças, estase salivar em 3 crianças, penetração laríngea em 2 crianças e aspiração laringotraqueal em 1 criança. Todas as crianças apresentaram manifestações disfágicas na avaliação clínica da deglutição e/ou na VED. Em todos os casos avaliados foi recomendado o acompanhamento fonoaudiológico e multiprofissional. Foi sugerida avaliação de via alternativa de alimentação para 3 crianças. Uma das crianças foi submetida a gastrostomia e recebeu nutrição enteral para o tratamento de DRGE e uma criança foi hospitalizada por infecção do trato respiratório (ITR). Não foram identificadas associações estatisticamente significantes entre alterações miofuncionais orofaciais e de deglutição e demais características clínicas. **Conclusões:** As alterações miofuncionais orofaciais e de

deglutição(disfagia) são frequentes na SCZ, com início principalmente a partir do terceiro mês de vida, com risco de infecção do trato respiratório ou necessidade de nutrição enteral, contribuindo para a morbidade da doença. Ante o exposto, sugerimos acompanhamento a longo prazo, para identificação e intervenção precoce das alterações associadas de forma individualizada, bem como a mitigação dos impactos no desenvolvimento infantil.

**Palavras-chave:** 1. Síndrome congênita do vírus Zika; 2. Distúrbio de deglutição; 3. Distúrbio miofuncional orofacial;

## **Swallowing and orofacial myofunctional disorders in children with congenital Zika vírus syndrome**

### **ABSTRACT**

**Introduction:** Congenital Zika virus infection (ZIKV) is accompanied by microcephaly and other alterations including neurological, visual, auditory, swallowing disorders that, together, characterize the Congenital Zika virus syndrome (CSZ). Children with SCZ can present orofacial myofunctional alterations and dysphagia with risk of respiratory infections and malnutrition, being essential the evaluation and speech therapy. **Objective:** To prospectively evaluate swallowing and orofacial motricity in children with Congenital Zika Virus Syndrome (CSZ) in the first five years of life. **Methods:** Longitudinal, prospective, case series study with babies born in reference maternity hospitals in Salvador, Bahia, Brazil, between October 2015 and February 2016, with clinical suspicion of congenital ZIKV infection with: Neurological alterations in imaging tests suggestive of ZIKV infection and; Positive serology for ZIKV or; Maternal symptoms of

ZIKV infection during pregnancy (without the use of drugs or other substances that can cause malformations) or; Microcephaly at birth. Babies with positive serology for other congenital infections or; who performed a single speech therapy assessment were excluded from the study. The babies were selected by a convenience sample, classified according to the criteria of França et al., 2016 and submitted to three speech-language assessments of swallowing and prospective orofacial myofunctional and swallowing videoendoscopy (VED). **Results:** Of 13 babies, 9 were followed for a median of 45.1 months. Eight of the nine mothers had symptoms suggestive of ZIKV infection, especially in the first trimester of pregnancy. Seven mothers had positive serology (IgM and IgG) for ZIKV. All mothers denied consanguinity, comorbidities, consumption of alcohol, drugs or smoking during pregnancy. According to the criteria of França et al., 2016: 7 cases were considered definitive, 1 as highly probable and 1 as moderately probable. All babies had neurological alterations characteristic of SCZ on imaging exams, in addition to visual and osteomyoarticular alterations. Of the 9 babies, 8 were IgG positive and 7 IgM positive for ZIKV. The infants' median age at the first assessment was 4 months, where the first signs of dysphagia were identified, mainly with changes in grip/uptake/grip and extra-oral escape in 3 children and choking in 5 children. The median age of children in the second assessment was 35.2 months and in the third assessment, 45.1 months, where changes in tonus and mobility of lips, tongue and cheeks were identified, and changes in the oral phase of swallowing in all cases. children evaluated, in the two evaluations, in addition to alterations in the pharyngeal phase in all the consistencies evaluated, especially with thin liquid. Swallowing endoscopy (VED) was performed in seven children, where residues were observed in 4 children, salivary stasis in 3 children, laryngeal penetration in 2 children and laryngotracheal aspiration in 1 child. All children had dysphagic manifestations in the clinical evaluation of swallowing and/or

in the VED. In all cases evaluated, speech therapy and multidisciplinary follow-up was recommended. Evaluation of an alternative feeding route was suggested for 3 children. One of the children underwent gastrostomy and received enteral nutrition for the treatment of GERD and one child was hospitalized for respiratory tract infection (RTI). No statistically significant associations were identified between orofacial and swallowing myofunctional alterations and other clinical characteristics. **Conclusions:** Myofunctional orofacial and swallowing disorders (dysphagia) are frequent in SCZ, starting mainly from the third month of life, with risk of respiratory tract infection or need for enteral nutrition, contributing to the morbidity of the disease. In light of the above, we suggest long-term follow-up, for the identification and early intervention of associated changes in an individualized manner, as well as the mitigation of impacts on child development.

**Keywords:** 1. Congenital Zika virus syndrome; 2. Swallowing disorder; 3. Orofacial myofunctional disorder;

## PRINCIPAIS RESULTADOS

**Tabela 1** – Características clínicas e epidemiológicas maternas dos bebês com síndrome congênita pelo ZIKV:

Variáveis	N = 09
Idade materna ao parto (em anos) Média (Desvio-padrão)	24,6 (7,0)
Idade gestacional ao parto (em semanas) Média (Desvio-padrão)	38,4 (1,5)
Nº de consultas pré-natal	
1 a 3	2 (22,2%)
4 a 8	4 (44,4%)

$\geq 9$	3 (33,3%)
Intercorrências durante a gestação	
Anemia	4 (44,4%)
Infecção do Trato Urinário	4 (44,4%)
Erisipela	1 (11,1%)
Colpite Difusa	1 (11,1%)
Uso de medicamento durante a gestação	
1º trimestre	2 (22,2%)
2º trimestre	1 (11,1%)
3º trimestre	3 (33,3%)
Período dos sintomas sugestivos de ZIKV na gestação	
1º trimestre	7 (77,8%)
2º trimestre	1 (11,1%)
Ausência de sintomas	1 (11,1%)
Sintomas sugestivos de ZIKV na gestação	
Exantema	7 (77,8%)
Mialgia	7 (77,8%)
Cefaléia	6 (66,6%)
Artralgia	6 (66,6%)
Febre	4 (44,4%)
Edema Articular	2 (22,2%)
Dor retro-ocular	2 (22,2%)
Sorologia para ZIKV	
IgM reagente	7 (77,8%)

IgG reagente	7 (77,8%)
Borderline (IgG)	1 (11,1%)
Não realizou sorologia (IgM)	2 (22,2%)
Não realizou sorologia (IgG)	1 (11,1%)

**Tabela 2** – Características clínicas e epidemiológicas dos bebês com síndrome congênita pelo ZIKV:

Variáveis	N = 9
Sexo masculino	6 (66,6%)
Peso ao nascer (g) Média (Desvio-padrão)	2982,0 (587,5)
Comprimento (cm) Média (Desvio-padrão)	46,1 (3,8)
Perímetro cefálico (cm) Média (Desvio-padrão)	29,9 (2,6)
Classificação do perímetro cefálico – INTERGROWTH-21 <sup>st</sup>	
Sem Microcefalia (0 ou - 1 desvio-padrão)	2 (22,2%)
Microcefalia (- 2 desvios-padrão)	3 (33,3%)
Microcefalia grave (-3 desvios-padrão)	4 (44,4%)
Sorologia ZIKV	
IgM positivo	7 (77,8%)
IgG positivo	8 (88,9%)
Não realizou sorologia IgM	2 (22,2%)
Não realizou sorologia IgG	1 (11,1%)
Intercorrências pós-natais	
Icterícia/Hiperbilirrubinemia	4 (44,4%)
Necessitou de fototerapia	4 (44,4%)

Teve convulsões	8 (88,9%)
Necessitou de ventilação mecânica	1 (11,1%)
Internamento em UTI por mais de 5 dias	3 (33,3%)
Utilizou SNE/SNG/SOE/SOG	1 (11,1%)

---

LEGENDA: SNE (sonda nasoenteral); SNG (sonda nasogástrica); SOE (sonda oroenteral); SOG (sonda orogástrica)

**Tabela 3** – Achados nos exames de neuroimagem pré e/ou pós-natal:

---

Variáveis	N=09 (%)
Calcificações	8 (88,9%)
Ventriculomegalia	8 (88,9%)
Lisencefalia	5 (55,5%)
Disgenesia de Corpo Caloso	4 (44,4%)
Cistos	3 (33,3%)
Hipoplasia Cerebelar	2 (22,2%)
Atrofia cerebral	2 (22,2%)
Colpocefalia	2 (22,2%)
Sinais de vasculopatia	2 (22,2%)
Cavalgamento de osso da calota craniana	2 (22,2%)
Malformação de Dandy Walker	1 (11,1%)
Sinais de hipertensão intracraniana	1 (11,1%)
Hipoatenuação da substância branca/hipomielinização	1 (11,1%)
Ampliação difusa do espaço subaracnóideo em fossa craniana posterior	1 (11,1%)
Espaço periencefálico e cisternas dilatados	1 (11,1%)

---



**Tabela 4** – Alterações associadas, tratamentos, complicações e desfechos clínicos

Variáveis	N = 09 (%)
Alterações associadas	
Alterações osteomioarticulares	9 (100%)
Alteração Visual	9 (100%)
Perda Auditiva	5 (55,5%)
Diabetes	1 (11,1%)
DRGE	1 (11,1%)
Tratamentos	
Fisioterapia motora	4 (44,4%)
Terapia Fonoaudiológica	3 (33,3%)
Terapia Ocupacional	2 (22,2%)
Complicações e desfechos clínicos	
Indicação/avaliação de via alternativa de alimentação	3 (33,3%)
Internamento hospitalar para tratamento de infecção do trato respiratório (ITR)	1 (11,1%)
Necessidade de nutrição enteral	1 (11,1%)

LEGENDA: DRGE – Doença do Refluxo Gastroesofágico

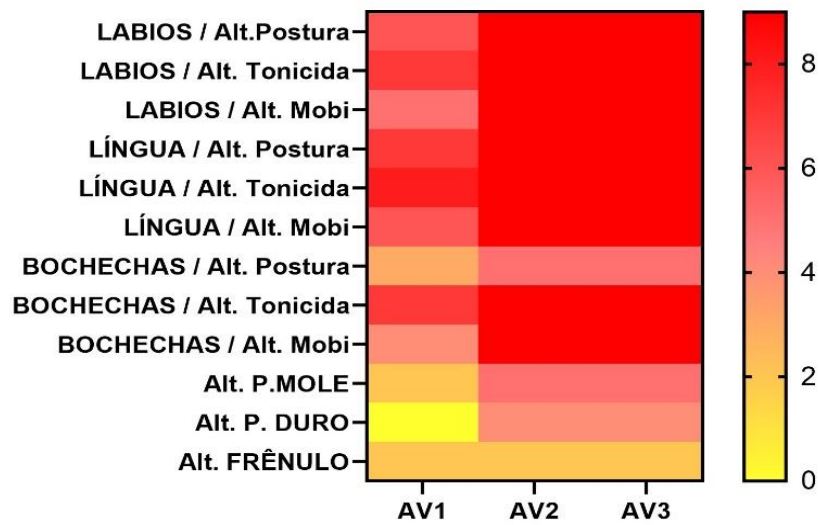


Figura 3. Heatmap com o número de casos com cada tipo de alteração da motricidade orofacial na primeira (AV1), segunda (AV2) e terceira (AV3) avaliações.

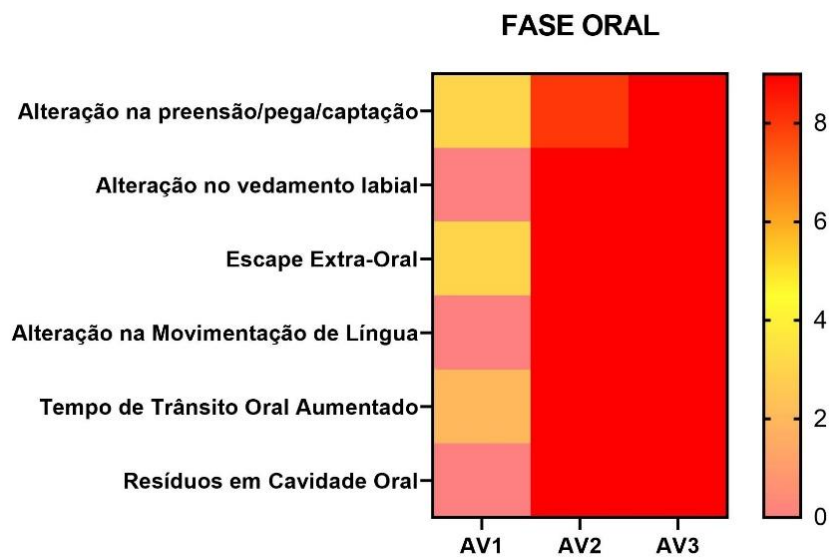


Figura 4. Heatmap com o número de casos com cada tipo de manifestação disfágica na fase oral da deglutição na primeira (AV1), segunda (AV2) e terceira (AV3) avaliações.

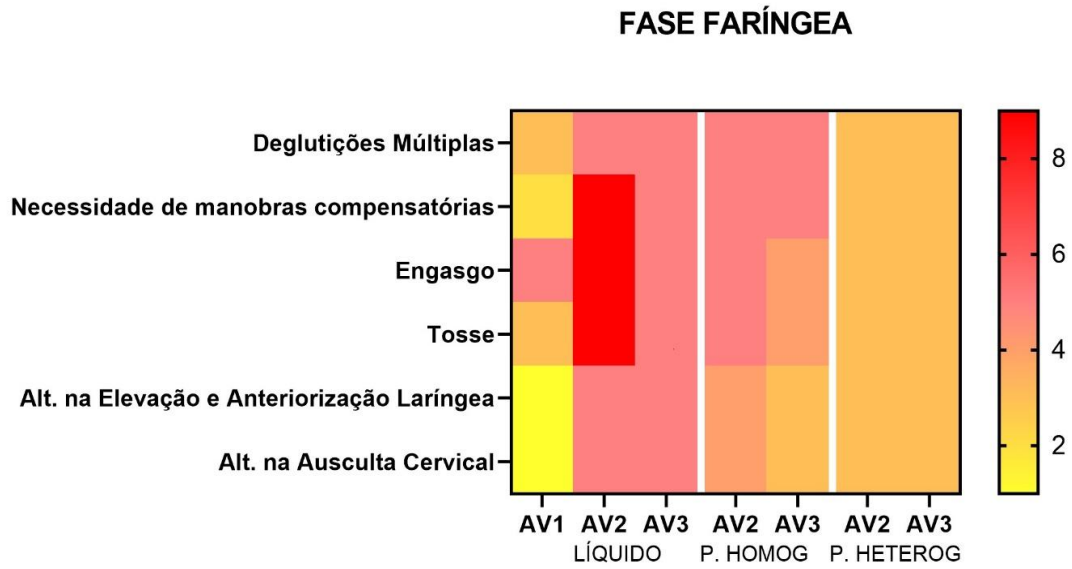


Figura 5. Heatmap com o número de casos com cada tipo de manifestação disfágica na fase faríngea da deglutição de acordo com a consistência do alimento ofertado (líquido, pastoso homogêneo e pastoso heterogêneo) na primeira (AV1), segunda (AV2) e terceira (AV3) avaliações.

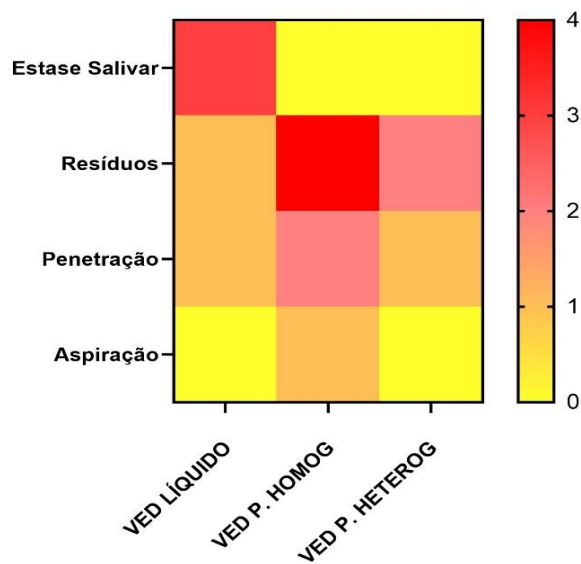


Figura 6. Heatmap com o número de casos com cada tipo de manifestação disfágica na fase faríngea da deglutição detectada na videoendoscopia da deglutição (VED), de acordo com a consistência do alimento ofertado (líquido, pastoso homogêneo e pastoso heterogêneo). VED ( n=7)