

INSTRUMENTOS DE MEDIDAS PARA CRIANÇAS E ADOLESCENTES COM SÍNDROME DE DOWN: UMA REVISÃO SISTEMÁTICA

Outcome measures for children and adolescents with Down syndrome: a systematic review

RESUMO: Esta revisão sistemática tem como objetivo identificar os instrumentos de medidas disponíveis na literatura para a avaliação de crianças e adolescentes com síndrome de Down durante o processo de reabilitação fisioterápica e analisar o atual nível de evidência das propriedades psicométricas desses instrumentos. Para isso, dois avaliadores independentes buscaram estudos metodológicos que analisaram instrumentos de medida em indivíduos com síndrome de Down nas bases de dados Medline, Lilacs e Scielo. Foram selecionados sete estudos os quais foram avaliados, quanto a sua qualidade metodológica, utilizando os critérios do COSMIN. Os estudos investigaram seis instrumentos de medidas em crianças e adolescentes com Síndrome de Down. Destes instrumentos; quatro avaliaram funções motoras grossas (Basic Motor Skills, Gross Motor Function Measure, Timed Up and Go e Timed Up and Down Stairs) e dois equilíbrio (Four Square Step Test e Timed Standing Balance Test). Os instrumentos foram avaliados quanto qualidade das propriedades de medida e classificação do nível de evidência. O nível da evidência dos instrumentos variou de desconhecido a excelente, dependendo da propriedade de medida de cada instrumento. Portanto, os resultados sugerem que a escolha e administração destes instrumentos em crianças e adolescentes com síndrome de Down deve ser feita com cautela.

Palavras-chave: Síndrome de Down. Avaliação de resultados. Psicometria. Revisão.

ABSTRACT: This systematic review aimed to identify available instruments for the assessment of children and adolescents with Down syndrome during the physical therapy rehabilitation. It also aimed to analyze the state of evidence for the psychometric properties of these instruments. Two independent examiners searched for methodological studies, which investigated the administration of different instruments in individuals with Down syndrome on the databases Medline, Lilacs and Scielo. Seven studies were selected for this review. The methodological quality of the selected studies was assessed using the COSMIN criteria. The selected studies investigated six instruments in children and adolescents with Down syndrome; four assessed gross motor skills (Basic Motor Skills, Gross Motor Function Measure, Timed Up and Go, and Timed Up and Down Stairs) and two assessed balance (Four Square Step Test and Timed Standing Balance Test). The quality of psychometrics properties and the level of evidence of the instruments were assessed by two independent examiners. The level of evidence varied from unknown to excellent, depending of instrument's psychometric properties. The choice and administration of these instruments in children and adolescents with Down syndrome must be made with caution.

Keywords: Down syndrome. Outcome assessment. Psychometrics. Review.

Ana Paula Bensemann Gontijo¹
Ricardo Rodrigues de Sousa Junior²
Adriana Lara Mesquita³
Lanna Nicolau Teixeira³
Thaís Gonçalves Lara³

1- PhD, Professora Adjunta, Departamento de Fisioterapia, Escola de Educação Física, Fisioterapia e Terapia Ocupacional, Universidade Federal de Minas Gerais

2-Mestrando, Fisioterapeuta, Programa de Pós-Graduação em Ciências da Reabilitação, Escola de Educação Física, Fisioterapia e Terapia Ocupacional, Universidade Federal de Minas Gerais

3-Graduanda em Fisioterapia, Escola de Educação Física, Fisioterapia e Terapia Ocupacional, Universidade Federal de Minas Gerais.

E-mail: paulabensemann@gmail.com

Recebido em: 26/04/2018

Revisado em: 20/05/2018

Aceito em: 07/06/2018

INTRODUÇÃO

Instrumentos padronizados de medida são essenciais para a adequada avaliação do desenvolvimento de crianças com condições crônicas como a síndrome de Down (SD), e para o planejamento e acompanhamento dos resultados das intervenções durante o tratamento fisioterápico¹. Dentro do processo de reabilitação o uso de um adequado instrumento de medida é de suma importância para orientar profissionais da saúde, a família e o próprio paciente quanto ao seu prognóstico, limitações e potencialidades, contribuindo para a tomada decisão clínica²⁻⁴.

Diversos aspectos devem subsidiar a seleção de um instrumento de medida durante o processo de reabilitação fisioterápica: (1) que o instrumento mensure constructos que são relevantes para o paciente e sua família²; (2) que o instrumento aborde um ou mais domínios da Classificação Internacional de Funcionalidade (CIF) - estrutura e função de corpo, atividade e participação- fatores pessoais e contextos ambientais⁵⁻⁷; (3) que o instrumento apresente adequadas índices de validade, confiabilidade e responsividade^{2,8}; (4) que o instrumento seja apropriado para a população de interesse, considerando-se suas particularidades e diferentes condições de saúde^{2,3}.

A SD é uma condição genética causada por alterações cromossômicas envolvendo o par do cromossomo 21, resultando em alterações físicas e mentais⁹. Considerando-se os domínios da CIF, dentre as disfunções observadas a nível de estrutura e função de corpo podemos citar a hipotonia muscular, frouxidão ligamentar, fraqueza

muscular, déficits de equilíbrio e cognitivos; associadas ou não à cardiopatia congênita, disfunções neurológicas, endócrinas, auditivas e visuais^{10,11}. Em relação ao domínio atividade, indivíduos com SD apresentam atrasos na aquisição de habilidades motoras grossas e finas essenciais para um adequado desempenho das atividades de vida diária e, conseqüentemente, para a adequada participação nas atividades escolares e sociais¹².

Diversos instrumentos de medida válidos e confiáveis têm sido utilizados por profissionais da área de reabilitação infantil². No entanto, não foi encontrada na literatura uma revisão sistemática que sumarizasse os instrumentos administrados em crianças e adolescentes com SD e suas propriedades psicométricas. Portanto, o objetivo desta revisão sistemática foi identificar os instrumentos de medidas relacionados a reabilitação fisioterápica que estão disponíveis para a avaliação de indivíduos com SD e analisar o atual nível de evidência das propriedades psicométricas desses instrumentos.

MATERIAIS E MÉTODOS

O presente estudo seguiu o protocolo para realização de revisões de instrumentos de medida do COSMIN (*Consensus-based Standards for the selection of health Measurement Instruments*)¹³.

ESTRATÉGIAS DE BUSCA E SELEÇÃO

As buscas pelos potenciais estudos foram realizadas nas bases de dados Medline, Lilacs e Scielo, no período de Dezembro de 2017 à Fevereiro de 2018. Para isso, foram utilizadas combinações booleanas, através das palavras chave "Down Syndrome", "rehabilitation",

"assessment", "outcome measure", "psychometric", "validity" e "reliability". A busca e seleção foram feitas de forma independente por dois avaliadores utilizando um terceiro, em caso de divergência durante o consenso. As listas de referências foram analisadas para busca de outros possíveis estudos.

CRITÉRIOS DE ELEGIBILIDADE

Foram incluídos estudos metodológicos que avaliaram as propriedades de medida de instrumentos relacionados à avaliação motora de crianças e adolescentes com SD. Foram excluídos aqueles estudos que não avaliaram especificamente indivíduos com SD. Não houve restrição de data ou idioma.

EXTRAÇÃO E SÍNTESE DOS DADOS

A extração e síntese dos dados foram realizadas por dois examinadores de forma independente, utilizando um terceiro em caso de divergência, a fim de registrar as seguintes informações: características das amostras, objetivos dos estudos, propriedades de medida investigadas e principais resultados.

AVALIAÇÃO DA QUALIDADE METODOLÓGICA DOS ESTUDOS

Para avaliação qualidade metodológica dos estudos dois avaliadores independentes utilizaram o checklist COSMIN com a escala de 4 pontos (pobre, razoável, bom e excelente), utilizando um terceiro avaliador em caso de divergência. Este checklist contém 9 domínios independentes para avaliação de estudos metodológicos que investigaram diferentes propriedades psicométricas. O escore final da qualidade metodológica é dado para cada propriedade psicométrica investigada no

estudo considerando a pior pontuação¹³. Para a utilização do checklist, foram seguidas adaptações realizadas por outras revisões na área de reabilitação infantil, desconsiderando os itens do checklist relacionados com o tamanho da amostra e itens perdidos^{1,14}.

AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DAS PROPRIEDADES PSICOMÉTRICAS E CLASSIFICAÇÃO DO NÍVEL DA EVIDÊNCIA

Dois avaliadores independentes realizaram a avaliação da qualidade das propriedades psicométricas e classificação do nível de evidência de cada instrumento dos estudos selecionados, utilizando um terceiro examinador em caso de divergência. A qualidade das propriedades de medida de cada instrumento selecionado foi avaliada de acordo com os critérios propostos por Terwee et al (2007). Cada propriedade de medida do instrumento é classificada em positiva (+), negativa (-) ou indeterminada (?) levando em consideração os resultados dos índices estatísticos¹⁵.

O nível da evidência de cada propriedade de medida dos instrumentos foi classificado em forte, moderado, limitado, conflituo e desconhecido seguindo os critérios de Terwee et al e do Cochrane Back Review Group^{15,16}. Foi levado em consideração a qualidade metodológica dos estudos, a qualidade das propriedades de medida do instrumento e o número de estudos que investigaram as propriedades de medida^{15,17}.

RESULTADOS

A estratégia de busca identificou inicialmente 199 estudos, sendo sete incluídos nesta revisão¹⁸⁻²⁴. O processo de busca e

seleção dos estudos encontra-se detalhado na figura 1 no Diagrama de Seleção de Registros para Revisão Sistemática (PRISMA)²⁵. O sumário das principais informações dos estudos selecionados encontra-se na tabela 1.

Tabela 1. Sumário das Principais Informações dos Estudos Selecionados							
Autor e Ano	Instrumento Estudado	População (n, média de idade e sexo)	Objetivo do Instrumento	Propriedades de Medida Investigadas			
				Validade de Critério	Confiabilidade	Mensurações de Erro	Responsividade
Aranha et al 2016	Timed Standing Balance Test (TSBT)	n: 9 Idade: 13.5 anos (±0.70) 6 M 3F	Avaliar equilíbrio		x	x	
Bandong et al 2015	Four Square Step Test (FSST)	n: 14 Idade: 8.7 anos (±1.9) 5 M 9 F	Avaliar o equilíbrio dinâmico	x	x	x	
Martin et al 2017	Timed Up and Down Stairs (TUDS)	n: 12 Idade: 9.5 (±4.4)	Avaliar a atividade de subir e descer escadas		x	x	
	Timed Up and Go (TUG)	Sexo não informado	Avaliar mobilidade				
Nicolini-Panisson et al 2013	Timed Up and Go (TUG)	n: 40 Idade: 10.6 (±4.4) 16 M 24 F	Avaliar mobilidade	x	x		
Russell et al 1998	Gross Motor Function Measure (GMFM)	n: 123 Idade: 2,39 anos 66 M 57 F	Avaliar função motora grossa		x		x
Van Den Heuvel et al 2009	Basic Motor Skills (BMS)	n: 41 Idade: 2.02 anos (±0.96) 19 M 22 F	Avaliar habilidades motoras				x
Verma et al 2014	Four Square Step Test (FSST)	n: 13 Idade: 12.76 anos (±2.9) 8 M 5F	Avaliar o equilíbrio dinâmico	x	x		

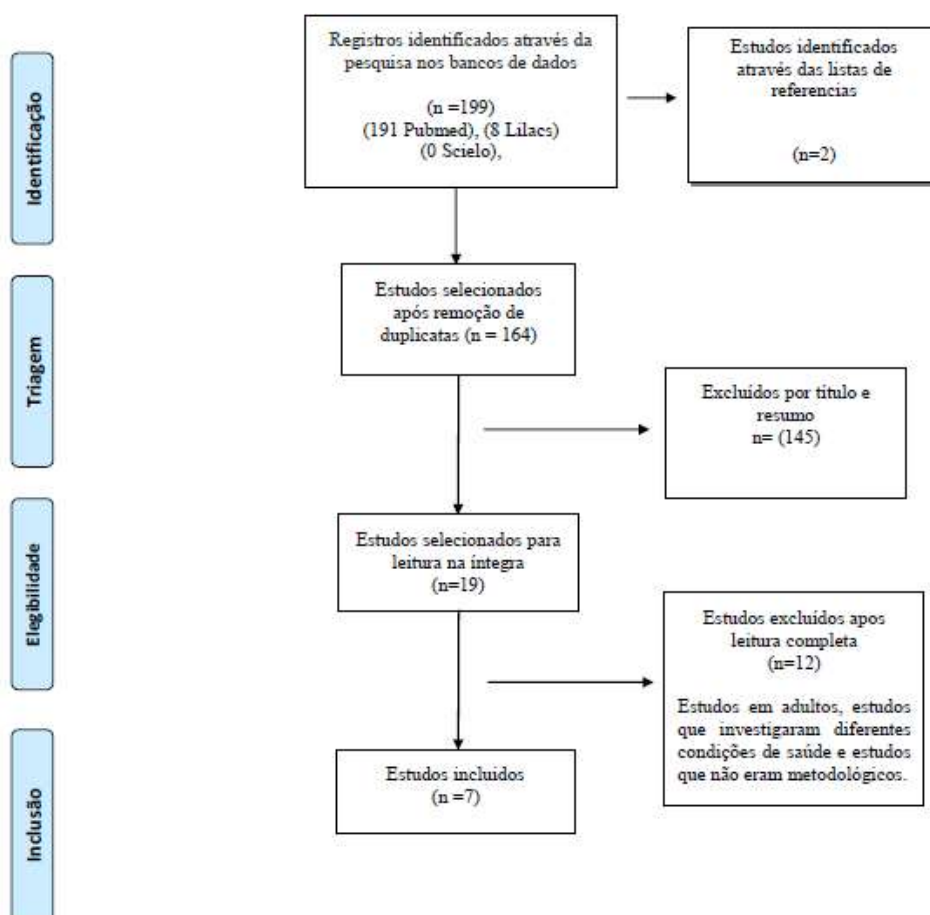


Figura 1-Diagrama PRSIMA- Seleção de Registros Para Revisão Sistemática

A média de idade dos participantes dos estudos incluídos foi 8,49 ($\pm 4,61$). Foram totalizados 252 indivíduos, reportados 120 do sexo feminino e 120 do sexo masculino, com exceção apenas de um estudo que não informou o sexo dos participantes²⁰. Os estudos selecionados utilizaram como critério de exclusão, indivíduos que possuísem déficit visual não corrigido, comprometimento cognitivo grave e que sofreram algum tipo de lesão musculoesquelética nos 6 meses anteriores ao início dos estudos.

DESCRIÇÃO DOS INSTRUMENTOS

Nos estudos selecionados foram analisadas as propriedades psicométricas de 6 instrumentos de medida. No domínio Estrutura e Função do Corpo da CIF, os estudos

selecionados analisaram dois testes de equilíbrio: Timed Standing Balance Test (TSBT) e Four Square Step Test (FSST). No domínio Atividade foram analisados 4 instrumentos de medidas de funções motoras grossas: Basic Motor Skills (BMS), Gross Motor Function Measure (GMFM), Timed Up and Go (TUG) e Timed Up and Down Stairs (TUDS). Nenhum instrumento avaliou o domínio de participação da CIF. Abaixo a descrição dos testes localizados:

INSTRUMENTOS NO DOMÍNIO "ESTRUTURA E FUNÇÃO DO CORPO"

O FSST é um teste de equilíbrio dinâmico que considera, como medida de desfecho, o tempo que o indivíduo realiza a tarefa de transpor obstáculos e de deslocar em quatro diferentes direções²⁶. As crianças realizam três

tentativas, e a pontuação final é dada pela média²⁴. O TSBT é um teste de equilíbrio estático (indivíduo em um só pé no chão) e dinâmico (indivíduo em um só pé sobre uma almofada de espuma). Antes de iniciar o teste pede-se ao participante que ele chute uma bola para identificar a perna dominante. São realizados quatro protocolos: estático com olhos abertos e olhos fechados, dinâmico com os olhos abertos e olhos fechados. Para cada um dos 4 protocolos, são realizadas 3 tentativas com cada perna, com intervalos de 30s e ordem de aplicação aleatória²⁷.

INSTRUMENTOS NO DOMÍNIO "ATIVIDADE"

O BMS é um instrumento de medida desenvolvido para monitorar mudanças nas funções motoras básicas de crianças com SD de 0 a 3 anos de idade. Consiste de 15 itens que mensuram 15 habilidades motoras que foram selecionadas considerando-se o desenvolvimento do controle postural em crianças pequenas com SD. Cada item apresenta entre 4 e 8 subdivisões, apresentadas em uma ordem ordinal. Quanto maior a pontuação, melhor o desempenho motor grosso.²³.

O GMFM-88 é constituído de 88 itens divididos em cinco dimensões: (A) Deitar e Rolar, (B) Sentar, (C) Engatinhar e Ajoelhar, (D) Em Pé e (E) Andar, Correr, Pular. Cada item é pontuado em uma escala de zero a 3, gerando um escore para cada dimensão e um escore total. Escores mais altos informam sobre maior repertório de função motora grossa da criança^{22,28}. O TUDS avalia a quantidade de tempo que os indivíduos despendem em realizar a tarefa de subir e descer 15 degraus com 20 cm de altura, usando o

corrimão. Pode-se subir e descer os degraus alternando ou não os pés, usando ou não o corrimão ou até mesmo, saltitando²⁹. O TUG é um teste no qual a criança sentada em uma cadeira, sem apoio das costas e braços tem que passar para de pé, caminhar por 3 metros e retornar à posição inicial. O tempo de realização do teste é cronometrado e está relacionado à mobilidade funcional³⁰.

QUALIDADE METODOLÓGICA DOS ESTUDOS

A qualidade metodológica foi pontuada de acordo com o COSMIN nas seguintes propriedades de medida: validade concorrente, confiabilidade, mensuração de erro (erro padrão de medida e mudança mínima detectável) e responsividade. A validade de critério tem o objetivo de investigar o quanto um instrumento se relaciona com outro já existente e tido como válido³¹. A confiabilidade indica o quanto o instrumento é consistente em administrações repetidas (confiabilidade teste-reteste) e entre diferentes avaliadores (inter-examinadores). O erro padrão de medida indica a quantidade de erro aleatório presente na pontuação de um instrumento e o índice de mudança mínima detectável (MMD) indica sobre o mínimo de mudança que pode ocorrer além deste erro de medida. A interpretação destes índices é feita utilizando diferentes índices de responsividade^{15,31}. A responsividade de um instrumento indica sobre a capacidade desse em captar mudanças ao longo do tempo³¹. Os resultados da avaliação da qualidade metodológica dos estudos encontram-se na tabela 2.

Tabela 2 - Qualidade Metodológica dos Estudos

Autor e Ano	Instrumentos	Qualidade Metodológica			
		Validade de Critério	Confiabilidade	Mensurações de Erro	Responsividade
Aranha et al 2016	Timed Standing Balance Test (TSBT)		Razoável	Razoável	
Bandong et al 2015	Four Square Step Test (FSST)	Razoável	Pobre	Razoável	
Martin et al 2017	Timed Up and Go (TUG), Timed Up and Down Stairs (TUDS)		Bom	Bom	
Nicolini-Panisson et al 2013	Timed Up and Go (TUG)	Excelente	Pobre		
Russell et al 1998	Gross Motor Function Measure (GMFM)		Bom		Pobre
Van Den Heuvel et al 2009	Basic Motor Skills (BMS)				Excelente
Verma et al 2014	Four Square Step Test (FSST)	Pobre	Bom		

A validade concorrente foi investigada em três estudos e teve sua qualidade metodológica pontuada entre “Pobre” a “Excelente”^{19,21,24}. A qualidade metodológica dos 6 estudos que analisaram a confiabilidade teste-reteste e inter-examinadores variou entre “Pobre” e “Bom”^{19-22,24}. Três estudos investigaram mensurações de erro dos instrumentos de medida estimando os valores do erro padrão de medida e o MMD¹⁸⁻²⁰, obtendo qualidade metodológica de “Pobre” a “Bom”. A responsividade dos instrumentos de medida foi investigada por dois estudos^{22,23} que apresentaram qualidade metodológica “Pobre” e “Excelente”.

A qualidade das propriedades psicométricas dos instrumentos, bem como a classificação do nível da evidência encontram-se na tabela 3. A classificação do nível de evidência variou de forte à desconhecida devido ao pequeno número de estudos localizados, a qualidade metodológica dos estudos selecionados e a qualidade das propriedades psicométricas investigadas conforme descrito nos tópicos abaixo:

QUALIDADE DAS PROPRIEDADES PSICOMÉTRICAS E SÍNTESE DA EVIDÊNCIA

Tabela 3. Qualidade das Propriedades Psicométricas e Classificação do Nível da Evidência				
Instrumentos	Validade de Critério	Confiabilidade	Mensurações de Erro	Responsividade
Basic Motor Skills (BMS)				Positiva (+) Forte
Four Square Step Test (FSST)	Indeterminada (?)	Positiva (+) (+)	Indeterminada (?)	
	Limitada	Moderada	Limitada	
Gross Motor Function Measure (GMFM)		Positiva (+)		Indeterminada (?)
		Moderada		Desconhecida
Timed Standing Balance Test (TSBT)		Positiva (+)	Indeterminada (?)	
		Limitada	Limitada	
Timed Up and Go (TUG),	Negativa (-)	Positiva (+) (+)	Indeterminada (?)	
	Conflituosa	Moderada	Conflituosa	
Timed Up and Down Stairs (TUDS)		Positiva (+)	Indeterminada (?)	
		Moderada	Conflituosa	

FOUR SQUARE STEP TEST

As propriedades psicométricas do FSST foram analisadas em dois estudos em crianças de 6 a 17 anos^{19,24}. Em relação aos índices confiabilidade teste-reteste o FSST apresentou Coeficiente de Correlação Intra-Classe (CCI) de 0.70 e 0.81^{19,24} e inter-examinadores de 0.78²⁴. Ambos receberam avaliação positiva (+) para a qualidade destas propriedades. A validade concorrente foi investigada utilizando-se os testes Functional Reach Test²⁴ e o TUG¹⁹ e a correlação encontrada foi moderada ($\rho = 0.58$; $P = 0.03$) e alta ($p=0.71$, $p<0.01$), respectivamente. Considerando-se o estudo de Verma et al. (2014)²⁴, a qualidade desta propriedade foi pontuada como indeterminada (?) uma vez que o teste Functional Reach Test não é um teste padrão-ouro para avaliação do equilíbrio em crianças e adolescentes com SD. Por outro lado, a alta correlação com o TUG suporta o uso do FSST como uma medida de

equilíbrio dinâmico, recebendo pontuação positiva (+). Os valores de erro padrão de medida do instrumento, investigados por Bandong et al. (2015), foram de 2.32s e o índice MMD foi de 6.43s¹⁹. Visto que não foram apresentados outros índices de responsividade para a interpretação destes valores, a qualidade destas propriedades foi considerada indeterminada.

Em relação à classificação do nível de evidência, o teste FSST apresentou evidência moderada para sua confiabilidade devido a qualidade metodológica dos estudos e limitada quanto à validade de critério e mensurações de erro, devido à qualidade metodológica dos estudos e a qualidade destas propriedades de medida.

TIMED STANDING BALANCE TEST

O TSBT foi aplicado em crianças e adolescentes entre 8 e 17 anos com SD¹⁸. Os índices de confiabilidade teste-reteste para

equilíbrio estático e dinâmico foram 0.91 e 0.93 respectivamente, recebendo avaliação positiva (+) para confiabilidade. O instrumento apresentou valores de erro padrão de medida de 0.21 a 0.59s e valores de MMD 0,58s a 1,63s. Estas propriedades foram avaliadas como indeterminadas (?) por não apresentarem os índices estatísticos adequados para interpretação desta propriedade.

Quanto a classificação do nível de evidência, o TSBT apresentou evidência limitada para confiabilidade devido a qualidade metodológica do estudo que analisou este instrumento. Além disso, o TSBT também apresentou evidência limitada quanto as mensurações de erro devido qualidade indeterminada desta propriedade de medida.

BASIC MOTOR SKILLS

A responsividade do BMS foi investigada em crianças com SD entre 3 meses e 3 anos de idade por um estudo²³. Para avaliação da responsividade do instrumento foi utilizado o Índice de Resposta de Guyatt (GRI), medida padronizada que indica a proporção dos escores de diferença observados durante um período de tempo³¹. O estudo encontrou valores de GRI = 2.55, indicando qualidade da propriedade de medida positiva (+). Além disso, o estudo comparou as mudanças entre crianças menores de 2 anos e crianças entre 2 e 3 anos. Crianças com SD menores que 2 anos de idade apresentaram uma mudança maior no escore médio de BMS em comparação com crianças com DS entre 2 a 3 anos de idade. Este instrumento apresentou forte evidência sobre a capacidade de captar mudanças na função motora grossa após um período de 16 semanas. Outras propriedades psicométricas deste

instrumento, no entanto, ainda não foram estudadas.

GROSS MOTOR FUNCTION MEASURE

As propriedades de medida do GMFM em crianças com SD de zero a 6 anos de idade foram avaliadas por Russel et al (1998)²². Os índices de confiabilidade inter-examinador e teste-reteste foram de 0.95 e 0.96 respectivamente, recebendo, uma avaliação positiva (+) para qualidade da confiabilidade. Ao verificar a responsividade deste instrumento utilizando como critério externo o Bayley Scale of Infant Development II (BSID-II), identificou-se que o GMFM foi capaz de captar mudanças tal como o BSID-II, contudo a qualidade desta propriedade de medida foi classificada como indeterminada (?) uma vez que não foram apresentados no estudo os índices estatísticos adequados para avaliação da responsividade. Este teste apresenta evidência moderada para confiabilidade devido a qualidade metodológica do estudo. O teste apresenta evidência desconhecida quanto a responsividade devido a qualidade indeterminada desta propriedade.

TIMED UP AND DOWN STAIRS

Martin et al (2017)²⁰ investigou a administração do TUDS em crianças de 3 a 17 anos com SD. O índice de teste-reteste do TUDS foi de 0,97, recebendo uma avaliação positiva (+). O instrumento apresentou um índice de MMD de 12,52s contudo, visto que não foram apresentados outros índices de responsividade para a interpretação deste valor, a qualidade desta propriedade psicométrica é indeterminada (?). O teste TUDS apresenta evidência moderada quanto à confiabilidade

devido a qualidade metodológica do estudo. Além disso, o instrumento apresenta evidência conflituaosa quanto as mensurações de erro devido a qualidade indeterminada destas propriedades de medida em contrapartida à boa qualidade metodológica do estudo.

TIMED UP AND GO

Dois estudos investigaram a administração do TUG em crianças e adolescentes com SD de 3 a 18 anos^{20,21}. Os resultados indicaram que o instrumento apresenta boa confiabilidade teste-reteste (CCI: 0.82²¹ e 0.92²⁰) apresentando qualidade positiva (+). A validade de critério do TUG foi analisada usando-se o GMFM como instrumento externo. A correlação encontrada foi baixa ($r=0,49$, $p=0,001$) e, portanto, pontuada como negativa (-)²¹. O MMD do instrumento foi de 1,26s²⁰ recebendo avaliação indeterminada (?) por não apresentar os índices estatísticos adequados para a interpretação deste valor. O teste TUG apresentou nível de evidência moderado quanto à confiabilidade, devido a qualidade metodológica dos estudos. Além disso o teste apresentou evidência conflituaosa quanto à validade de critério e mensurações de erro devido a qualidade baixa/indeterminada destas propriedades de medida em contrapartida a boa qualidade metodológica dos estudos.

DISCUSSÃO

Esta é a primeira revisão sistemática que identifica os instrumentos de medida disponíveis para profissionais da área de reabilitação motora para avaliação de crianças e adolescentes com SD. Identificamos 6 instrumentos nos quais as propriedades

psicométricas foram examinadas. Considerando-se o modelo proposto pela CIF, dois instrumentos de medidas avaliaram controle postural (estrutura e função do corpo) e quatro avaliaram o desenvolvimento motor grosso (atividade).

O nível da evidência dos instrumentos localizados variou de desconhecido a forte dependendo das propriedades de medida. Visto a pequena quantidade de estudos selecionados e que poucos estudos tiveram avaliação "excelente" quanto aos aspectos metodológicos, estudos futuros com melhor qualidade poderão melhorar a classificação da evidência dos instrumentos localizados. Além disso, todos os instrumentos apresentaram alguma limitação quanto as suas propriedades psicométricas. Instrumentos com boas propriedades psicométricas são de suma importância para uma avaliação adequada, e, conseqüentemente, para o acompanhamento apropriado do indivíduo durante o processo de reabilitação^{1,15}

Esta revisão indica que as propriedades de medida ainda precisam ser determinadas para a maioria dos instrumentos que são utilizados na avaliação de crianças e adolescentes com SD. Não surpreendentemente, a confiabilidade foi a medida mais comumente avaliada. No entanto, para medidas avaliativas, informações sobre medidas de erro, são igualmente importantes. As mensurações de erro, por serem expressas na unidade da medida do instrumento são interpretadas através do índice de mudança clinicamente importante e do índice de mudança mínima detectável¹⁵. Estes índices de responsividade informam o mínimo de mudança detectada por um instrumento que é

cl clinicamente significativa para o paciente e o mínimo de mudança além do erro de medida^{32,33}. A classificação do nível de evidência dos instrumentos de avaliação encontrados nesta revisão quanto a mensurações de erro foi limitada ou conflitua, pois nenhum dos estudos selecionados forneceu índices de mudança, impedindo a interpretação adequada das mensurações de erro. Portanto, estudos futuros devem investigar índices de mudanças nos instrumentos de medida para crianças e adolescentes com SD.

No nível de estrutura e função do corpo da CIF os dois instrumentos utilizados em crianças com SD apresentam, como medida de desfecho, a mensuração do equilíbrio em atividades na postura de pé. Em relação às propriedades psicométricas, a validade concorrente foi investigada somente para o FSST, porém com evidência limitada. Não foram identificadas diferenças entre os 2 instrumentos nas qualidades das propriedades psicométricas de confiabilidade e erro de medida. No entanto, considerando-se as medidas de confiabilidade o FSST apresentou melhor nível de evidência devido a qualidade metodológica dos estudos.

Não foram encontrados na literatura estudos que avaliassem o controle postural em crianças com SD que ainda não adquiriram a postura ortostática. Visto que o equilíbrio é um componente comumente alterado nesta população^{10,11} esta revisão identificou a necessidade de desenvolvimento de pesquisas que investiguem instrumentos que contemplem componentes importantes na avaliação do equilíbrio em crianças menores, tais como reações de retificação e equilíbrio nas posturas supino, prono e sentado.

Um segundo aspecto evidenciado nesta revisão foi a ausência de estudos que examinassem as propriedades dos instrumentos para mensuração do alinhamento articular, força muscular e condicionamento cardiorrespiratório, componentes do nível de estrutura e função de corpo que encontram-se deficitários nesta população¹⁰. Estudo que investigou o condicionamento cardiorrespiratório em adultos e jovens com SD utilizando o teste de caminhada de 6 minutos, indicou que este instrumento apresenta índices adequados de confiabilidade e foi capaz de captar mudanças no condicionamento cardiorrespiratório nesta população³⁴. Estudos futuros devem investigar as propriedades de medida deste instrumento em crianças com SD.

Quatro instrumentos do domínio "atividade" da CIF foram localizados nesta revisão. O BMS e o GMFM avaliam funções motoras grossas e o TUDS e TUG, consideram o tempo em que as crianças realizam atividades dinâmicas como andar e subir e descer escadas. Dos quatro instrumentos, o BMS foi o único desenvolvido especificamente para crianças com SD. No entanto, a única propriedade avaliada foi a responsividade. Portanto, a sua administração deve ser realizada com cautela uma vez que ele não possui outras propriedades investigadas, como por exemplo, validade e confiabilidade. Um segundo instrumento encontrado na revisão para avaliação da função motora foi o GMFM. No entanto, apenas duas medidas psicométricas foram examinadas, a confiabilidade e a responsividade. Os resultados indicaram evidência moderada quanto a confiabilidade do teste. Em relação a responsividade, o nível da evidência é

desconhecido, uma vez que no estudo não foram apresentados os índices para cálculo desta propriedade como sugerido por Terwee et al (2007)¹⁵. Os instrumentos TUG e TUDS apresentaram resultados semelhantes em relação às propriedades de confiabilidade e medida de erro. No entanto, devido a qualidade das propriedades de medida de erro, o nível de evidência permanece indeterminado para os dois instrumentos.

Os quatro instrumentos localizados no domínio "atividade" avaliam as funções motoras em um ambiente padronizado (capacidade). Apesar dos instrumentos Inventário de Avaliação da Incapacidade Pediátrica (PEDI) e Medida de Independência Funcional (WeeFIM) já terem sido utilizados para caracterizar o desempenho funcional em crianças com SD³⁵⁻³⁷, eles não tiveram suas propriedades psicométricas investigadas.

Uma limitação do presente estudo foi a quantidade pequena de bases de dados pesquisadas, devido a indisponibilidade de acesso. Além disso, optou-se pela retirada do item "tamanho amostral" do instrumento COSMIN durante a avaliação da qualidade metodológica, devido à escassez de estudos na população pediátrica com grande tamanho amostral.

CONCLUSÃO

Neste estudo foi conduzida uma revisão sistemática para identificação de instrumentos disponíveis na literatura para avaliação de crianças e adolescentes com SD e avaliação do estado de evidência destes instrumentos. Seis instrumentos foram localizados nesta revisão, 2 avaliaram aspectos do domínio estrutura e função do corpo e 4 do domínio

atividade da CIF. A escolha e administração destes instrumentos em crianças com SD deve ser feita com cautela, pois todos apresentaram limitações em suas propriedades psicométricas quando aplicados nesta população. Futuros estudos podem melhorar a qualidade da evidência destes instrumentos.

REFERÊNCIAS

1. Elvrum A-KG, Saether R, Riphagen II, Vik T. Outcome measures evaluating hand function in children with bilateral cerebral palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol* 2016;58(7):662-71.
2. Wright V, Majnemer A, Maltais DB, Burtner PA, Sanders H. Motor measures: A moving target? *Semin Pediatr Neurol*. 2013;84-99
3. Majnemer A, Limperopoulos C. Importance of outcome determination in pediatric rehabilitation. *Dev Med Child Neurol*. 2002; 44(11):773-777.
4. Law M, King G, Russell D, Mackinnon E, Murphy C, M AL, et al. Measuring Outcomes in Children's Rehabilitation: A Decision Protocol. *Arch Phys Med Rehabil*. 1999;80(June):629-36.
5. Farias N, Buchalla CM. A classificação internacional de funcionalidade, incapacidade e saúde da organização mundial da saúde: conceitos, usos e perspectivas. *Rev Bras Epidemiol*. 2005;8: 187-193.
6. Novak I, Mcintyre S, Morgan C, Campbell L, Dark L, Morton N, et al. A systematic review of interventions for children with cerebral palsy: State of the evidence. *Dev Med Child Neurol*. 2013;55(10): 885-910.
7. Sampaio RF, Mancini MC, Gonçalves GGP, Bittencourt, Miranda, Fonseca E. Aplicação Da Classificação Internacional De Funcionalidade, Incapacidade E Saúde (CIF) Na Prática Clínica Do Fisioterapeuta. *Rev Bras Fisioter*. 2005;9(2): 129-136.
8. Terwee CB, Mokkink LB, Knol DL, Ostelo RWJG, Bouter LM, De Vet HCW. Rating the methodological quality in systematic reviews of studies on measurement properties: A scoring system for the COSMIN checklist. *Qual Life Res*. 2012; 21(4):651-657.
9. Meneghetti C, Blascovi-Assis S, Deloroso F, Rodrigues G. Avaliação do equilíbrio estático

- de crianças e adolescentes com síndrome de Down. *Rev Bras Fisioter.* 2009; 13(3):230-235.
10. Moreira LM, El-Hani CN, Fábio E, Gusmão A, Feuerstein R. A síndrome de Down e sua patogênese: considerações sobre o determinismo genético Down syndrome and its pathogenesis: considerations about genetic determinism. *Rev Bras Psiquiatr.* 2000;22(2): 96-99.
 11. Borssatti F, Anjos FB dos, Ribas DIR. Efeitos dos exercícios de força muscular na marcha de indivíduos portadores de Síndrome de Down. *Fisioter Mov.* 2013; 26(2): 329-335.
 12. Trindade AS, Nascimento MA do. Avaliação do Desenvolvimento Motor em Crianças com Síndrome de Down. *Rev Bras Educ Espec.* 2016; 22(4):577-588.
 13. Mekkink LB, Terwee CB, Patrick DL, Alonso J, Stratford PW, Knol DL, et al. . International consensus on taxonomy, terminology, and definitions of measurement properties for health-related patient reported outcomes: results of the COSMIN study. *J Clin Epidemiol.* 2010;63:737-745.
 14. Ammann-Reiffer C, Bastiaenen CHG, de Bie RA, van Hedel HJA. Measurement Properties of Gait-Related Outcomes in Youth With Neuromuscular Diagnoses: A Systematic Review. *Phys Ther.* 2014; 94(8): 1067-1082
 15. Terwee CB, Bot SDM, de Boer MR, Van der Windt DAWM, Knol DL, Dekker J, et al. Quality criteria were proposed for measurement properties of health status questionnaires. *J Clin Epidemiol.* 2007;60(1):34-42.
 16. Van Tulder M, Furlan A, Bombardier C, Bouter L. Updated method guidelines for systematic reviews in the Cochrane Collaboration Back Review Group. *Spine.* 2003; 28(12): 1290-1299.
 17. Schellingerhout JM, Verhagen AP, Heymans MW, Koes BW, De Vet HC, Terwee CB. Measurement properties of disease-specific questionnaires in patients with neck pain: A systematic review. *Qual Life Res.* 2012;21(4):659-70.
 18. Aranha VP, Samuel AJ, Saxena S. Reliability and sensitivity to change of the timed standing balance test in children with Down syndrome. *J Neurosci Rural Pract.* 2016;7(1):77-82.
 19. Bandong ANJ, Madiaga GO, Gorgon EJR. Reliability and validity of the Four Square Step Test in children with cerebral palsy and Down syndrome. *Res Dev Disabil.* 2015;47:39-47.
 20. Martin K, Natarus M, Martin J, Henderson S. Minimal detectable change for TUG and TUDS tests for children with down syndrome. *Pediatr Phys Ther.* 2017;29(1):77-82.
 21. Nicolini-Panisson RD, Donadio MVF. Normative values for the Timed 'Up and Go' test in children and adolescents and validation for individuals with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol.* 2014;56(5):490-7.
 22. Russell D, Palisano R, Walter S, Rosenbaum P, Gemus M, Gowland C, et al. Evaluating motor function in children with Down syndrome: validity of the GMFM. *Dev Med Child Neurol.* 1998; 40(10): 693-701.
 23. Van Den Heuvel ME, De Jong I, Lauteslager PEM, Volman MJM. Responsiveness of the test of basic motor skills of children with down syndrome. *Phys Occup Ther Pediatr.* 2009;29(1):71-85.
 24. Verma A, Samuel AJ, Aranha VP. The four square step test in children with Down syndrome: Reliability and concurrent validity. *J Pediatr Neurosci.* 2014;9(3):221.
 25. Moher D, Liberati A, Tetzlaff J, Altman DG, Altman D, Antes G, et al. Preferred reporting items for systematic reviews and meta-analyses: The PRISMA statement. *PLoS Medicine.* 2009;6(7):e1000097.
 26. Dite W, Temple VA. A clinical test of stepping and change of direction to identify multiple falling older adults. *Arch Phys Med Rehabil.* 2002; 83(11); 1566-1571.
 27. Emery C a, Cassidy JD, Klassen TP, Rosychuk RJ, Rowe BB. Development of a clinical static and dynamic standing balance measurement tool appropriate for use in adolescents. *Phys Ther.* 2005; 85(6): 502-514.
 28. Schiariti V, Klassen AF, Cieza A, Sauve K, Donnell MO, Armstrong R, et al. Review article Comparing contents of outcome measures in cerebral palsy using the international classification of functioning (ICF-CY): A systematic review. *Eur J Paediatr Neurol.* 2013;1:1-12.
 29. Zaino C a, Marchese VG, Westcott SL. Timed up and down stairs test: preliminary reliability and validity of a new measure of functional mobility. *Pediatr Phys Ther.* 2004; 16(2): 90-98.
 30. Podsiadlo D, Richardson S. The timed "Up & Go": a test of basic functional mobility for frail elderly persons. *J Am Geriatr Soc.* 1991; 39(2):142-148.
 31. Portney LG, Watkins MP. Foundations of Clinical Research: Application to Practice. 3rd ed. Critical Care Medicine. 2009.

32. Casey AF, Wang X, Osterling K. Test-retest reliability of the 6-minute walk test in individuals with down syndrome. *Arch Phys Med Rehabil.* 2012 Nov;93(11):2068-2074.
33. Mancini MC, Carvalho e Silva P, Gonçalves SC, Martins SDM. Comparação do desempenho funcional de crianças portadoras de síndrome de Down e crianças com desenvolvimento normal aos 2 e 5 anos de idade. *Arq Neuropsiquiatr.* 2003; 61(2-B):409-415.
34. Dolva A-S, Coster W, Lilja M. Functional Performance in Children with Down Syndrome. *Am J Occup Ther.* 2004; 58(6): 621-629.
35. Lin HY, Chuang CK, Chen YJ, Tu RY, Chen MR, Niu DM, et al. Functional independence of Taiwanese children with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol.* 2016; 58(5):502-7.
36. de Vet HCW, Terwee CB, Knol DL, Bouter LM. When to use agreement versus reliability measures. *J Clin Epidemiol.* 2006; 59: 1033-1039.
37. Leopold SS, Porcher R. Editorial: The Minimum Clinically Important Difference- The Least We Can Do. *Clin Orthop and Relat Res.* 2017; 475(4): 929-932.