

Ana Cecília Grilli Fernandes Stefanelli¹ 

Sthella Zanchetta² 

Erikson Felipe Furtado¹ 

Hiper-responsividade auditiva no transtorno do espectro autista, terminologias e mecanismos fisiológicos envolvidos: revisão sistemática

Auditory hyper-responsiveness in autism spectrum disorder, terminologies and physiological mechanisms involved: systematic review

Palavras-chave

Hiperacusia
Hipersensibilidade
Audição
Transtorno do Espectro Autista
Criança

Keywords

Hyperacusis
Hypersensitivity
Hearing
Autistic Spectrum Disorder
Child

Endereço para correspondência:

Sthella Zanchetta
Faculdade de Medicina de Ribeirão Preto – FMRP, Universidade de São Paulo – USP
Av. dos Bandeirantes, 3900 (Rua Miguel Covian, 120 – Campus USP-RP), Monte Alegre, Ribeirão Preto (SP), Brasil, CEP: 14048-900.
E-mail: zanchetta@fmrp.usp.br

Recebido em: Novembro 19, 2018

Aceito em: Março 15, 2019

RESUMO

Objetivo: identificar as terminologias mais utilizadas para designar o comportamento desproporcional a determinados sons (CDS) no TEA e sua relação com as respectivas ferramentas para sua investigação, assim como sua ocorrência e desfechos. **Estratégia de pesquisa:** Foram utilizadas as bases de dados: PubMed, PsycINFO, Web of Science, Scielo e Lilacs. As palavras-chave utilizadas foram “autism”, “hyperacusis” e “auditory perception”, com as seguintes combinações: “autism AND hyperacusis” e “autism AND auditory perception”. **Critérios de seleção:** Foram incluídos os trabalhos com diagnóstico de TEA, de qualquer faixa etária; resumo disponível; Artigos em inglês, espanhol e português brasileiro; série de casos, estudos de prevalência e incidência, coorte e ensaios clínicos. **Análise dos dados:** Foram analisados estudos com sujeitos com diagnóstico de TEA de qualquer faixa etária; referência no título e/ou resumo da ocorrência do CDS, aceitando os termos hiper-responsividade, hipersensibilidade e hiperacusia; resumo disponível; artigos em inglês, espanhol e português brasileiro; série de casos, estudos de prevalência e incidência, coorte e ensaios clínicos. **Resultados:** Dos 692 estudos resultantes da consulta, foram identificados 13 que atendiam aos requisitos estabelecidos. **Conclusão:** O termo hipersensibilidade auditiva foi o mais empregado para designar o CDS, seguido da hiperacusia. Não houve relação entre os termos e a respectiva ferramenta de investigação, sendo os questionários os mais utilizados para designar o referido comportamento, cuja frequência relatada foi de 42,1% a 69,0%. Os testes auditivos, quando realizados, mostraram o envolvimento das vias neurais auditivas, aferente e eferente.

ABSTRACT

Purpose: this paper aims to identify the most used terminologies to designate the disproportional behavior to sounds in the autism spectrum disorder (ASD) and its relationship with the respective tools for its investigation, as well as its occurrence and outcomes. **Research strategies:** the databases used were PubMed, PsycINFO, Web of Science, Scielo and Lilacs. The keywords used were “autism”, “hyperacusis” and “auditory perception”, with the following combinations: “autism AND hyperacusis” and “autism AND auditory perception”. **Selection criteria:** individuals diagnosed with ASD of any age group; available abstract; papers in English, Spanish and Brazilian Portuguese; case series, prevalence and incidence studies, cohort and clinical trials. **Data analysis:** we analyzed studies with individuals diagnosed with ASD of any age group; reference in the title and/or summary of the occurrence of disproportional behavior to sounds, accepting the terms hyper-responsiveness, hypersensitivity and hyperacusis; summary available; papers in English, Spanish and Brazilian Portuguese; series of cases, prevalence and incidence studies, cohort and clinical trials. **Results:** Of the 692 studies resulting from the consultation, 13 studies could achieve the established requirements. **Conclusion:** The term auditory hypersensitivity was the most commonly used to designate disproportional behavior to sounds, followed by hyperacusis. There was no relationship between the terms and the respective research tool, and the questionnaires were the most used to designate the referred behavior, whose reported frequency was from 42.1% to 69.0%. The auditory behavior tests when performed showed the involvement of the auditory, afferent and efferent neural pathways.

Trabalho realizado no Departamento de Neurociências e Ciências do Comportamento, Faculdade de Medicina de Ribeirão Preto – FMRP, Universidade de São Paulo – USP - Ribeirão Preto (SP), Brasil.

¹ Departamento de Neurociências e Ciências do Comportamento, Faculdade de Medicina de Ribeirão Preto – FMRP, Universidade de São Paulo – USP - Ribeirão Preto (SP), Brasil.

² Departamento de Ciências da Saúde, Faculdade de Medicina de Ribeirão Preto – FMRP, Universidade de São Paulo – USP, Ribeirão Preto (SP) - Brasil.

Fonte de financiamento: Conselho Nacional de Desenvolvimento Científico e Tecnológico (CNPq) [número do financiamento: 147889/2016-2].

Conflito de interesses: nada a declarar.



Este é um artigo publicado em acesso aberto (Open Access) sob a licença Creative Commons Attribution, que permite uso, distribuição e reprodução em qualquer meio, sem restrições desde que o trabalho original seja corretamente citado.

INTRODUÇÃO

A literatura caracteriza o Transtorno do Espectro do Autismo (TEA) como um contínuo de alterações na comunicação social, com manifestações heterogêneas que afetam o desenvolvimento com diferentes níveis de gravidade, acarreta prejuízos precoces na socialização e comunicação, bem como comportamentos e interesses restritos e estereotipados^(1,2). Os distúrbios como a hipo e a hiper-responsividade sensorial sempre foram frequentes na população com TEA, porém apenas a partir da quinta edição do Manual de Diagnóstico e Estatísticas dos Transtornos Mentais (DSM-5) estes foram relatados como manifestações comuns⁽³⁻⁶⁾.

Os estudos que investigam os distúrbios sensoriais auditivos no TEA apresentam duas vertentes. A primeira é voltada à melhor compreensão dos mecanismos de escuta temporal e de percepção de fala no ruído^(7,8); a segunda destina-se à análise da resposta a determinado estímulo acústico, caracterizado por um comportamento desproporcional em função das características sonoras (CDS)⁽⁹⁾.

Na primeira vertente, os estudos mostraram que sujeitos com TEA apresentaram respostas mais longas à percepção de variações temporais dos estímulos acústicos, assim como resultados inferiores em condições de escuta frente ao ruído⁽⁸⁾. Estes resultados caracterizam a presença do transtorno de processamento auditivo⁽¹⁰⁾, entidade clínica que também é comumente descrita em outras condições que afetam o desenvolvimento, como dislexia, distúrbio específico de linguagem, disfluência, déficit do transtorno de atenção e hiperatividade, entre outras^(11,12). É importante ressaltar que os testes comportamentais da avaliação do processamento auditivo exigem do sujeito avaliado a compreensão das instruções do teste e sua cooperação, resposta motora e/ou verbal, dependendo do teste, que exige o “timing” preciso da resposta⁽¹⁰⁾, habilidades estas que estão prejudicadas no TEA.

A segunda vertente busca caracterizar, entender e investigar a ocorrência do CDS, que é nomeado com diferentes termos, sendo as mais comuns hipersensibilidade auditiva (HSA)^(8,13) e hiperacusia (HPA)⁽¹⁴⁻¹⁷⁾. A existência da divergência na nomenclatura para designar o CDS no TEA já foi observada e ponderada anteriormente^(9,18), assim como as repercussões que tais designações geram no conflito da informação para a forma como foram estudadas⁽⁹⁾. De fato, Tyler et al.⁽¹⁹⁾ já chamaram atenção para o fato de que estas terminologias na área da ciência da audição não são sinônimas.

A HSA refere-se teoricamente aos limiares de sensibilidade melhores que os considerados como “normais”, sendo esta impossível de ser mensurada, ou seja, pesquisada⁽¹⁹⁾. Os limiares auditivos considerados como adequados, sem perda auditiva, variam de -10 a +15, 20 ou 25 dB NA, dependendo da idade e do critério adotado⁽²⁰⁻²²⁾, baseado nas recomendações de calibração do instrumento de medição^(23,24). Estudos que investigaram comparativamente a sensibilidade auditiva (limiares tonais) em sujeitos com e sem TEA, todos sem perda auditiva, revelaram que as diferenças encontradas entre as duas populações é insignificante^(13,15).

A HPA, por sua vez, refere-se à queixa de incômodo e/ou irritabilidade frente a determinado som ou sons, em que outras pessoas que compartilham o mesmo ambiente e exposição sonora não relatam o mesmo⁽⁹⁾. O uso de questionários/inventários específicos, padronizados e validados⁽²⁵⁻²⁷⁾ pode auxiliar na identificação da população de risco para HPA; entretanto, atualmente, o teste padrão ouro para sua identificação é o limiar psicoacústico de desconforto, que, nesta condição, ocorre em uma intensidade menor que o usual⁽¹⁹⁾. Este mesmo teste já foi recomendado como ferramenta útil para a população com TEA⁽¹⁸⁾, pressupondo assim que o CDS no TEA pode-se configurar na HPA.

Leekam et al.⁽²⁸⁾ relataram que os distúrbios sensoriais chegam a acometer até 90,0% dos sujeitos com TEA. Segundo os mesmos autores, o distúrbio sensorial auditivo apresenta menor frequência que o visual e o proprioceptivo, mas é interessante observar que enquanto a ocorrência destas duas últimas modalidades aumentou de frequência em função da gravidade do TEA, a auditiva se manteve estável⁽²⁸⁾. A ocorrência do CDS no TEA é heterogênea, entre 16,2% e 69,0%, se computadas as diferentes terminologias HSA, HPA e hiper-responsividade (HRA)^(8,13,14,29). É importante observar que a literatura descreve a ocorrência da HPA em 1,9 a 9,2% dos adultos e idosos⁽³⁰⁾, e em 3,4% da população infantil, todos sem TEA⁽²⁶⁾.

Os mecanismos fisiopatológicos da HPA, independentemente da população acometida, ainda não são totalmente conhecidos, nem dos CDS nos TEA. Existem algumas hipóteses para a HPA, sendo três delas as mais frequentes. A primeira diz respeito à plasticidade homeostática do Sistema Nervoso Central, que é responsável pela precisão da codificação neural, por meio da regulação e da adaptação dos diferentes estímulos sonoros aos quais os indivíduos são expostos^(31,32). A segunda refere-se à reorganização tonotópica nas áreas primárias após danos nos receptores, sendo que neste processo haveria um aumento de representação de determinadas frequências, acarretando em desconforto auditivo^(33,34). A terceira hipótese está relacionada a uma falha na modulação das fibras eferentes do sistema olivococlear, que se projetam à cóclea, especificamente às células ciliadas externas, que são responsáveis pela regulação da amplificação do som⁽³⁵⁾.

A falta de homogeneização na terminologia para designar o CDS no TEA já foi apontada anteriormente⁽⁹⁾. O uso de diferentes terminologias para designar uma manifestação frequente na respectiva condição não permite identificar a ferramenta, o método, o contexto e o comportamento observado. Não permite ao leitor identificar se elas se referem ao sintoma e/ou ao sinal clínico, o que influencia no pouco conhecimento sobre o comportamento característico do TEA.

OBJETIVOS

A presente revisão tem por objetivo elucidar como o uso das principais terminologias para caracterizar os CDS no TEA se relacionam com os respectivos instrumentos de investigação. Também objetiva-se descrever a ocorrência do fenômeno e os desfechos dos respectivos mecanismos envolvidos nesta resposta.

Estratégia de pesquisa

Os artigos aqui estudados foram selecionados a partir de buscas nas bases de dados: PubMed, PsycINFO, Web of Science, Scielo e Lilacs. Para a realização da busca dos trabalhos, foram utilizados os seguintes descritores: “autism”, “hyperacusis” e “auditoryperception”, com as seguintes combinações: “autism AND hyperacusis” e “autism AND auditoryperception”, sem limite inferior de data e com publicação até setembro de 2017. A seleção dos descritores utilizados no processo de revisão foi efetuada mediante consulta aos descritores em ciência da saúde.

Crítérios de seleção

As referências resultantes da busca foram analisadas segundo os critérios de inclusão estabelecidos, a saber: sujeitos com diagnóstico de TEA de qualquer faixa etária; referência no título e/ou resumo do CDS, aceitando os seguintes termos HRA, HSA e HPA; resumo disponível; Artigos em inglês, espanhol e português brasileiro; série de casos, estudos de prevalência e incidência, coorte e ensaios clínicos. Os artigos selecionados foram lidos na íntegra e o passo seguinte foi excluir aqueles que não apresentaram no método o instrumento utilizado para identificação da ocorrência do CDS ou aqueles que estudaram os distúrbios sensoriais, porém não especificaram as modalidades. As etapas do referido processo estão apresentadas no Fluxograma (Figura 1).

Análise dos dados

O estudo foi conduzido por dois dos autores, de forma independente e, posteriormente, os dados coletados foram confrontados. Na existência de incompatibilidade no dado coletado, um terceiro profissional foi convidado para que houvesse um senso comum. As perguntas da pesquisa foram: forma (e.g. questionamento aos parentes, questionários/inventários/teste) para obtenção da informação do CDS; o termo utilizado; realização ou não de teste auditivo, se sim, quais; e os resultados.

Avaliação da qualidade do estudo

Com o objetivo de caracterizar o nível de evidência dos trabalhos, foi empregada a Newcastle-Ottawa Scale⁽³⁶⁾, que analisa três categorias principais: seleção da amostra, a comparabilidade dos dois grupos e como o desfecho é mensurado. O escore total pode variar de 1 a 10, em que a pontuação maior ou igual a seis, segundo a proposta da escala, é indicadora de qualidade.

RESULTADOS

A partir dos descritores, foram obtidos 692 trabalhos, os quais, após análise pelos critérios de inclusão e exclusão, resultaram em 13 estudos, correspondendo a 1,8% (13/692) da amostra inicial. Na Tabela 1, estão apresentados os trabalhos selecionados com os respectivos termos utilizados para designar o CDS, os instrumentos de investigação, assim como os principais resultados. Nesta seção, os 13 trabalhos serão referenciados pela ordem cronológica de publicação e não pelos autores.

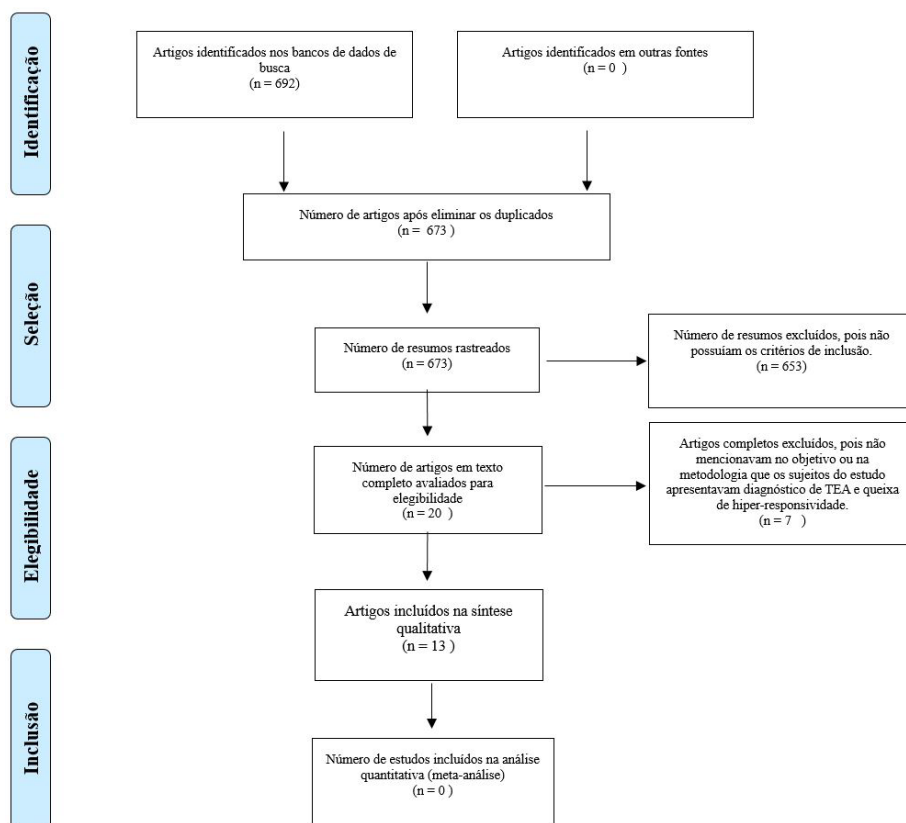


Figura 1. Etapas da Revisão Sistemática

Tabela 1. Terminologia utilizada, casuística, instrumento de avaliação do sintoma, exames e testes realizados, e principais resultados dos artigos selecionados

Autor/ Terminologia	Casuística (n) e faixa etária	Instrumento de investigação do sintoma	Exames/testes realizados	Principais resultados
1 Khalifa et al. (2004) ⁽²⁵⁾ HPA	GTEA=11 GC=11 9-17 anos	Questionamento aos parentes	Auditiva – psicoacústica	- limiares para tons puros sem diferença entre os grupos - GTEA apresentou medidas de limiares de desconforto e campo dinâmico da audição, menores que o GC - HPA em 63,0% no GTEA vs. 27,0% GC - O campo dinâmico da audição foi menor em 4 e 8 kHz, independentemente do grupo
2 Danesh e Kaf (2012) ⁽¹⁶⁾ HSA	GTEA = 18 GC = 12 6-14 anos X = 8 anos	Não utiliza	1. Emissões Otoacústicas Evocada resposta sensorial – orelha interna 2. Efeito Inibitório das emissões otoacústica resposta sensorio-neural/subcortical	- GTEA apresentou menores amplitudes de resposta que o GC - GTEA apresentou valores menores do efeito de supressão que o GC e eles foram maiores para a orelha esquerda do que para a direita - Quanto menor a idade maior o valor de supressão, sem diferenças entre as idades em cada um dos grupos
3 Matsuzaki et al. (2012) ⁽³⁷⁾ HSA	GTEA = 18 anos X = 9 GC = 12 anos X = 10	<i>Infant/Toddler Sensory Profile (Dunn, 2002)</i> ⁽³⁸⁾	Auditiva – Magnetoencefalografia	- o escore do questionário definiu a presença de HSA e subdividiu o GTEA em com e sem HSA - As medidas de amplitude das componentes M50 e M100 não foram diferentes entre os grupos, independentemente do escore do questionário - Latência da M50 houve diferença apenas entre o GTEA com HSA quando comparado com o GC - Latência da M100, houve diferença entre os três grupos GTEA com HSA > GTEA sem HSA > GC
4 Thabet e Zaghloul (2013) ⁽³⁹⁾ HSA	GTEA=14 GC=15 2,7- 8 anos X= 3 ± 1 anos	Relato informal de parentes	1. PEATE resposta neural – subcortical 2. Imagem – Tomografia de orelha interna	- limiar eletrofisiológico sem diferença entre os grupos - Latências absolutas das componentes I e III e latências interpícos I – III, sem diferenças entre os grupos - Latência absoluta da componente V do GTEA precoce e intervalos III – V e I – V com valores menores que o GC - 29% do GTEA apresentou imagens compatíveis com deiscência dos canais semicirculares
5 Bhatara et al. (2013) ⁽⁷⁾ HSA	GTEA=17 GC=17 X=10-14 anos	1. <i>Sensory Profile (Dunn, 1999)</i> ⁽⁴⁰⁾ 2. <i>Adolescent/adult sensory profile (Dunn, 2002)</i> ⁽³⁸⁾	Auditiva – psicoacústica	- Adolescentes com TEA apresentaram maiores pontuações no perfil sensorial do que o grupo neurotípico - O grupo com TEA necessita de uma relação sinal ruído maior do que o grupo controle para compreender as palavras no teste de fala com ruído - Grupo com TEA: prejudicada discriminação de frequências
6 Bhatara et al. (2013) ⁽⁴¹⁾ HSA	GTEA=33 GC=35 10-19 anos	1. <i>Salk and McGill Musical Inventory</i>	Não utilizou	- Os adolescentes com TEA (68%) apresentaram hipersensibilidade auditiva na infância com maior frequência do que no grupo controle (17%). - Mesmo com a hipersensibilidade, o interesse pela música nos indivíduos com TEA foi o mesmo do grupo controle - O desempenho verbal e o QI não prevêem a hipersensibilidade auditiva, assim como a idade cronológica também apresentou uma correlação negativa à hipersensibilidade.

Legenda: HSA=hipersensibilidade auditiva; QI=coeficiente de inteligência; HRA=hiper-responsividade auditiva; HPA=hiperacusia; GTEA=grupo com Transtorno do Espectro Autista; GC= grupo controle; PEATE=potencial evocado auditivo de tronco encefálico; VEMP=vestibular evoked myogenic potential; PEALL=potencial evocado auditivo de longa latência; TEA=transorno do espectro autista; EOAT=emissão otoacústica evocada auditiva transiente

Tabela 1. Continuação...

7	Autor/ Terminologia	Casuística (n) e faixa etária	Instrumento de investigação do sintoma	Exames/testes realizados	Principais resultados
	Thabet (2014) ⁽⁴²⁾ HSA	GTEA=14 GC=15 2-4 anos	Não consta	Não utilizou	<ul style="list-style-type: none"> - Grupo estudo: aumento de amplitude da VEMP em cinco sujeitos - A VEMP demonstrou capacidade diagnóstica na diferenciação da hipersensibilidade causada pela síndrome da deiscência do canal semicircular ou por atípico desenvolvimento cortical.
8	Matsuzaki et al. (2014) ⁽⁴³⁾ HSA	GTEA=21 GC=15 X= 9 anos ± 1	1. <i>Infant/Toddler-Sensory Profile (Dunn, 2002)</i> ⁽³⁸⁾	Magnetoencefalografia	<ul style="list-style-type: none"> - Grupo com TEA e hipersensibilidade auditiva mostrou respostas com latências (M50/ M100) mais prolongadas do que os outros grupos; - A latência mostrou-se significativamente relacionada com a severidade da hipersensibilidade auditiva
9	Donkers et al. (2015) ⁽⁴⁴⁾ HRA	GTEA=29 GC=30 4-12 anos	<ol style="list-style-type: none"> 1. <i>The Sensory the Tactile Defensiveness</i> 2. <i>Discrimination Test-Revised</i> 3. <i>Sensory Processing Assessment for Young</i> 4. <i>Sensory Experiences Questionnaire</i> 5. <i>Sensory Profile</i> 	PEALL resposta neural – subcortical e cortical	<ul style="list-style-type: none"> - Foi observada para sons padrões, a relação entre a onda P1 e N2: respostas de P1 maiores e N2 atenuada, hiper-responsividade auditiva mais severa. - P1 atenuada e N2 atenuada, hiper-responsividade mais leve.
10	Danesh et al. (2015) ⁽²⁹⁾ HRA	GTEA=55 4-42 anos X= 17	1. <i>Hyperacusis Questionnaire (Khalifa et al., 2002)</i> ⁽⁴⁵⁾	Não utilizou	<ul style="list-style-type: none"> - 69% dos sujeitos relataram hiperacusia - 35% relataram zumbido - Maior prevalência de hiperacusia e zumbido na população com TEA do que na população em geral.
11	Green et al. (2015) ⁽⁴⁶⁾ HRA	GTEA=19 GT = 19 9-17 anos X = 14	<ol style="list-style-type: none"> 1. <i>Short Sensory Profile</i>. 2. <i>Sensory Over-Responsivity Scales (SORS)</i> 	Ressonância funcional	<ul style="list-style-type: none"> - Não houve diferença de ativação de atividade entre os grupos para a estimulação auditiva, mas houve para a tátil, e para a estimulação concomitante, o GTEA apresentou maior resposta que o GC. - Houve correlação positiva entre o escore da SORS e a ativação das áreas corticais. - Não houve diferença entre os grupos para o início da habituação, mas uma vez iniciado o processo, ele foi mais lento no GTEA e no GTEA, e com SOR, ele foi mais lento. im para o tempo Quando comparado ao GC o GTEA apresentou:
12	Dunlop et al. (2016) ⁽⁸⁾ HRA	GTEA=16 20-52 anos GC=31 19-51 anos	1. <i>Auditory Attention and Distress Questionnaire</i>	Auditiva – psicoacústica	<ul style="list-style-type: none"> - Houve diferença significativa entre o limiar de desconforto do GC e do GTEA com hipersensitividade, sendo esse último grupo com menores valores.
13	Wilson et al. (2017) ⁽¹⁷⁾ HPA	GTEA=18 GC=14 10-16 anos	1. <i>Hyperacusis Questionnaire (Khalifa et al., 2002)</i> ⁽⁴⁵⁾	Auditiva – eletroacústica	<ul style="list-style-type: none"> - Correlação positiva entre a gravidade da hiperacusia e a supressão das EOAT. - O efeito de supressão é maior em todas as frequências do GTEA com HPA severa quando comparado ao GTEA sem HPA severa e o GC.

Legenda: HSA=hipersensibilidade auditiva; QI-quociente de inteligência; HRA=hiper-responsividade auditiva; HPA=hiperacusia; GTEA=grupo com Transtorno do Espectro Autista; GC= grupo controle; PEATE=potencial evocado auditivo de tronco encefálico; VEMP=vestibular evoked myogenic potential; PEALL=potencial evocado auditivo de longa latência; TEA=transorno do espectro autista; EOAT=emissão otoacústica evocada auditiva transiente

Instrumentos e terminologias

O uso de questionários padronizados para investigação e caracterização do CDS foi empregado em 69,2% (9/13) dos trabalhos (estudos 3, 5, 6, 8, 9, 10, 11, 12 e 13). O questionário mais frequente foi o *Sensory Profile* (estudo 5), se contabilizadas suas três versões, *Short Sensory Profile* (estudo 11), *Infant/Toddler Sensory Profile* (estudos 3 e 8), *Adolescent/adult Sensory Profile* (estudo 5). Outro questionário que se repetiu foi o *Hyperacusis Questionnaire* (estudos 10 e 13). Os outros 30,8% (4/13) não utilizaram questionários estruturados e em três deles a identificação do CDS foi por meio de relatos dos familiares (estudos 1, 4 e 7).

Dos nove estudos com uso de questionários, apenas 33,3% (3/9) (estudos 6, 10 e 11) os utilizaram como ferramenta exclusiva, enquanto os demais 66,7% (6/9) associaram seu uso a algum teste da função auditiva.

Dos 13 estudos, 76,9% (10/13) investigaram a audição por medidas psicoacústicas e/ou objetivas, com diferentes testes: limiar de desconforto (estudos 1 e 12); emissão otoacústica evocada com e sem efeito de supressão (estudos 2 e 13); magnetoencefalografia (estudos 3 e 8); avaliação comportamental do processamento auditivo (estudos 5 e 12); avaliação eletrofisiológica de curta e longa latência, e o miogênico vestibular (estudos 4, 9 e 7, respectivamente).

A terminologia HSA foi designada em 61,5% (8/13), seguida da HPA 23,1% (4/13) e, por último, o termo HRA em 15,4% (2/13) (Tabela 1).

Não foi observada uma relação entre o uso da terminologia com os instrumentos utilizados para identificação do comportamento de magnitude desproporcional ao som. Por exemplo, a HSA foi identificada com questionários estruturados (estudos 3, 5, 6, 8 e 12), pela queixa dos parentes (estudo 2) e por meio de testes psicoacústicos e/ou eletrofisiológicos (estudos 3, 7 e 8). O mesmo ocorreu para o uso da HPA, que foi estudada com o teste psicoacústico do limiar de desconforto (estudo 1), por questionário específico (estudo 10) e eletroacústico (estudo 13).

Ocorrência do CDS

A ocorrência de comportamento desproporcional para estímulos acústicos independentemente da terminologia variou de 47,4 a 69,0% (estudos 6, 10 e 11). A porcentagem de 47,4% foi apresentada no estudo 11 e refere-se à hiper-responsividade auditiva e visual, ao mesmo tempo. A frequência identificada nos estudos 6 e 10 foi semelhante, 68 e 69%, respectivamente.

Desfecho

A HPA foi especificamente investigada em apenas 15,4% (2/13) dos trabalhos (estudos 1 e 12) e ambos reportaram diferenças significativas do limiar de desconforto e/ou campo dinâmico da audição entre sujeitos com e sem TEA, com os valores do primeiro grupo menores quando comparados aos do segundo. A queixa da HPA foi investigada por meio de questionário específico em dois estudos, 10 e 13.

Os resultados dos estudos dos testes auditivos e vestibulares e suas correspondências quanto ao tipo de teste em relação ao tipo de resposta e mecanismos avaliados (sensoriais vs. neurais)

com as respectivas estruturas correspondentes, estão apresentados na Tabela 1.

Newcastle-Ottawa

Em relação aos critérios da Newcastle-Ottawa para estudos do tipo caso controle, dos 13 trabalhos, 11 deles (84,6%) atingiram o escore total superior a seis, que abrangem os critérios de seleção para constituição dos grupos, comparabilidade entre eles e chances de exposição para a condição estudada (estudos 1, 2, 3, 5, 6, 8, 9, 10, 11, 12, 13). Dentre todos os critérios, um deles foi o menos cumprido, a ausência da avaliação para exclusão do diagnóstico de TEA nos grupos controle (estudos 2, 3, 9, 10, 11).

DISCUSSÃO

A presente revisão sistemática de literatura teve como objetivo identificar uma possível relação entre o uso das terminologias para estudar o CDS no TEA com as ferramentas utilizadas em sua busca. Também foram estabelecidos como objetivos identificar a ocorrência do CDS e o desfecho em relação aos mecanismos fisiológicos envolvidos da mesma.

Com relação aos instrumentos de avaliação do CDS, observou-se que a maioria dos estudos utilizou questionários, porém os questionários utilizados foram diversos^(7,8,17,37-46), sendo que um deles possui diferentes versões em função da idade do sujeito^(38,40) e que, em sua maioria, foram respondidos pelos pais, professores e/ou cuidadores^(7,37,43,44,46).

Essa diversidade pode sugerir a ausência de uma ferramenta padrão ouro na investigação do CDS no TEA, que pode ser justificada por dois aspectos. O primeiro é a heterogeneidade das manifestações do TEA, variando da ausência da interação comunicativa e social à sua presença de maneira funcional; assim, um único instrumento pode ser mais indicado a uma parcela dos sujeitos com a condição, mas não aos demais. O segundo aspecto é voltado para a idade cronológica, pois questionários, mesmo de observação dos responsáveis, devem ser adaptados para contemplar características de cada faixa etária.

A ocorrência do CDS em sujeitos com TEA, nos estudos aqui analisados, está dentro do relatado pela literatura para essa população, embora esta seja extremamente variável, de 18 a 90,0%^(25,29,41,46-50). O interessante é constatar que dois dos estudos, de grupos distintos, apresentaram uma frequência semelhante, 68,0 e 69,0%^(25,29). Outro estudo relatou a ocorrência da queixa em 47,4%, contudo foram computados a hiper-responsividade visual concomitante à auditiva⁽⁴⁶⁾. Se partirmos da similaridade da descrição do CDS com a HPA, as porcentagens do CDS relatadas acima são superiores às de HPA na população pediátrica, sem TEA e/ou perda auditiva, que é de 3,2 a 17,1%^(19,26,51,52).

A HPA foi identificada em apenas dois dos estudos^(8,25), conforme recomendação de especialistas da área^(19,26,31). O resultado demonstrou que as crianças com TEA, por eles estudadas, apresentaram limiares acústicos de desconforto em intensidades mais baixas que as usuais^(8,25).

Os outros estudos que utilizaram testes auditivos para a investigação do CDS no TEA partiram do pressuposto de que o sintoma é mais frequente na condição e tiveram como objetivo a avaliação do envolvimento ou não dos mecanismos do sistema nervoso auditivo central (SNAC)^(8,16,39,42). Dois dos estudos demonstraram que crianças com TEA apresentaram alteração da sincronia neural das vias auditivas, tanto em nível subcortical como cortical^(39,44). Outro estudo⁽⁷⁾ relatou pior escore no teste comportamental de fala no ruído, mecanismo de escuta monótona de baixa redundância que compõe o processamento auditivo^(10,53). Estudos de imagem identificam a atenuação do ruído em detrimento da mensagem verbal como um mecanismo que se inicia nos núcleos cocleares (tronco baixo) e se estende ao colículo inferior (tronco alto) e áreas corticais⁽⁵⁴⁾.

Embora estes resultados descritos acima enfoquem a via auditiva aferente, existe a hipótese de que a HPA, independentemente da população, seja modulada pelo sistema eferente auditivo, principalmente pelo feixe medial olivococlear^(17,54). Esta foi a hipótese estudada por dois dos estudos com TEA, Danesh e Kaf⁽¹⁶⁾ e Wilson et al.⁽¹⁷⁾, que relataram que as crianças com TEA apresentaram valores de respostas para o efeito inibitório coclear (supressão das emissões otoacústicas) menores que as do grupo sem TEA, evidenciando uma falha na modulação sensorio-neural.

Dois estudos foram incluídos na revisão sistemática, sem, no entanto, utilizar testes auditivos, os estudos de Thabet e Zaghoul⁽³⁹⁾ e Thabet⁽⁴²⁾. Os trabalhos partiram da premissa de que os sujeitos com TEA apresentam CDS, denominada por eles de HSA, e este sintoma auditivo é comumente achado em sujeitos com deiscência do canal semicircular (labirinto posterior da orelha interna)⁽³⁹⁾. Partindo deste pressuposto, os autores investigaram o Potencial Evocado Miogênico Vestibular (VEMP) no grupo com TEA, acompanhado de exame de imagem para identificação da deiscência do canal vestibular e, assim, identificaram sua presença no grupo com TEA, encontrada em seis crianças de um total de 14, porém, das seis, cinco tinham HSA⁽⁴²⁾. Em virtude das características anatomofisiológicas da orelha interna, entre labirinto anterior e posterior, os presentes autores julgaram como pertinente a permanência desses dois trabalhos.

Conforme descrito inicialmente, as diferentes metodologias utilizadas nos estudos dificultaram a comparação destes, principalmente com relação aos resultados dos testes e exames audiológicos. Existem indícios de que no CDS no TEA, independentemente da terminologia, há o envolvimento das vias auditivas aferentes neurais subcorticais e corticais, assim como da via eferente.

O fato de não ter sido estipulado limite mínimo de data para a pesquisa na base de dados contribuiu para que, de um total de 692 estudos, apenas 13 deles atendessem aos critérios estabelecidos, que foram, de certa forma, rígidos, mas necessários para os objetivos do trabalho. Mesmo assim, dos 13 selecionados, apenas nove deles utilizaram testes auditivos e seis investigaram o CDS com duas ferramentas distintas, o questionário e pelo menos um teste auditivo. Estes resultados evidenciam a necessidade de mais estudos para que se possa compreender melhor a relação dos resultados dos testes audiológicos nos indivíduos com TEA com CDS.

CONCLUSÃO

O termo HSA foi o mais utilizado para nomear o CDS no TEA, seguido de HPA e HRA, contudo não foi constatada qualquer relação entre os termos e a respectiva ferramenta de investigação. O uso de questionários foi o instrumento mais utilizado para estudo da ocorrência do CDS, que variou de 42,1 a 69,0%. Os testes auditivos, quando realizados, mostraram o envolvimento das vias neurais auditivas, aferente e eferente, na resposta do CDS no TEA. A melhor compreensão do CDS no TEA pode contribuir para intervenções terapêuticas específicas na população com TEA.

REFERÊNCIAS

1. Kanner L. Autistic disturbances of affective contact. *Acta Paedopsychiatr.* 1969;35(4):100-36. PMID:4880460.
2. Frith U, Happé F. Autism spectrum disorder. *Curr Biol.* 2005;19(19):786-90. <http://dx.doi.org/10.1016/j.cub.2005.09.033>. PMID:16213805.
3. Rogers SJ, Hepburn S, Wehner E. Parent reports of sensory symptoms in toddlers with autism and those with other developmental disorders. *J Autism Dev Disord.* 2003;33(6):631-42. <http://dx.doi.org/10.1023/B:JADD.0000006000.38991.a7>. PMID:14714932.
4. O'Riordan M, Passetti F. Discrimination in autism within different sensory modalities. *J Autism Dev Disord.* 2006;5(5):665-75. <http://dx.doi.org/10.1007/s10803-006-0106-1>. PMID:16639532.
5. Ben-Sasson A, Hen L, Fluss R, Cermak SA, Engel-Yeger B, Gal E. A meta-analysis of sensory modulation symptoms in individuals with autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord.* 2009;39(1):1-1. <http://dx.doi.org/10.1007/s10803-008-0593-3>. PMID:18512135.
6. McCormick C, Hepburn S, Young GS, Rogers SJ. Sensory symptoms in children with autism spectrum disorder, other developmental disorders and typical development: a longitudinal study. *Autism.* 2016;5(5):572-9. <http://dx.doi.org/10.1177/1362361315599755>. PMID:26395236.
7. Bhatara A, Babikian T, Laugeson E, Tachdjian R, Sininger Y. Impaired timing and frequency discrimination in high-functioning autism spectrum disorders. *J Autism Dev Disord.* 2013;43(10):2312-28. <http://dx.doi.org/10.1007/s10803-013-1778-y>. PMID:23386117.
8. Dunlop WA, Enticott PG, Rajan R. Speech discrimination difficulties in high-functioning autism spectrum disorder are likely independent of auditory hypersensitivity. *Front Hum Neurosci.* 2016;401(10):401. <http://dx.doi.org/10.3389/fnhum.2016.00401>. PMID:27555814.
9. Baranek GT, Boyd BA, Poe MD, David FJ, Watson LR. Hyperresponsive sensory patterns in young children with autism, developmental delay, and typical development. *Am J Ment Retard.* 2007;12(4):233-45. [http://dx.doi.org/10.1352/0895-8017\(2007\)112\[233:HSPICY\]2.0.CO;2](http://dx.doi.org/10.1352/0895-8017(2007)112[233:HSPICY]2.0.CO;2). PMID:17559291.
10. American Academy of Audiology. American Academy of Audiology Clinical Practice Guidelines: 2010. Diagnosis, treatment and management of children and adults with central auditory processing disorder. Reston: American Academy of Audiology [citado em 2016 Dez 16]. Disponível em: <http://www.audiology.org/resources/documentlibrary/documents/capd>
11. Dawes PL, Bishop DV, Sirimanna T, Bamiou DE. Profile and etiology of children diagnosed with auditory processing disorder (APD). *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2008;72(4):483-9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2007.12.007>. PMID:18262288.
12. Iliadou V, Bamiou DE, Kaprinis S, Kandyli D, Kaprinis G. Auditory processing disorders in children suspected or learning disabilities a need for screening? *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2009;73(7):1029-34. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2009.04.004>. PMID:19427040.
13. Gravel JS, Dunn M, Lee WW, Ellis MA. Peripheral audition of children on the autistic spectrum. *Ear Hear.* 2006;27(3):299-312. <http://dx.doi.org/10.1097/01.aud.0000215979.65645.22>. PMID:16672798.

14. Rosenhall U, Nordin V, Sandström M, Ahlsén G, Gillberg C. Autism and hearing loss. *J Autism Dev Disord.* 1999;29(5):349-57. <http://dx.doi.org/10.1023/A:1023022709710>. PMID:10587881.
15. Tharpe AM, Bess FH, Sladen DP, Schissel H, Couch S, Schery T. Auditory characteristics of children with autism. *Ear Hear.* 2006;27(4):430-41. <http://dx.doi.org/10.1097/01.aud.0000224981.60575.d8>. PMID:16825892.
16. Danesh AA, Kaf WA. DPOAEs and contralateral acoustic stimulation and their link to sound hypersensitivity in children with autism. *Int J Audiol.* 2012;5(4):345-52. <http://dx.doi.org/10.3109/14992027.2011.626202>. PMID:22299666.
17. Wilson US, Sadler KM, Hancock KE, Guinan JJ Jr, Lichtenhan JT. Efferent inhibition strength is a physiological correlate of hyperacusis in children with autism spectrum disorder. *J Neurophysiol.* 2017;118(2):1164-72. <http://dx.doi.org/10.1152/jn.00142.2017>. PMID:28592687.
18. Stiegler LN, Davis R. Understanding sound sensitivity in individuals with autism spectrum disorders. *Focus on Autism and Other Developmental Disabilities.* 2010;25(2):67-75. <https://doi.org/10.1177/1088357610364530>.
19. Tyler RS, Pienkowski M, Roncancio ER, Jun HJ, Brozoski T, Dauman N, et al. A review of hyperacusis and future directions: part I. Definitions and manifestations. *Am J Audiol.* 2014;23(4):402-19. http://dx.doi.org/10.1044/2014_AJA-14-0010. PMID:25104073.
20. Northern JL, Dows MP. Hearing in children. 3rd ed. Filadélfia: Lippincott Williams & Wilkin; 1984. p. 89.
21. International Bureau for Audiophonology. BIAP recommendation 02/1: audiometric classification of hearing impairments [citado em 2017 Abr 9]. Disponível em: <https://www.biap.org/en/recommendation/recommendations-pdf/ct-02-classification-des-deficiences-auditives-1/55-02-1-audiometric-classification-of-hearing-impairments>
22. OMS: Organização Mundial de Saúde. [Internet]. Hearing loss grades and the international classification of functioning, disability and health [citado em 2014 Abr 10]. Disponível em: http://www.who.int/pbd/deafness/hearing_impairment_grades/en/
23. ISO: International Organization for Standardization [Internet]. ISO 8253-1:2010. Acoustics - Audiometric test methods - Part 1: Pure-tone air and bone conduction audiometry. Geneva: ISO.
24. American National Standard Institute. American National Standard specification for audiometers (ANSI S3.6-1996). New York: ANSI; 1996.
25. Khalfa S, Bruneau N, Rogé B, Georgieff N, Veuillet E, Adrien JL, et al. Increased perception of loudness in autism. *Hear Res.* 2004;198(1-2):87-92. <http://dx.doi.org/10.1016/j.heares.2004.07.006>. PMID:15617227.
26. Coelho CB, Sanchez TG, Tyler RS. Hyperacusis, sound annoyance, and loudness hypersensitivity in children. *Prog Brain Res.* 2007;166:169-78. [http://dx.doi.org/10.1016/S0079-6123\(07\)66015-4](http://dx.doi.org/10.1016/S0079-6123(07)66015-4). PMID:17956781.
27. Dauman R, Bouscau-Faure F. Assessment and amelioration of hyperacusis in tinnitus patients. *Acta Otolaryngol.* 2005;5(5):503-9. <http://dx.doi.org/10.1080/00016480510027565>. PMID:16092541.
28. Leekam SR, Nieto C, Libby SJ, Wing L, Gould J. Describing the sensory abnormalities of children and adults with autism. *J Autism Dev Disord.* 2007;37(5):894-910. <http://dx.doi.org/10.1007/s10803-006-0218-7>. PMID:17016677.
29. Danesh AA, Lang D, Kaf W, Andreassen WD, Scott J, Eshraghi AA. Tinnitus and hyperacusis in autism spectrum disorders with emphasis on high functioning individuals diagnosed with Asperger's Syndrome. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2015;79(10):1683-8. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2015.07.024>. PMID:26243502.
30. Paulin J, Andersson L, Nordin S. Characteristics of hyperacusis in the general population. *Noise Health.* 2016;18(83):178-84. <http://dx.doi.org/10.4103/1463-1741.189244>. PMID:27569405.
31. Pienkowski M, Tyler RS, Roncancio ER, Jun HJ, Brozoski T, Dauman N, et al. A review of Hyperacusis and future directions: part II. Measurement, mechanisms, and treatment. *Am J Audiol.* 2014;23(4):420-36. http://dx.doi.org/10.1044/2014_AJA-13-0037. PMID:25478787.
32. Desai NS, Rutherford LC, Turrigiano GG. Plasticity in the intrinsic excitability of cortical pyramidal neurons. *Nat Neurosci.* 1999;2(6):515-20. <http://dx.doi.org/10.1038/9165>. PMID:10448215.
33. McDermott HJ, Lech M, Kornblum MS, Irvine DR. Loudness perception and frequency discrimination in subjects with steeply sloping hearing loss: possible correlates of neural plasticity. *J Acoust Soc Am.* 1998;104(4):2314-25. <http://dx.doi.org/10.1121/1.423744>. PMID:10491696.
34. Moore BCJ, Vinay SN. Enhanced discrimination of low-frequency sounds for subjects with high-frequency dead regions. *Brain.* 2009;132(Pt 2):132524-36. PMID:19036764.
35. Gothelf D, Farber N, Raveh E, Apter A, Attias J. Hyperacusis in Williams syndrome: characteristics and associated neuroaudiologic abnormalities. *Neurology.* 2006;66(3):390-5. <http://dx.doi.org/10.1212/01.wnl.0000196643.35395.5f>. PMID:16476938.
36. Wells GA, Shea B, O'Connell, D, Peterson J, Welch V, Losos M, Tugwell P. The Newcastle-Ottawa Scale (NOS) for assessing the quality of nonrandomized studies in meta-analyses. Ottawa: Ottawa Hospital Research Institute.
37. Matsuzaki J, Kagitani-Shimono K, Goto T, Sanefuji W, Yamamoto T, Sakai S, et al. Differential responses of primary auditory cortex in autistic spectrum disorder with auditory hypersensitivity. *Neuroreport.* 2012;23(2):113-8. <http://dx.doi.org/10.1097/WNR.0b013e32834ebf44>. PMID:22146579.
38. Dunn W. Infant/toddler sensory profile. San Antonio, TX: The Psychological Corporation; 2002.
39. Thabet EM, Zaghoul HS. Auditory profile and high resolution CT scan in autism spectrum disorders children with auditory hypersensitivity. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2013;270(8):2353-8. <http://dx.doi.org/10.1007/s00405-013-2482-4>. PMID:23580033.
40. Dunn W. Sensory profile. San Antonio, TX: The Psychological Corporation; 1999.
41. Bhatara A, Quintin EM, Fombonne E, Levitin DJ. Early sensitivity to sound and musical preferences and enjoyment in adolescents with autism spectrum disorders. *Psychomusicology.* 2013;32(2):100-8. <http://dx.doi.org/10.1037/a0033754>.
42. Thabet EM. Ocular vestibular evoked myogenic potentials n10 response in autism spectrum disorders children with auditory hypersensitivity: an indicator of semicircular canal dehiscence. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2014;271(5):1283-8. <http://dx.doi.org/10.1007/s00405-013-2736-1>. PMID:24100882.
43. Matsuzaki J, Kagitani-Shimono K, Sugata H, Hirata M, Hanaie R, Nagatani F, et al. Progressively increased M50 responses to repeated sounds in autism spectrum disorder with auditory hypersensitivity: a magnetoencephalographic study. *PLoS One.* 2014;9(7):e102599. <http://dx.doi.org/10.1371/journal.pone.0102599>. PMID:25054201.
44. Donkers FC, Schipul SE, Baranek GT, Cleary KM, Willoughby MT, Evans AM, et al. Attenuated auditory event-related potentials and associations with atypical sensory response patterns in children with autism. *J Autism Dev Disord.* 2015;45(2):506-23. <http://dx.doi.org/10.1007/s10803-013-1948-y>. PMID:24072639.
45. Khalfa S, Dubal S, Veuillet E, Perez-Diaz F, Jouvent R, Collet L. Psychometric normalization of a hyperacusis questionnaire. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec.* 2002;64(6):436-42. <http://dx.doi.org/10.1159/000067570>. PMID:12499770.
46. Green SA, Hernandez L, Tottenham N, Krasileva K, Bookheimer SY, Dapretto M. Neurobiology of sensory overresponsivity in youth with autism spectrum disorders. *JAMA Psychiatry.* 2015;72(8):778-86. <http://dx.doi.org/10.1001/jamapsychiatry.2015.0737>. PMID:26061819.
47. Tomchek SD, Dunn W. Sensory processing in children with and without autism: a comparative study using the short sensory profile. *Am J Occup Ther.* 2007;61(2):190-200. <http://dx.doi.org/10.5014/ajot.61.2.190>. PMID:17436841.
48. Schoen SA, Miller LJ, Brett-Green B, Hepburn SL. Psychophysiology of children with autism spectrum disorder. *Res Autism Spectr Disord.* 2008;3(3):417-29. <http://dx.doi.org/10.1016/j.rasd.2007.09.002>.
49. Baranek GT, Berkson G. Tactile defensiveness in children with developmental disabilities: responsiveness and habituation. *J Autism Dev Disord.* 1994;24(4):457-71. <http://dx.doi.org/10.1007/BF02172128>. PMID:7961330.

50. Gomes E, Pedrosa FS, Wagner MB. Auditory hypersensitivity in the autistic spectrum disorder. *Pro Fono*. 2008;20(4):279-84. <http://dx.doi.org/10.1590/S0104-56872008000400013>. PMID:19142473.
51. Rosing SN, Schmidt JH, Wedderkopp N, Baguley DM. Prevalence of tinnitus and hyperacusis in children and adolescents: a systematic review. *BMJ Open*. 2016;6(6):e010596. <http://dx.doi.org/10.1136/bmjopen-2015-010596>. PMID:27259524.
52. Aazh H, McFerran D, Salvi R, Prasher D, Jastreboff M, Jastreboff P. Insights from the first international conference on hyperacusis: causes, evaluation, diagnosis and treatment. *Noise Health*. 2014;16(69):123-6. <http://dx.doi.org/10.4103/1463-1741.132100>. PMID:24804717.
53. Moore DR, Rosen S, Bamiou DE, Campbell NG, Sirimanna T. Evolving concepts of developmental auditory processing disorder (APD): a British Society of Audiology APD special interest group 'white paper'. *Int J Audiol*. 2013;1(1):3-13. <http://dx.doi.org/10.3109/14992027.2012.723143>. PMID:23039930.
54. Basta D, Tzschentke B, Ernst A. Noise-induced cell death in the mouse medial geniculate body and primary auditory cortex. *Neurosci Lett*. 2005;38(1-2):199-204. <http://dx.doi.org/10.1016/j.neulet.2005.02.034>. PMID:15882817.

Contribuição dos autores

ACGFS participou do desenho do estudo, da coleta de dados e da preparação do manuscrito; SZ participou do desenho do estudo, supervisão da coleta de dados e contribuiu com a preparação do manuscrito e correção final; EFF, coordenador do estudo, participou do desenho e da correção final do manuscrito.