

Freqüência e tipologia das disfluências na Gagueira Desenvolvimental Persistente Familiar

Palavras-chave: fluência, gagueira, fala.

Introdução

Gagueira desenvolvimental persistente é um distúrbio complexo da fluência, com início na infância, caracterizado por interrupções atípicas no fluxo da fala, que persistem por mais de 36 meses¹⁻². Quando existem fatores genéticos atuando na transmissão da gagueira, caracterizamos o distúrbio como gagueira desenvolvimental persistente familiar (GDPF)³⁻⁶.

As disfluências representam as principais manifestações da gagueira, e são utilizadas como um parâmetro para descrever, definir e medir a gravidade do distúrbio⁷. A literatura atual aponta para possíveis sub-grupos de gagueira⁸, entre eles a GDPF, porém, são escassos os estudos que analisaram as rupturas no fluxo da fala de indivíduos com este tipo de gagueira.

Portanto, a partir do exposto, o objetivo deste estudo é quantificar e comparar as tipologias das disfluências da fala de indivíduos com gagueira desenvolvimental persistente familiar (GDPF) e indivíduos fluentes.

Método

O estudo foi iniciado após o parecer do Comitê de Ética em Pesquisa da Instituição. Participaram 52 indivíduos (8.0 a 40.11 anos de idade, média 34.5 anos), de ambos os gêneros (8 do gênero feminino, 44 do gênero masculino) divididos em dois grupos, pareados por idade e gênero.

O grupo de pesquisa (G1) foi composto por 26 indivíduos com GDPF, sem qualquer outro déficit comunicativo, neurológico e cognitivo associado. Os critérios de inclusão dos participantes de G1 foram: (a) apresentar queixa de gagueira por parte dos pais (crianças e adolescentes) ou pelos próprios indivíduos (adultos); (b) apresentar gagueira desenvolvimental; (c) apresentar quadro de gagueira há mais de 36 meses, sem remissão; (d) apresentar no mínimo 3% de rupturas gags; e (e) apresentar gagueira classificada no mínimo como leve a partir do Instrumento de Gravidade da Gagueira (*Stuttering Severity Instrument, SSI-3*)⁹.

O grupo controle (GII) foi composto por 26 indivíduos fluentes, pareados por gênero e idade (\pm 3 meses) do GI. Os critérios de inclusão de GII foram: (a) não apresentar queixa de gagueira, nem histórico de gagueira ou qualquer distúrbio da comunicação; (b) apresentar menos de 3% de rupturas gagas; e (d) apresentar histórico familiar negativo de gagueira, incluindo familiares de primeiro, segundo e terceiro graus.

Foram excluídos indivíduos com alterações neurológicas, síndromes genéticas, deficiência mental, epilepsia, transtorno do déficit de atenção e hiperatividade (TDAH) ou condições psiquiátricas.

Procedimentos

Para obtenção dos dados de pesquisa foi utilizado o Protocolo de Avaliação da Fluência¹⁰ para caracterizar a tipologia e a frequência das disfluências. Uma amostra da fala de cada participante contendo no mínimo 200 sílabas fluentes foi obtida a partir de um estímulo visual de figura. Os casos foram filmados para análise e comparação dos achados, sendo utilizado uma filmadora digital Sony e tripé. Após a coleta de fala dos participantes, as mesmas foram transcritas na íntegra, considerando-se as sílabas fluentes e não fluentes. Após a classificação da tipologia das disfluências, as frequências das rupturas foram calculadas: porcentagem de descontinuidade de fala (disfluências comuns e gagas) de porcentagem de disfluências gagas¹⁰.

Para a obtenção dos resultados, foi utilizado o programa SPSS (*Statistical Package for Social Sciences*), em sua versão 17.0. O *Teste de Mann-Whitney* foi utilizado para verificarmos as possíveis diferenças das disfluências entre os grupos. O nível de significância adotado foi de 5% ($p \leq 0,05$).

Resultados

Comparando os grupos observa-se que GI e GII se diferenciaram estatisticamente na porcentagem de descontinuidade de fala e de disfluências gagas. GI apresentou mais do que o dobro de descontinuidade na fala e de disfluências gagas (Tabela 1).

Tabela 1. Comparação entre indivíduos com gagueira desenvolvimental persistente familiar (GDPF) (GI) e fluentes (GII) quanto à porcentagem de descontinuidade de fala e disfluências gagas.

| Variável | Gru | Média | Desvio-padrão | p-valor |
|------------------------------|-----|-------|---------------|----------|
| % de Descontinuidade de fala | GI | 17,53 | 9,1 | < 0,001* |
| | GII | 6,67 | 2,6 | |
| % de Disfluências gagas | GI | 6,49 | 6,35 | < 0,001* |
| | GII | 0,21 | 0,35 | |

A ocorrência das disfluências comuns dos grupos participantes está distribuída em suas tipologias na Tabela 2. Nota-se que GI apresentou uma maior quantidade de todas as disfluências comuns em relação a GII, com exceção da revisão. Para GI e GII a tipologia de maior ocorrência foi a hesitação. Ambos os grupos apresentaram menor média de ocorrência da tipologia palavra não terminada e não apresentaram a tipologia repetição de frase.

Os grupos não se diferenciaram estatisticamente quanto ao número de interjeição, revisão e palavra não terminada. As tipologias hesitação, repetição de segmento e repetição de palavra diferenciaram estatisticamente os grupos, apresentando maior ocorrência para GI.

Tabela 2. Comparação entre indivíduos com gagueira desenvolvimental persistente familiar (GDPF) (GI) e fluentes (GII) quanto à tipologia das disfluências comuns.

| | Hesitação | | Interjeição | | Revisão | | Palavra não terminada | | Repetição de segmento | | Repetição de palavra | |
|---------|-----------|------|-------------|------|---------|------|-----------------------|------|-----------------------|------|----------------------|------|
| | M | DP | M | DP | M | DP | M | DP | M | DP | M | DP |
| GI | 8,27 | 6,30 | 6,04 | 4,58 | 1,12 | 0,95 | 0,23 | 0,51 | 1,54 | 1,75 | 4,12 | 2,44 |
| GII | 4,88 | 2,69 | 4,58 | 3,96 | 2,04 | 2,36 | 0,12 | 0,33 | 0,27 | 0,53 | 0,69 | 0,79 |
| p-valor | 0,034* | | 0,122 | | 0,076 | | 0,421 | | <0,001* | | <0,001* | |

Legenda: M, média; DP, desvio-padrão.

A Tabela 3 apresenta os resultados referentes à ocorrência das disfluências gagas dos participantes distribuídas em suas tipologias. Os dados mostram que GI apresentou maior quantidade de todos os tipos de disfluências gagas, sendo esta diferença estatisticamente significativa para todas as tipologias. A tipologia de maior ocorrência para GI foi o bloqueio, enquanto que para GII foi repetição de sílaba e prolongamento.

Tabela 3. Comparação entre indivíduos com gagueira desenvolvimental persistente familiar (GDPF) (GI) e fluentes (GII) quanto à tipologias das disfluências gagas.

| | Rep. Sílabas | | Rep. Som | | Bloqueio | | Prolongamento | | Pausa | | Intrusão | |
|---------|--------------|------|----------|------|----------|------|---------------|------|--------|------|----------|------|
| | M | DP | M | DP | M | DP | M | DP | M | DP | M | DP |
| GI | 2,23 | 2,32 | 1,65 | 2,48 | 5,50 | 5,91 | 4,65 | 7,92 | 0,73 | 1,51 | 0,96 | 1,28 |
| GII | 0,19 | 0,40 | 0 | 0 | 0 | 0 | 0,19 | 0,49 | 0,12 | 0,35 | 0 | 0 |
| p-valor | <0,001* | | <0,001* | | <0,001* | | <0,001* | | 0,001* | | <0,001* | |

Legenda: M, média; DP, desvio-padrão.

Discussão

Os resultados apresentados mostraram que os grupos se diferenciaram quanto à porcentagem de descontinuidade de fala e porcentagem de disfluências gagas, sendo que o grupo com GDPF apresentou maior quantidade nas duas medidas analisadas, corroborando estudo prévio¹¹. O motivo do maior número de disfluências comuns no grupo de gagueira ainda não é suficientemente compreendido, porém, pode ser explicado pelo fato de que a pessoa que gagueja utiliza as disfluências comuns para adiar uma palavra temida ou liberar um bloqueio¹¹.

A hesitação foi a tipologia comum de maior ocorrência nos dois grupos. Estudos com crianças fluentes encontraram a hesitação¹² como as disfluências comuns de maior ocorrência. Estudos com adolescentes e adultos fluentes relataram que as disfluências comuns mais frequentes na fala de indivíduos adolescentes ou adultos foram as interjeições e revisões¹³⁻¹⁶.

As disfluências gagas, caracterizadas como manifestações obrigatórias para o diagnóstico de gagueira^{5,17-18}, também ocorreram na fala do grupo de fluentes, porém, em menor quantidade^{13,15,19-20}. Para GI, a tipologia gaga de maior ocorrência foi o bloqueio, semelhante ao achado descrito por Juste e Andrade⁷ no caso de adolescentes e adultos. Nos indivíduos fluentes (GII) as únicas tipologias gagas que ocorreram foram repetição de parte da palavra e prolongamento. Um estudo¹² realizado com crianças fluentes relatou que o prolongamento e a pausa foram as rupturas gagas de maior ocorrência. Na população de adolescentes e adultos, o prolongamento foi a tipologia gaga mais frequente¹⁶.

Vale ressaltar que, nossos achados, como relatos na literatura¹⁶, mostraram que os prolongamentos de indivíduos fluentes são freqüentemente encontrados nos finais das palavras, sem tensão muscular e com pouco tempo de duração. Esse dado destaca a

necessidade do cuidado em rotular qualquer prolongamento como disfluência gaga. Sugerimos que uma análise qualitativa do bloqueio deve ser realizada para classificá-lo como disfluência gaga ou comum.

As tipologias gagas que não ocorreram na fala dos participantes de GII foram repetição de som, bloqueio e intrusão. Para Juste e Andrade¹² a intrusão e bloqueio foram as disfluências gagas que não foram apresentadas pelas crianças fluentes avaliadas. Em estudos com adolescentes e adultos, o bloqueio foi a disfluência gaga que menos ocorreu na fala de fluentes¹⁶.

Finalmente destacamos que inúmeras investigações^{18, 21-25} analisaram os aspectos genéticos envolvidos na transmissão da gagueira no GDPF, porém, freqüentemente estes estudos não apresentam dados sobre a freqüência e, principalmente sobre a tipologia das disfluências apresentadas por esta população como um grupo.

Conclusão

Este estudo apresentou informações relevantes sobre a tipologia das disfluências de indivíduos com Gagueira Desenvolvimental Persistente Familiar (GDPF), pouco explorada até então na literatura. Futuros estudos das disfluências devem ser realizados com maior número de probandos gagos, com os probandos e seus familiares afetados, e finalmente de indivíduos com gagueira desenvolvimental persistente familiar e gagueira desenvolvimental persistente isolada.

Referências Bibliográficas

- 1- Zebrowski PM, Kelly EM. Manual of stuttering intervention. Singular Thomson Learning, Canada. 2002.
- 2- Yairi E, Ambrose NG, Paden EP, Throneburg RN. Predictive factors of persistence and recovery: pathways of childhood stuttering. J Fluency Disord. 1996;29:51-77.
- 3- Janssen P, Kraaimaat F, Brutten GJ. Relationship between stutterers' genetic history and speech-associated variables. J Fluency Disord. 1990;15:39-48.
- 4- Poulos MG, Webster WG. Family history as a basis for subgrouping people who stutter. J Speech Hear Res. 1991;34:5-10.
- 5- Yairi E, Ambrose NG, Cox N. Genetics of stuttering: a critical review. J Speech Lang Hear Res. 1996;39:771-84.
- 6- Drayna D, Kilshaw J, Kelly J. The sex ratio in familial persistent stuttering. Am J Hum Genet. 1999; 65:1473-5.
- 7- Juste FS, Andrade CRF. Tipologias de rupturas de fala de indivíduos gagos e fluentes: diferenças entre faixas etárias. In: Anais do 17º Congresso Brasileiro de Fonoaudiologia e 1º Congresso Ibero-Americano de Fonoaudiologia; 2009 Oct 21-24; Salvador. Anais. Salvador: SBFA; 2009.
- 8- Yairi E. Subtyping stuttering I: A review. J Fluency Disord. 2007; 32:165-96.
- 9- Riley G. Stuttering severity instrument for young children (SSI-3) (3rd ed.). Austin, TX: Pro-Ed. 1994.
- 10- Andrade CRF. Protocolo para avaliação da fluência da fala. Pró-Fono. 2000;12:131-4.

- 11- Zackiewicz, D.V. Avaliação quantitativa e qualitativa das disfluências em indivíduos gogos e fluentes. Dissertação apresentada à Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo. São Paulo. 1999.
- 12- Juste F, Andrade CRF. Tipologia das rupturas de fala e classes gramaticais em crianças gagas e fluentes. *Pró-Fono*. 2006; 18:129-40.
- 13- Yairi E, Clifton NF. Disfluent speech behavior of preschool children, high school seniors and geriatric persons. *J Speech Hear Res*. 1972;15:714-9.
- 14- Lutz KC, Mallard, A.R. Disfluencies and rate of speech in young adult stutterers. *J Fluency Disord*. 1986; 11:307-16.
- 15- Duchin SW, Mysak ED. Disfluency and rate characteristics of young adult, middle-aged, and older males. *J Commun Disord*. 1987; 20:245-57.
- 16- Roberts PM, Meltzer A, Wilding J. Disfluencies in non-stuttering adults across sample lengths and topics. *J Commun Disord*, 2009; 42:414-27.
- 17- Sawyer J, Yairi E. The effect of sample size on the assessment of stuttering severity. *American J Speech Lang Pathol*. 2006;15:36-44.
- 18- Wittke-Thompson JK, Ambrose N, Yairi EC, Cook EH, Ober C. et al. Genetic studies of stuttering in a founder population. *J Fluency Disord*. 2007;32:33-50.
- 19- Leeper LH, Culatta R. Speech fluency: Effect of age, gender and context. *Folia Phoniatri Logop*. 1995;47:1-14
- 20- Martins VO, Andrade CRF. Perfil evolutivo da fala de falantes do português brasileiro. *Pró-Fono*. 2008; 20:7-12.
- 21- Drayna E. Results of a genome-wide linkage scan for stuttering. *Amer J Med Genet*. 2004; 12:133-5.
- 22- Riaz N, Steinberg S, Ahmad, J. et al. Genomewide Significant Linkage to Stuttering on Chromosome 12. *Amer J Med Genet*. 2005; 76:647-51.
- 23- Suresh R, Ambrose N, Roe C, et al. New complexities in the genetics of stuttering: significant sex-specific linkage signals. *Am J Hum Genet* . 2006; 78:554-63.
- 24- Shugart YY, Mundorff J, Kilshaw J, et al. Results of a genome-wide linkage scan for stuttering. *Amer J Med Genet*. 2004; 124:133-5.
- 25- Kang, C. et al., Lysosomal Enzyme Targeting Pathway Mutations in Persistent Stuttering, *N Engl J Med*. 2020; 362: 677-85.