

Artigo Original

- Nathália Vescia Bauer¹
- Maria Eduarda Soares Machado² (D
- Maiara Laís Mallmann Kieling Peres² (D)
 - Raphael Machado de Castilhos^{2,3} (D)
 - Maira Rozenfeld Olchik^{1,2,3,4}

Descritores

Doença de Huntingon Fala Disartria Cognição Análise Acústica da Fala

Keywords

Huntington's Disease
Speech
Dysarthria
Cognition
Acoustic Analysis

Endereço para correspondência:

Maira Rozenfeld Olchik
Departamento de Cirurgia e
Ortopedia, Faculdade de Odontologia,
Universidade Federal do Rio Grande
do Sul – UFRGS
R. Ramiro Barcelos, 2492, Santa
Cecília, Porto Alegre (RS), Brasil,
CEP: 90035-003.

E-mail: molchik@hcpa.edu.br

Recebido em: Janeiro 26, 2024 Aceito em: Outubro 05, 2024

Editor: Stela Maris Aguiar Lemos.

Perfil de fala em pacientes com Doença de Huntington: correlações cognitivas, clínicas e sociodemográficas

Speech profile in patients with Huntington's Disease: cognitive, clinical, and sociodemographic correlations

RESUMO

Objetivo: Descrever o perfil de fala na Doença de Huntington (DH), correlacionar com aspectos cognitivos e clínicos, e comparar com controles. **Método:** Foram incluídos indivíduos sintomáticos, com diagnóstico clínico e molecular de DH e controles. Foram obtidos dados clínicos e sociodemográficos. A gravidade foi coletada pela Unified Huntington's Disease Rating Scale (UHDRS). A cognição foi avaliada pelos testes: fluência verbal, dígitos e stroop. A avaliação de fala foi feita por julgamento perceptivo auditivo e análise acústica. **Resultados:** Foram incluídos 7 indivíduos com DH, sendo 4 mulheres, com idade média de 48,86 (±16,03). Destes, 57,15% apresentaram disartria grave, 28,57% moderada e 14,28% leve. Sete controles saudáveis, pareados por sexo e idade, participaram do estudo. As alterações de fala dos indivíduos com DH estão relacionadas com a evolução dos sintomas motores, quanto piores os sintomas motores, pior o desempenho na fala. Com os demais dados clínicos, não houve correlação. Os indivíduos com DH foram significativamente piores comparados ao grupo controle nos subsistemas da fonação (frequência fundamental, tempo de fonação, jitter local, shimmer local), respiração (tempo máximo de fonação) e articulação (speech rate, tempo de fonação na fala espontânea, número de sílabas na fala espontânea, média de duração das sílabas e na duração da fala espontânea, número de sílabas da fala mais afetados foram articulação, fonação e respiração. O perfil de fala está relacionado à progressão dos sintomas motores. A avaliação da fala tem a possibilidade de se configurar como um preditor da progressão da DH.

ABSTRACT

Purpose: To describe speech profiles in individuals with Huntington's Disease (HD), correlate them with cognitive and clinical aspects, and compare them with healthy controls. Methods: Symptomatic individuals with a clinical and molecular diagnosis of HD were included. Seven healthy controls, matched by age and sex, were also included. Clinical and sociodemographic data were obtained from medical records. The Unified Huntington's Disease Rating Scale was used to measure severity. Cognitive data were collected using verbal fluency, symbol digit modalities, and Stroop tests. Auditory perceptual assessments were used to evaluate speech, and acoustic analysis extracted information about the following tasks: sustained vowel /a/, utterances with different intonations, oral diadochokinesis, spontaneous speech, and the repeated diphthong /ju:/. Results: Of the seven individuals with HD, four women with a mean age of 48.86 (±16.03), presented severe (57.15%), moderate (28.57%), and mild (14.28%) dysarthria. Speech impairment in HD case subjects was related to overall motor decline; the worse the motor symptoms, the worse the speech impairment. There was no correlation with the other clinical data or cognition. The case subjects were significantly worse than the control group, specifically regarding the subsystems of phonation (fundamental frequency, phonation time, local jitter, local shimmer), respiration (maximum phonation time) and articulation (speech rate, phonation time in spontaneous speech, number of syllables in spontaneous speech, average duration of syllables and duration of spontaneous speech). Conclusion: In HD subjects, the most affected speech subsystems were articulation, phonation, and respiration. Poor motor speech patterns were associated with overall motor decline. Speech assessments may provide biomarkers that predict HD progression.

Trabalho realizado na Universidade Federal do Rio Grande do Sul – UFRGS e Hospital de Clínicas de Porto Alegre – HCPA - Porto Alegre (RS), Brasil.

- ¹ Curso de Fonoaudiologia, Universidade Federal do Rio Grande do Sul UFRGS Porto Alegre (RS), Brasil.
- ² Programa de Pós-Graduação em Medicina: Ciências Médicas, Universidade Federal do Rio Grande do Sul UFRGS Porto Alegre (RS), Brasil.
- ³ Serviço de Neurologia, Hospital de Clínicas de Porto Alegre HCPA Porto Alegre (RS), Brasil.
- ⁴ Departamento de Cirurgia e Ortopedia, Faculdade de Odontologia, Universidade Federal do Rio Grande do Sul UFRGS Porto Alegre (RS), Brasil.

Fonte de financiamento: Hospital de Clínicas de Porto Alegre - FIPE (GPPG HCPA 2018-0648).

Conflito de interesses: nada a declarar.

Disponibilidade de Dados: Os dados de pesquisa estão disponíveis no corpo do artigo.



Este é um artigo publicado em acesso aberto (Open Access) sob a licença Creative Commons Attribution (https://
creativecommons.org/licenses/by/4.0/), que permite uso, distribuição e reprodução em qualquer meio, sem restrições
desde que o trabalho original seja corretamente citado.

INTRODUÇÃO

A doença de Huntington (DH) é uma doença neurodegenerativa autossômica dominante caracterizada por sintomas neurológicos, psiquiátricos e comportamentais⁽¹⁾. No Brasil, a prevalência não é conhecida. No entanto, um estudo, realizado no estado do Rio Grande do Sul, encontrou prevalência mínima de 1,85/100.000⁽²⁾ inferior ao encontrado em países europeus, mas similar a outros países latino-americanos^(3,4).

A DH é causada pela expansão de uma sequência repetitiva do trinucleotídeo CAG (citosina-adenina-guanina) no exon 1 do gene *HTT*, localizado no braço curto do cromossomo 4 (4p16.3)⁽⁵⁾. Enquanto indivíduos normais apresentam sequências CAG entre 10 e 35 repetições, os afetados pela DH apresentam um alelo com 36 a 60 repetições CAG. Como a DH tem herança autossômica dominante, basta a presença de um alelo com expansão CAG para a doença se manifestar⁽⁶⁾. A idade de início da DH é variável e depende em grande parte do número de repetições CAG⁽⁷⁾. Os indivíduos portadores da mutação tornam-se sintomáticos em média aos 35-44 anos⁽⁸⁾.

Com a progressão da doença, as manifestações cognitivas, tais como perda da capacidade de planejamento, acentuam-se. Inicialmente a perda de memória não é a habilidade cognitiva mais comprometida, mas com a evolução, uma síndrome demencial subcortical por fim estabelece-se, porém, mais recentemente, com exames de imagem, foi possível verificar que o comprometimento subcortical podem causar déficits corticais⁽⁹⁾. Depressão e ansiedade são frequentes e a taxa de suicídio é grande entre indivíduos com HD⁽¹⁰⁾. Um estudo estimou que mais de 25% dos indivíduos com HD tentam o suicídio em algum momento da evolução da doença⁽¹¹⁾.

Nos pacientes com DH, as alterações de fala são frequentes, tendo a disartria uma prevalência de 93 a 100%. Os distúrbios da fala decorrentes de alterações, que afetam os circuitos dos gânglios corticobasais-talamocorticais, causam movimentos involuntários e são amplamente classificados como disartria hipercinética⁽¹²⁻¹⁷⁾. A disartria hipercinética é caracterizada por intervalos prolongados, variável ou reduzida velocidade de articulação, consoantes imprecisas e variações excessivas de intensidade(18-21). Esse tipo de disartria ocorre em 20% dos indivíduos adultos com disartria(22) Hertrich e Ackermann, mostraram aumento da variabilidade acústica e do tempo para início da fala (voice-onset-time), além de prolongamento excessivo de vogais curtas⁽²³⁾. Skodda e colaboradores encontraram um padrão de alteração na fala com redução da velocidade da fala (taxa de articulação), aumento das pausas e grande incapacidade na geração de sílabas únicas⁽²⁴⁾. Já Rusz e colaboradores encontraram flutuação irregular nos tons, interrupção na fonação súbita e articulações mal realizadas. Neste estudo os autores observaram moderada correlação (r = -0,48) entre interrupção súbita da fonação e componentes voluntários da escala Unified Huntington's Disease Rating Scale (UHDRS)⁽²⁵⁾.

A avaliação clínica da disartria tem sido realizada através da análise de parâmetros de fala por meio do julgamento perceptivo-auditivo (JPA), padrão ouro para avaliação da fala⁽²⁶⁾. Provas de repetição de palavras e frases, de análise do discurso e de produções orais pré-estabelecidas são algumas das

tarefas utilizadas na prática clínica, sem que isso pressuponha a aplicação de protocolo específico^(27,28). Para complementar o JPA, temos a avaliação acústica da fala, de fácil aplicação, não invasiva, realizada por meio de softwares e com custo baixo⁽²²⁾. Essas informações podem favorecer o diagnóstico, a comparação entre desempenhos de diferentes pacientes, além de possibilitar a avaliação da evolução de um mesmo paciente^(29,30). Ainda, os dados objetivos da avaliação acústica computadorizada tornaramse opção ao oferecerem informações não percebidas pelo ouvido humano, o que tem aberto espaço para contribuir para estudos de biomarcadores de fala em doenças neurodegenerativas^(31,32).

Até agora, a literatura abordou de forma limitada estudos sobre a fala em pacientes sintomáticos, pesquisas que empreguem variáveis acústicas para todas as bases motoras da fala ou aquelas que tenham analisado o perfil de fala desses pacientes na população brasileira. Dessa forma, esse estudo se propõe a descrever as características de fala em pacientes com DH e correlacionar com aspectos clínicos, cognitivos e sociodemográficos comparando com controles pareados por sexo e idade.

MÉTODO

Trata-se de um estudo transversal.

Participantes

Realizou-se um processo de amostragem por conveniência. Foram convidados a participar do estudo pacientes do ambulatório de neurogenética do Hospital de Clínicas de Porto Alegre (HCPA),Porto Alegre - Rio Grande do Sul. Foram incluídos indivíduos sintomáticos, com diagnóstico clínico e molecular de DH que concordaram em participar do estudo. No grupo controle foram incluídos indivíduos saudáveis da comunidade pareados por idade e sexo com o grupo caso. Foram excluídos, em ambos os grupos, indivíduos menores de 18 anos ou que tivessem história de outros eventos neurológicos prévios, distúrbio sensorial que impossibilita a realização dos testes, doenças sistêmicas e/ou alterações estruturais que afetassem a voz e/ou fala. Projeto aprovado pelo comitê de ética sob número 2019-0648. Todos os participantes assinaram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido.

Dados clínicos e sociodemográficos

Os dados clínicos e sociodemográficos foram coletados do prontuário eletrônico do paciente no registro da consulta médica realizada no mesmo dia da avaliação fonoaudiológica. As variáveis coletadas foram idade, sexo, histórico da doença, idade de início dos sintomas, tempo de diagnóstico, estado neurológico atual do paciente, escolaridade e o número de repetições do alelo CAG expandido.

Avaliação clínica

O protocolo de avaliação clínica dos pacientes foi realizado do Unified Huntington's Disease Rating Scale (UHDRS)⁽³³⁾, que é o instrumento de medida mais utilizado para acompanhar

a evolução dos pacientes com DH^(34,35) É composta de 83 itens divididos em quatro partes:

- a) Escore motor: É calculado a partir do somatório de 31 itens relacionados a diversos aspectos da função motora. Em cada item, há cinco opções, de 0 a 4, sendo que 4 indica maior prejuízo motor.
- b) Escore cognitivo: A capacidade cognitiva é avaliada através de três testes: teste de fluência verbal, Symbol Digit Modalities Test e teste de Stroop. A somatória das respostas corretas nos três testes é calculada. Escores mais altos correspondem à melhor desempenho.
- c) Escore comportamental: A avaliação dos sintomas comportamentais é realizada através do somatório da gravidade e frequência (de 0 a 4, sendo 4 mais grave) em cada item de um questionário composto de várias manifestações neuropsiquiátricas presentes na DH.
- d) Escore funcional: esse escore é divido em três escalas:
 1) Lista de tarefas da vida diária: Para cada item, dá-se 1 ponto quando o paciente ainda é capaz de realizá-lo. No somatório, um escore maior indica menor incapacidade;
 2) Escala de independência: varia de 10 (restrito ao leito) a 100 (sem necessidade de cuidados especiais);
 3) Escala de capacidade funcional total: somatório de cinco aspectos funcionais (emprego, finanças, cuidados com a casa, atividades da vida diária e nível de cuidado). Essa escala varia de 0 a 13, sendo 13 o normal.

Avaliação cognitiva

Bateria de Avaliação Frontal (FAB): composta por tarefas que avaliam questões cognitivas tais como fluência fonêmica, flexibilidade cognitiva, controle inibitório, sensibilidade a interferências. A pontuação máxima de cada subteste é de três pontos (com pontuações mais altas indicando melhor desempenho) e a pontuação total do teste é calculada somando as pontuações dos seis subtestes (pontuação máxima=18). Está validada para o português brasileiro⁽³⁶⁾.

Teste de STROOP (SCWT): tem como objetivo avaliar o controle inibitório e processos de atenção. O teste é composto por uma tarefa de leitura e outra de nomeação de cor e, por fim, pela tarefa de interferência em que o indivíduo precisa ler a cor que a palavra está escrita (cores incongruentes com o escrito). O resultado se dá a partir das três pontuações diretas com base no número de itens preenchidos em cada uma das três folhas de estímulo em 120s. Quanto maior a pontuação, melhor o desempenho do indivíduo⁽³⁷⁾.

Montreal Cognitive Assessment (MoCA): trata-se de um teste de rastreio cognitivo, que avalia funções como apraxia visuoespacial, nomeação, memória, atenção, linguagem, abstração e orientação. Uma pontuação de 26 ou superior é esperado para indivíduos com cognição preservada⁽³⁸⁾.

Teste de símbolos e dígitos (dígitos span): comumente usado para avaliar a velocidade psicomotora, mede a velocidade de processamento, bem como a velocidade motora. O desempenho também é afetado pela atenção, varredura visual e rastreamento e memória de trabalho⁽³⁹⁾.

Avaliação da fala

Coleta de dados

As tarefas foram gravadas por meio do software Audacity, em ambiente com isolamento acústico, utilizando o microfone KARSECT HT-9 com o adaptador Andrea Pure audio USB posicionado a aproximadamente 5 cm da boca do paciente, em sessão única, em ambiente silencioso e sem isolamento acústico, tanto para os pacientes quanto para o grupo controle. As gravações foram amostradas em 44,1 kHz e quantificadas em 16 bits. Ambos os grupos foram solicitados a realizar cinco tarefas seguindo modelo fornecido pelo pesquisador: (a) sustentação da vogal [a], em uma respiração, pelo maior tempo possível; (b) ditongo /iu/ repetido em uma única respiração; (c) diadococinesia /pataka/ o mais rápido possível em uma única respiração; (d) falar a frase "choveu muito neste fim de semana" em entonação afirmativa, interrogativa e exclamativa; (e) fala espontânea respondendo à pergunta "o que você fez hoje desde que acordou?" por 60 segundos.

Julgamento perceptivo auditivo

Este é atualmente o padrão ouro na avaliação da disartria. Três fonoaudiólogos treinados, com pelo menos cinco anos de experiência e cegos para o diagnóstico realizaram o JPA com índice Kappa de concordância ≥ 0,90. Antes dos procedimentos de análise de fala, foram apresentadas e avaliadas diferentes alterações de fala para o treinamento auditivo. Os examinadores ouviram as amostras de fala em ordem aleatória e analisaram os subsistemas da fala (fonação, articulação, respiração, ressonância e prosódia) com base nas dimensões descritas por Duffy, classificando cada um deles como (0) normal, (1) levemente alterado, (2) moderadamente alterado ou (3) gravemente alterado. Posteriormente, o diagnóstico final foi indicado como (0) normal, (1) disartria leve, (2) disartria moderada ou (3) disartria grave.

Análise acústica

A análise acústica da fala foi realizada no Praat⁽⁴⁰⁾ (versão 6.1.55) com *script*⁽⁴¹⁾ para detecção automática dos picos de intensidade. Como o português brasileiro só permite vogais no núcleo da sílaba, contar os picos de intensidade equivale a determinar o número de sílabas. A confiabilidade desse roteiro foi avaliada por De Jong e Wempe⁽⁴¹⁾ comparando os resultados das análises feitas e realizadas manualmente com o *script* do PRAAT utilizado neste estudo. Os parâmetros analisados foram baseados em Rusz et al.⁽⁴²⁾ e Vogel e Maruff⁽⁴³⁾. Para a fonação, as variáveis foram Jitter (rap), Shimmer (local), Frequência Fundamental (F₀ em Hz), desvio padrão de F₀ e relação harmônico-ruído (HNR), medida em vogal sustentada [a]. Para caracterizar a articulação, foram utilizadas as seguintes variáveis, obtidas nas tarefas de diadococinesia (DDK) e fala

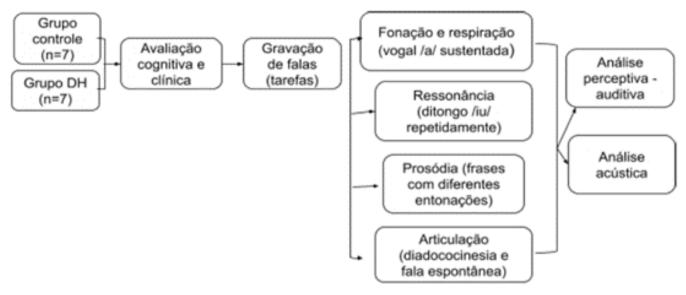


Figura 1. Desenho Experimental

espontânea: número de sílabas, número de pausas, duração total (em segundos), phonation time (duração total menos pausas), phonation rate (phonation time dividido pela duração total), speech rate (número de sílabas dividido pela duração total), articulation rate (número de sílabas dividido pelo phonation time), duração média silábica (ASD) e número de pausas ponderadas pelo tempo total. A razão entre o 2º formante da vogal [i] e o 2º formante da vogal [u] é uma medida de centralização vocálica, que indica uma amplitude reduzida de movimentos articulatórios e é obtida a partir de uma sequência de [iu] repetidos. O tempo máximo de fonação (TMF) foi a tarefa utilizada para análise do subsistema respiratório na fala, pois esta tarefa permite analisar a relação aerodinâmica-mioelástica para fonação, embora não seja uma medida respiratória isolada, uma vez que inclui produção vocal. Quanto à prosódia, a variação de F₀ e a variação de intensidade foram avaliadas durante a produção de uma frase com entonação afirmativa, interrogativa e exclamativa. A variação de F₀, ou seja, a diferença entre os valores máximo e mínimo de F₀, indica a variação melódica e, portanto, a capacidade do locutor de variar a entonação (Figura 1).

Análise estatística

Realizou-se uma análise qualitativa dos dados utilizando intervalos interquartis e mediana. Os dados foram analisados quantitativamente pelo coeficiente de correlação de postos de Spearman. Para a análise de comparação entre os grupos foram feitas as médias, os desvios padrões e aplicado o teste t.

RESULTADOS

Foram incluídos no estudo sete indivíduos, sendo 4 mulheres e 3 homens, pareados por idade e sexo com controles. Na Tabela 1, descrevemos as características clínicas e sociodemográficas da amostra sem diferenças estatisticamente significativas entre os grupos.

Na Tabela 2, analisamos as escalas de gravidade quanto a questões funcionais, comportamentais e de independência (Unified Huntington's Disease Rating Scale) e as escalas cognitivas.

No Quadro 1 foi descrito o julgamento perceptivo auditivo da fala. Todos os indivíduos apresentaram restrição prosódica e imprecisão articulatória, e 6 indivíduos apresentaram incoordenação pneumofonoarticulatória e lentidão.

Na Tabela 3 apresentamos a comparação das variáveis da análise acústica da fala entre casos e controles nos subsistemas: fonação, respiração e prosódia. Os indivíduos com DH foram significativamente piores do que o grupo controle nas variáveis de frequência fundamental, tempo máximo fonatório, *jitter* local, *shimmer* local, variação de frequência fundamental na frase afirmativa, e variação de intensidade nas frases interrogativa e exclamativa.

Na Tabela 4 apresentamos a comparação das variáveis da análise acústica da fala entre casos e controles no subsistema articulação. Os indivíduos com DH foram significativamente piores do que o grupo controle nas variáveis *speech rate*, tempo de fonação na fala espontânea, número de sílabas, média de duração das sílabas e na duração da fala espontânea.

Na Tabela 5, descrevemos as correlações que apresentaram algum grau de significância, entre a fala e os aspectos clínicos.

Tabela 1. Variáveis demográficas e clínicas

Variável	Q1	Mediana	Q3
Idade	40	48	64
Escolaridade	7	9	11
CAGexp	43	47	47
Idade de início	30	45	50
Duração da doença	3	6	9

Legenda: Q1 = primeiro intervalo interquartil; Q3 = terceiro intervalo interquartil; CAGexp = repetições do alelo CAG expandido

Tabela 2. Escalas de gravidade e cognitivas

Variável	Q1	Mediana	Q3
UHDRS motor	30	41	68
UHDRS comportamental	4	11	37
Escala capacidade	8	8	18
Escala de independência	60	70	70
Escala funcional	3	4	5
Fluência verbal fonológica	9,5	11	13
Fluência verbal categórica	6	8	9,5
MoCA	10	12,5	18,5
Símbolos acertos	0,75	8,5	24,25
FAB	4,75	8,5	10,5
Stroop leitura	26	38,5	90,75
Stroop nomeação	27,5	46	88
Stroop interferência	11	12,5	32,5

Legenda: Q1 = primeiro intervalo interquartil; Q3 = terceiro intervalo interquartil; UHDRS = Unified Huntington's Disease Rating Scale; MoCA = Avaliação Cognitiva de Montreal; FAB = Bateria de Avaliação Frontal

Quadro 1. Características de fala pelo julgamento perceptivo-auditivo

1	Sexo	Idade (anos)	Educação (anos)	Tempo de doença (anos)	Idade de início dos sintomas (anos)	Grau de disartria	Características de fala	% Inteligibilidade
HD1	Masculino	64	9	14	50	Grave	Monopitch, monoloudness, restrição prosódica, hipofonia, incoordenação pneumofonoarticulatória, imprecisão articulatória, lentidão	50%
HD2	Feminino	40	11	10	30	Moderado	restrição prosódica, incoordenação pneumofonoarticulatória, imprecisão articulatória, lentidão	60%
HD3	Feminino	48	11	3	45	Leve	restrição prosódica, imprecisão articulatória	75%
HD4	Feminino	54	8	4	50	Grave	monopitch, monoloudness, restrição prosódica, hipofonia, incoordenação pneumofonoarticulatória, imprecisão articulatória, lentidão, prolongamento de fonemas, disfluência	50%

Fonte: Desenvolvido pelo autor

Quadro 1. Continuação...

1	Sexo	Idade (anos)	Educação (anos)	Tempo de doença (anos)	Idade de início dos sintomas (anos)	Grau de disartria	Características de fala	% Inteligibilidade
HD5	Masculino	23	7	7	16	Grave	monopitch, monoloudness, restrição prosódica, hipofonia, incoordenação pneumofonoarticulatória, imprecisão articulatória, lentidão	45%
HD6	Masculino	42	11	6	36	Moderado	Alteração vocal, restrição prosódica, hipofonia, incoordenação pneumofonoarticulatória, imprecisão articulatória, lentidão	50%
HD7	Feminino	71	5	5	66	Grave	restrição prosódica, incoordenação pneumofonoarticulatória, imprecisão articulatória, lentidão, prolongamento de fonemas	45%

Fonte: Desenvolvido pelo autor

Tabela 3. Comparação das variáveis da análise acústica da fala entre caso e controle nas bases motoras da fonação, respiração e prosódia

Base Motora	Variáveis	Caso	Controle	p-valor
Fonação	Jitter local	0,87(±0,49)	0,39(±0,10)	0,04
	Shimmer local	8,47(±4,92)	3,59(±2,72)	0,046
	FF média	215,99(±70,15)	154,53(±43,21)	ns
	FF mínimo	174,45(±63,13)	149,62(±43,04)	ns
	FF máximo	297,78(±108,60)	160,42(±44,13)	0,015
	FF desvio padrão	21,88(±21,24)	1,62(±0,50)	0,045
	HNR	17,32(±7,16)	20,75(±4,23)	ns
Respiração	TMF	5,45(±5,03)	17,22(±4,43)	0,001
Prosódia	Variação de F0 afirmação	221,26(±112,95)	461,62(±176,52)	0,012
	Variação de intensidade afirmação	48,58(±20,37)	30,43(±6,52)	ns
	Variação de F0 interrogativa	194,36(±111,61)	361,67(±197,63)	ns
	Variação de intensidade interrogativa	47,68(±18,73)	29,39(±5,92)	0,042
	Variação de F0 exclamativa	206,93(±132,22)	390,41(±184,24)	ns
	Variação de intensidade exclamativa	47,72(±13,78)	33,03(±9,65)	0,042

Legenda: F2 = frequência do segundo formante; F2i/F2u = frequência do Segundo formante no [i] dividida pela frequência do segundo formante [u] em segundos; FF = frequência fundamental; TMF = tempo máximo de fonação; HNR = relação harmônico-ruído; ASD = duração média das sílabas na fala espontânea; Ns = não significativo estatisticamente.

Tabela 4. Comparação das variáveis da análise acústica da fala entre caso e controle na base motora da articulação

	Variáveis	Caso	Controle	p-valor
Ditongo /iu/ repetidamente	F2I/F2U	2,37(±0,48)	2,52(±0,30)	ns
	Número de sílabas	22,86(±24,15)	48,57(±13,60)	0,035
	Número de pausas	2,00(±2,08)	0,29(±0,76)	Ns
	Duração	6,38(±4,63)	9,65(±2,72)	Ns
Diadococinesia /pa-ta-ka/	Phonation time	5,05(±4,63)	9,55(±2,58)	0,05
	Speech rate	3,39(±1,15)	5,28(±1,60)	0,028
	Articulation rate	4,34(±0,53)	5,30(±1,56)	Ns
	ASD	0,23(±0,03)	0,21(±0,07)	Ns

Legenda: ASD = duração média das sílabas na fala espontânea; Ns = não significativo estatisticamente

Tabela 4. Continuação...

	Variáveis	Caso	Controle	p-valor
	Número de sílabas	76,86(±25,58)	195,29(±36,82)	<0,0001
	Número de pausas	10,43(±2,23)	12,71(±6,60)	ns
	Duração	30,86(±1,77)	59,78(±0,59)	<0,0001
Fala espontânea	Phonation time	17,72(±6,11)	49,98(±5,86)	<0,0001
	Speech rate	2,49(±0,83)	3,27(±0,62)	ns
	Articulation rate	4,44(±0,88)	3,89(±0,48)	ns
	ASD	0,23(±0,05)	0,26(±0,03)	ns

Legenda: ASD = duração média das sílabas na fala espontânea; Ns = não significativo estatisticamente

Tabela 5. Dados correlacionados teste de Spearman

Variáveis	Escolaridade (anos)	CAGexp	Duração (anos)	UHDRS motor
Correlação de Spearman rho (p)				
Grau da disartria no JPA	-0,868 (0,011)	NS	NS	NS
F2i	NS	NS	NS	-0,821 (0,023)
FF máximo	NS	NS	NS	-0,929 (0,003)
HNR	NS	0,852 (0,015)	NS	NS
Diadococinesia				
Número de sílabas	NS	NS	NS	-0,800 (0,031)
Speech rate	NS	NS	NS	-0,857 (0,014)
Fala espontânea				
Número de pausas	NS	NS	NS	NS
Intensidade mínima frase interrogativa	0,778 (0,039)	NS	NS	NS
Intensidade mínima frase exclamativa	NS	NS	NS	-0,893 (0,007)
Variação de intensidade frase exclamativa	NS	NS	0,775 (0,041)	0,929 (0,003)
TMF	NS	NS	NS	-0,893 (0,007)

Legenda: JPA = julgamento perceptivo-auditivo; F2 [i] = frequência do segundo formante no [i]; FF = frequência fundamental máxima; HNR = relação harmônico-ruído; TMF = tempo máximo de fonação; NS = não significativo estatisticamente

DISCUSSÃO

Neste estudo, todos os indivíduos com DH foram diagnosticados com algum grau de disartria, sendo 4 (57,15%) de grau grave, 2 (28,57%) de grau moderado e 1 (14,28%) de grau leve. No julgamento perceptivo auditivo da fala, dentre os parâmetros avaliados, as alterações mais frequentes foram restrição prosódica, imprecisão articulatória, incoordenação pneumofonoarticulatória e lentidão.

Em relação às variáveis acústicas da fala, os indivíduos com DH foram significativamente piores do que o grupo controle na fonação (frequência fundamental, tempo de fonação, *jitter* local, *shimmer* local), respiração (tempo máximo de fonação) e articulação (*speech rate*, tempo de fonação na fala espontânea, número de sílabas na fala espontânea, média de duração das sílabas e na duração da fala espontânea).

A literatura disponível^(21,23,24,28) que aborda sobre a fala na doença de Huntington descreve a linguagem, tendo como exemplo a análise do discurso, e a fala a partir de análise das bases motoras. Observou-se que todos os artigos analisam a fala dos indivíduos nos graus leves da doença e utilizam diferentes softwares para análise perceptivo-auditivas ou análises acústicas. Os estudos descrevem que o perfil de fala

dessa população é caracterizado por tempo de início de fala aumentado, prolongamento de vogais, menor taxa de articulação e de velocidade de fala, presença de interrupções súbitas durante a fonação e imprecisões articulatórias.

Hertrich e Ackermann⁽²³⁾ realizaram avaliação acústica em 13 indivíduos com DH (a maioria em fases mais avançadas) e 12 controles. Os indivíduos com DH mostraram aumento da variabilidade acústica e do tempo para início da fala (voice-onsettime), além de prolongamento excessivo de vogais curtas. Os autores interpretaram esses achados como decorrentes da doença avançada, o que foi congruente com a literatura para patologias degenerativas cerebelares. Em nosso estudo, nos indivíduos com DH observamos um número maior de pausas durante a fala, o tempo de fonação menor bem como a diminuição do número de sílabas por segundo mostrando-nos um perfil semelhante ao estudo mencionado anteriormente mesmo que com um número menor de indivíduos analisados.

Outro estudo avaliou 21 indivíduos com DH (5 anos de duração em média) e 21 controles. Os autores descrevem um padrão de alteração com redução da velocidade da fala (taxa de articulação), aumento das pausas e grande incapacidade na geração de sílabas únicas⁽²⁴⁾. O presente estudo também identificou nos indivíduos com DH a redução na velocidade de fala baseada na taxa de articulação, além disso identificou que o número de pausas

na articulação foi expressivamente maior quando comparado a outros estudos semelhantes. Nossas hipóteses para esses achados incluem a baixa escolaridade da população estudada, assim como alterações cognitivas e linguísticas associadas. Além disso, a idade, a idade de início e o tempo de duração da doença podem exercer influência sobre essas variáveis.

Foram encontradas correlações entre os aspectos clínicos dos sujeitos com DH e o perfil de fala, tais como a relação entre os escores da escala motora e as bases motoras da fala. Dessa forma, verificamos nessa amostra que, quanto pior o sujeito está motoramente, maior o prejuízo em todas as bases motoras da fala. Não houve correlação com o perfil de fala entre as variáveis cognitivas e as outras variáveis clínicas (tempo de doença, idade de início, escala comportamental, funcional e de independência).

Rusz et al. (25), avaliaram 34 indivíduos DH (com duração média da doença de 5,9 anos) e 34 controles. Os autores encontraram flutuação irregular nos tons, interrupção súbita na fonação e imprecisões articulatórias. Nesse estudo, os autores observaram moderada correlação (r = -0,48) entre interrupção súbita da fonação e componentes voluntários da escala UHDRS. Em nosso estudo, encontramos um prejuízo expressivo na taxa de sílabas por segundo, implicando imprecisões articulatórias e variações em jitter e shimmer, comprometendo a fonação.

O estudo de Illes⁽⁴⁴⁾ analisou a fala espontânea em subgrupos de 10 sujeitos com Doença de Huntington, 10 com Doença de Alzheimer (DA) e 10 com Doença de Parkinson (DP). Relata que pacientes com DH apresentam parafasias na fala espontânea bem como redução no uso de frases complexas no momento da fala. Os resultados de Illes colaboram com os achados em nosso estudo visto o tempo de fala espontânea do grupo caso ser expressivamente menor quando comparado ao grupo controle.

Assim como os déficits de linguagem, fluência lexical reduzida e dificuldades de comunicação bastante descrita na literatura, o comprometimento cognitivo na doença de Huntington (HD) também já foi bastante caracterizada em diferentes estágios da doença, com alterações na memória, funções executivas e atenção que podem ser percebidas previamente ao diagnóstico motor^(45,46). As alterações encontradas na nossa amostra estão de acordo com os achados da literatura. Nossos casos tiveram no teste de rastreio MOCA(47) a mediana de 12,5 pontos, estando abaixo do ponto de corte para distinguir controles saudáveis de pacientes com demência (15 pontos) (sensibilidade 90%, especificidade 77%).O mesmo ocorreu com a bateria FAB(48), que avalia funções executivas, uma vez que nossos casos apresentaram uma mediana de 8,5 (conforme Tabela 2) e o ponto de corte é 13,0 (±2,3). As alterações na fluência verbal (tanto semântica como fonológica) encontrada nos pacientes podem também ter impactado na velocidade de fala.

A tarefa de DDK foi citada como importante na identificação de casos neurológicos⁽⁴⁹⁾, uma vez que os indivíduos apresentam menos sílabas por respiração⁽³⁰⁾. A fonação, no desempenho motor oral, incluindo DDK oral (articulação) e na prosódia foram as alterações mais comuns em DH⁽⁵⁰⁾. Contudo, também identificou que as alterações de fala dos indivíduos com DH está diretamente relacionado com a evolução dos sintomas motores, sendo assim, um sinal de alerta para os profissionais encaminharem para avaliação fonoaudiológica visando a intervenção precoce visto

que quanto pior os sintomas motores dos pacientes, maior será o prejuízo em todas as bases motoras da fala.

Em todas as variáveis de fala, os participantes com DH foram piores que os controles. A justificativa da inclusão de controles neste estudo foi fornecer uma referência de comparação, especialmente porque nem todas as variáveis de fala analisadas possuem um ponto de corte ou um padrão de normalidade estabelecido para a população brasileira. Além disso, a amostra sendo uma série de casos a comparação visou assegurar que as diferenças observadas foram em função da condição estudada, e não a outras variáveis externas, como, por exemplo, a escolaridade.

Uma limitação do estudo foi o número pequeno da amostra, uma vez que a DH tem baixa prevalência e foram incluídos indivíduos de somente um centro especializado. Novos estudos com amostras maiores envolvendo mais centros de cuidado e acompanhamento longitudinal de pacientes com DH seriam importantes para estabelecer um perfil de fala desses indivíduos, contribuindo com novas abordagens diagnósticas e terapêuticas.

Assim sendo, o presente estudo nos mostra que indivíduos com DH apresentam prejuízos significativos na articulação, respiração e fonação. Sendo a articulação a base motora com maior prejuízo. Considerando as alterações mencionadas anteriormente, faz-se necessário que o profissional clínico se mantenha atento a estas três bases motoras de fala no momento de avaliação e aplicação de protocolos, visto que poderão apresentar alterações significativas de resultados que definirá o percurso de reabilitação do indivíduo na clínica fonoaudiológica.

CONCLUSÃO

Esta pesquisa identificou que as bases motoras mais afetadas em indivíduos com Doença de Huntington (DH) são articulação, fonação e respiração. Portanto, as tarefas mais indicadas para a avaliação desses indivíduos devem incluir as análises desses subsistemas da fala, sendo essas as áreas de foco prioritárias para a terapia. Além disso, foi observado que o perfil de fala está diretamente relacionado à progressão dos sintomas motores nesses sujeitos. A elaboração de um perfil de fala desses indivíduos pode proporcionar novas abordagens no diagnóstico e reabilitação precoce, contribuindo para uma melhor qualidade de vida. A generalização dos dados apresentados neste estudo não é possível devido ao tamanho da amostra, porém, a avaliação da fala mostra-se como possibilidade de um potencial biomarcador que pode se configurar como um dos preditores da progressão da doença.

AGRADECIMENTOS

Agradecemos ao Hospital de Clínicas de Porto Alegre pelo apoio e financiamento deste estudo através da FIPE (GPPG HCPA 2018-0648).

REFERÊNCIAS

Hayden MR. Huntington's Chorea. Berlin: Springer-Verlag; 1981. http://doi.org/10.1007/978-1-4471-1308-9.

- Castilhos RM, Santos JA, Augustin MC, Pedroso JL, Barsottini O, Saba R, et al. Minimal prevalence of Huntington's disease in the South of Brazil and instability of the expanded CAG tract during intergenerational transmissions. Genet Mol Biol. 2019;42(2):329-36. http://doi.org/10.1590/1678-4685gmb-2018-0032. PMid:31259362.
- Alonso ME, Ochoa A, Boll M-C, Sosa AL, Yescas P, López M, et al. Clinical and genetic characteristics of Mexican Huntington's disease patients. Mov Disord. 2009;24(13):2012-5. http://doi.org/10.1002/mds.22737. PMid:19672992.
- Paradisi I, Hernández A, Arias S. Huntington disease mutation in Venezuela: age of onset, haplotype analyses and geographic aggregation. J Hum Genet. 2008;53(2):127-35. http://doi.org/10.1007/s10038-007-0227-1. PMid:18157708.
- MacDonald ME, Ambrose CM, Duyao MP, Myers RH, Lin C, Srinidhi L, et al. A novel gene containing a trinucleotide repeat that is expanded and unstable on Huntington's disease chromosomes. Cell. 1993;72(6):971-83. http://doi.org/10.1016/0092-8674(93)90585-E. PMid:8458085.
- Andrew SE, Goldberg YP, Kremer B, Squitieri F, Theilmann J, Zeisler J, et al. Huntington disease without CAG expansion: phenocopies or errors in assignment? Am J Hum Genet. 1994;54(5):852-63. PMid:8178825.
- Wexler NS, Lorimer J, Porter J, Gomez F, Moskowitz C, Shackell E, et al. Venezuelan kindreds reveal that genetic and environmental factors modulate Huntington's disease age of onset. Proc Natl Acad Sci USA. 2004;101(10):3498-503. http://doi.org/10.1073/pnas.0308679101. PMid:14993615.
- Caron NS, Wright GEB, Hayden MR. Huntington Disease. In: Adam MP, Feldman J, Mirzaa GM, Pagon RA, Wallace SE, Amemiya A, editors. GeneReviews. Seattle (WA): University of Washington; 2018 [citado em 2019 Set 15]. Disponível em: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/ NBK1305/
- Teixeira AL, Souza LC, Rocha NP, Furr-Stimming E, Lauterbach EC. Revisiting the neuropsychiatry of Huntington's disease. Dement Neuropsychol. 2016;10(4):261-6. http://doi.org/10.1590/s1980-5764-2016dn1004002. PMid:29213467.
- Sokol LL, Troost JP, Bega D, Paulsen JS, Kluger BM, Applebaum AJ, et al. Death anxiety in Huntington Disease: longitudinal heath-related quality-of-life outcomes. J Palliat Med. 2023;26(7):907-14. http://doi.org/10.1089/jpm.2022.0160. PMid:36607769.
- Roman OC, Stovall J, Claassen DO. Perseveration and suicide in Huntington's Disease. J Huntingtons Dis. 2018;7(2):185-7. http://doi.org/10.3233/JHD-170249. PMid:29614688.
- Duffy JR. Motor speech disorders-e-book: substrates, differential diagnosis, and management. St. Louis: Elsevier Health Sciences; 2013.
- Darley FL, Aronson AE, Brown JR. Differential diagnostic patterns of dysarthria. J Speech Hear Res. 1969;12(2):246-69. http://doi.org/10.1044/ jshr.1202.246. PMid:5808852.
- DeLong M, Wichmann T. Changing views of basal ganglia circuits and circuit disorders. Clin EEG Neurosci. 2010;41(2):61-7. http:// doi.org/10.1177/155005941004100204. PMid:20521487.
- DeLong MR, Wichmann T. Circuits and circuit disorders of the basal ganglia.
 Arch Neurol. 2007;64(1):20-4. http://doi.org/10.1001/archneur.64.1.20.
 PMid:17210805.
- Kent RD. Research on speech motor control and its disorders: a review and prospective. J Commun Disord. 2000;33(5):391-427. http://doi.org/10.1016/ S0021-9924(00)00023-X. PMid:11081787.
- Kent RD, Duffy JR, Slama A, Kent JF, Clift A. Clinicoanatomic studies in dysarthria: review, critique, and directions for research. J Speech Lang Hear Res. 2001;44(3):535-51. http://doi.org/10.1044/1092-4388(2001/042). PMid:11407559.
- Darley FL, Aronson AE, Brown JR. Differential diagnostic patterns of dysarthria. J Speech Hear Res. 1969;12(2):246-69. http://doi.org/10.1044/ jshr.1202.246. PMid:5808852.
- Darley FL, Aronson AE, Brown JR. Clusters of deviant speech dimensions in the dysarthrias. J Speech Hear Res. 1969;12(3):462-96. http://doi.org/10.1044/ jshr.1203.462. PMid:5811846.

- Darley FL, Aronson AE, Brown JR. Motor speech disorders. Philadelphia: Saunders: 1975.
- Rusz J, Klempíř J, Tykalová T, Baborová E, Čmejla R, Růžička E, et al. Characteristics and occurrence of speech impairment in Huntington's disease: possible influence of antipsychotic medication. J Neural Transm. 2014;121(12):1529-39. http://doi.org/10.1007/s00702-014-1229-8. PMid:24809686.
- Miller N, Mshana G, Msuya O, Dotchin C, Walker R, Aris E. Assessment of speech in neurological disorders: development of a Swahili screening test. S Afr J Commun Disord. 2012;59(1):27-33. PMid:23409616.
- Hertrich I, Ackermann H. Acoustic analysis of speech timing in Huntington's disease. Brain Lang. 1994;47(2):182-96. http://doi.org/10.1006/brln.1994.1048. PMid:7953613.
- Skodda S, Schlegel U, Hoffmann R, Saft C. Impaired motor speech performance in Huntington's disease. J Neural Transm. 2014;121(4):399-407. http://doi.org/10.1007/s00702-013-1115-9. PMid:24221215.
- Rusz J, Klempíř J, Baborová E, Tykalová T, Majerová V, Cmejla R, et al. Objective acoustic quantification of phonatory dysfunction in Huntington's Disease. PLoS One. 2013;8(6):e65881. http://doi.org/10.1371/ journal.pone.0065881. PMid:23762447.
- Duffy JR. Motor speech disorders: substrates, differential diagnosis, and management. 4th ed. Amsterdam: Elsevier; 2020.
- Hinzen W, Rosselló J, Morey C, Camara E, Garcia-Gorro C, Salvador R, et al. A systematic linguistic profile of spontaneous narrative speech in pre-symptomatic and early stage Huntington's disease. Cortex. 2018;100:71-83. http://doi.org/10.1016/j.cortex.2017.07.022. PMid:28859906.
- Ergun A, Oder W. Oral diadochokinesis and velocity of narrative speech: A
 prognostic parameter for the outcome of diffuse axonal injury in severe head
 trauma. Brain Inj. 2008;22(10):773-9. http://doi.org/10.1080/02699050802372182.
 PMid: 18787987.
- Kent RD, Kim Y-J. Toward an acoustic typology of motor speech disorders. Clin Linguist Phon. 2003;17(6):427-45. http://doi.org/10.1080/02699200 31000086248. PMid:14564830.
- Carrillo L, Ortiz KZ. Análise vocal (auditiva e acústica) nas disartrias. Pró-Fono Rev Atualização Científica. 2007;19(4):381-6. http://doi.org/10.1590/ S0104-56872007000400010.
- Titze IR, Wong D, Milder MA, Hensley SR, Ramig LO. Comparison between clinician-assisted and fully automated procedures for obtaining a voice range profile. J Speech Hear Res. 1995;38(3):526-35. http:// doi.org/10.1044/jshr.3803.526. PMid:7674644.
- 32. Kouba T, Frank W, Tykalova T, Mühlbäck A, Klempíř J, Lindenberg KS, et al. Speech biomarkers in Huntington's disease: A cross-sectional study in pre-symptomatic, prodromal and early manifest stages. Eur J Neurol. 2023;30(5):1262-71. http://doi.org/10.1111/ene.15726. PMid:36732902.
- Kieburtz K, Penney JB, Como P, Ranen N, Shoulson I, Feigin A, et al. Unified Huntington's disease rating scale: reliability and consistency. Mov Disord. 1996;11(2):136-42. http://doi.org/10.1002/mds.870110204. PMid:8684382.
- 34. Winder JY, Achterberg WP, Gardiner SL, Roos RAC. Longitudinal assessment of the Unified Huntington's Disease Rating Scale (UHDRS) and UHDRS-For Advanced Patients (UHDRS-FAP) in patients with late stage Huntington's disease. Eur J Neurol. 2019;26(5):780-5. http://doi.org/10.1111/ene.13889. PMid:30576046.
- Winder JY, Achterberg WP, Marinus J, Gardiner SL, Roos RAC. Assessment scales for patients with advanced Huntington's Disease: comparison of the UHDRS and UHDRS-FAP. Mov Disord Clin Pract. 2018;5(5):527-33. http://doi.org/10.1002/mdc3.12646. PMid:30515443.
- Beato R, Amaral-Carvalho V, Guimarães HC, Tumas V, Souza CP, Oliveira GN, et al. Frontal assessment battery in a Brazilian sample of healthy controls: normative data. Arq Neuropsiquiatr. 2012;70(4):278-80. http:// doi.org/10.1590/S0004-282X2012005000009. PMid:22358310.
- Periáñez JA, Lubrini G, García-Gutiérrez A, Ríos-Lago M. Construct validity
 of the stroop color-word test: influence of speed of visual search, verbal
 fluency, working memory, cognitive flexibility, and conflict monitoring.
 Arch Clin Neuropsychol. 2021;36(1):99-111. http://doi.org/10.1093/arclin/
 acaa034. PMid:32514527.

- Freitas S, Simões MR, Martins C, Vilar M, Santana I. Estudos de adaptação do Montreal Cognitive Assessment (MoCA) para a população portuguesa. Aval Psicol. 2010;9(3):345-57.
- Brody DJ, Kramarow EA, Taylor CA, McGuire LC. Cognitive performance in adults aged 60 and over: national health and nutrition examination survey, 2011-2014. Natl Health Stat Report. 2019;(126):1-23. PMid:31751207.
- Boersma P, Weenink D. Praat: doing phonetics by computer [software].
 Amsterdam: University of Amsterdam; 2024 [citado em 2019 Set 15].
 Disponível em: http://www.praat.org/
- De Jong NH, Wempe T. Praat script to detect syllable nuclei and measure speech rate automatically. Behav Res Methods. 2009;41(2):385-90. http:// doi.org/10.3758/BRM.41.2.385. PMid:19363178.
- Rusz J, Cmejla R, Ruzickova H, Ruzicka E. Quantitative acoustic measurements for characterization of speech and voice disorders in early untreated Parkinson's disease. J Acoust Soc Am. 2011;129(1):350-67. http://doi.org/10.1121/1.3514381. PMid:21303016.
- Vogel AP, Maruff P. Comparison of voice acquisition methodologies in speech research. Behav Res Methods. 2008;40(4):982-7. http://doi.org/10.3758/ BRM.40.4.982. PMid:19001389.
- 44. Illes J. Neurolinguistic features of spontaneous language production dissociate three forms of neurodegenerative disease: alzheimer's, huntington's, and parkinson's. Brain Lang. 1989;37(4):628-42. http://doi.org/10.1016/009 3-934X(89)90116-8. PMid:2479447.
- Paulsen JS. Cognitive impairment in Huntington disease: diagnosis and treatment. Curr Neurol Neurosci Rep. 2011;11(5):474-83. http:// doi.org/10.1007/s11910-011-0215-x. PMid:21861097.
- 46. Maurage P, Heeren A, Lahaye M, Jeanjean A, Guettat L, Verellen-Dumoulin C, et al. Attentional impairments in Huntington's disease: A specific deficit

- for the executive conflict. Neuropsychology. 2017;31(4):424-36. http://doi.org/10.1037/neu0000321. PMid:28240935.
- Cesar KG, Yassuda MS, Porto FHG, Brucki SMD, Nitrini R. MoCA Test: normative and diagnostic accuracy data for seniors with heterogeneous educational levels in Brazil. Arq Neuropsiquiatr. 2019;77(11):775-81. http://doi.org/10.1590/0004-282x20190130. PMid:31826133.
- Beato RG, Nitrini R, Formigoni AP, Caramelli P. Brazilian version of the Frontal Assessment Battery (FAB): preliminary data on administration to healthy elderly. Dement Neuropsychol. 2007;1(1):59-65. http:// doi.org/10.1590/S1980-57642008DN10100010. PMid:29213369.
- Kent RD, Kim Y, Chen LM. Oral and laryngeal diadochokinesis across the life span: a scoping review of methods, reference data, and clinical applications. J Speech Lang Hear Res. 2022;65(2):574-623. http:// doi.org/10.1044/2021 JSLHR-21-00396. PMid:34958599.
- Hartelius L, Carlstedt A, Ytterberg M, Lillvik M, Laakso K. Speech disorders in mild and moderate Huntington disease: results of dysarthria assessments of 19 individuals. J Med Speech-Lang Pathol. 2003;11(1):1-14.

Contribuição dos autores

NVB participou da coleta dos dados, tabulação dos dados e redação do manuscrito; MESM participou da análise dos dados de fala, interpretação dos dados de fala e escrita do artigo; MLMKP participou da análise dos dados de fala, interpretação dos dados de fala e escrita do artigo; RMC participou da idealização do estudo, análise estatística, interpretação dos dados e revisão final do manuscrito; MRO participou, na condição de orientadora, da idealização do estudo, interpretação dos dados e redação do artigo.