







## Previsão fenotípica de melhorias funcionais após intervenção com exercícios estruturados em crianças com transtorno do espectro da hipermobilidade

### Phenotype-based prediction of functional improvements following structured exercise intervention in children with hypermobility spectrum disorder

Kshama Susheel Shetty<sup>1</sup>   
Hariharasudhan Ravichandran<sup>2</sup>   
Kumaragurubaran Ravikumar<sup>3</sup> 

Madhusudhan Shivanna<sup>4</sup>   
Sutamali Subramanian<sup>5</sup>   
Balamurugan Janakiraman<sup>6</sup> 

<sup>1</sup>Contato para correspondência. Meenakshi Academy of Higher Education and Research (Chennai). Tamil Nadu, Índia. [poonjakshama@gmail.com](mailto:poonjakshama@gmail.com)

<sup>2</sup>Alva's College of Physiotherapy and Research Centre (Moodbidri). Karnataka, Índia.

<sup>3</sup>Gleneagles Global Health City (Chennai). Tamil Nadu, Índia.

<sup>4</sup>Alva's Institute of Engineering and Technology (Mijar). Karnataka, Índia.

<sup>5</sup>Sree Balaji College of Physiotherapy (Chennai). Tamil Nadu, Índia.

<sup>6</sup>SRM Institute of Science and Technology (Chennai). Tamil Nadu, Índia.

**RESUMO | INTRODUÇÃO:** A terapia com exercícios é amplamente prescrita para crianças com transtorno do espectro da hiper mobilidade (TEH), porém estudos de intervenção relatam consistentemente uma variabilidade interindividual substancial nos resultados funcionais. Análises de eficácia baseadas em médias dominam a literatura e podem mascarar diferenças nos mecanismos de controle sensorio-motor que podem limitar a resposta à reabilitação. **OBJETIVO:** Avaliar se o controle sensorio-motor basal e a variabilidade do movimento predizem a resposta funcional ao exercício estruturado em crianças com TEH. **MÉTODOS:** Neste estudo prospectivo, intervencionista e de grupo único, 48 crianças de 9 a 12 anos com TEH participaram de um programa de exercícios estruturado de 18 semanas com ênfase em treinamento proprioceptivo, controle neuromuscular e prática de tarefas funcionais. O desempenho funcional foi avaliado utilizando o domínio Esportes e Função Física do Instrumento de Coleta de Dados de Resultados Pediátricos (PODCI). O erro de propriocepção articular basal, a variabilidade do tempo de passo da marcha e a variabilidade da coordenação interarticular foram avaliados como preditores de melhora funcional utilizando regressão multivariável, classificação de respondedores e análises estratificadas por fenótipo. **RESULTADOS:** O desempenho funcional melhorou significativamente após a intervenção ( $\Delta$  PODCI médio =  $10,2 \pm 5,4$  pontos;  $p < 0,001$ ). O erro de propriocepção basal, a variabilidade do tempo de passo da marcha e a variabilidade da coordenação interarticular previram independentemente os ganhos funcionais e, em conjunto, explicaram uma proporção substancial da variância interindividual ( $R^2$  ajustado = 0,43; modelo  $p < 0,001$ ). Um erro proprioceptivo basal mais elevado e uma maior variabilidade do movimento foram associados a menores ganhos ( $p < 0,05$ ). A estratificação do fenótipo demonstrou um padrão de resposta gradual. **CONCLUSÃO:** A responsividade ao exercício em crianças com transtorno do espectro da hiper mobilidade é limitada pelo controle sensorio-motor basal e pela variabilidade do movimento, em vez de uma exposição uniforme ao exercício, o que reforça a importância de estratégias de reabilitação informadas pelo fenótipo.

**PALAVRAS-CHAVE:** Hiper mobilidade Articular. Criança. Propriocepção. Atividade Motora.

**ABSTRACT | BACKGROUND:** Exercise therapy is widely prescribed for children with hypermobility spectrum disorder (HSD), yet intervention studies consistently report substantial inter-individual variability in functional outcomes. Mean-based efficacy analyses dominate the literature and obscure mechanistic differences in sensorimotor control that may constrain rehabilitation responsiveness. **OBJECTIVE:** To determine whether baseline sensorimotor control and movement variability predict functional responsiveness to structured exercise in children with HSD. **METHODS:** In this prospective, single-group interventional study, 48 children aged 9–12 years with HSD completed an 18-week structured exercise program emphasizing proprioceptive training, neuromuscular control, and functional task practice. Functional performance was assessed using the Pediatric Outcomes Data Collection Instrument (PODCI) Sports & Physical Function domain. Baseline joint position sense error, gait step-time variability, and inter-joint coordination variability were examined as predictors of functional improvement using multivariable regression, responder classification, and phenotype-stratified analyses. **RESULTS:** Functional performance improved significantly following intervention (mean  $\Delta$  PODCI =  $10.2 \pm 5.4$  points;  $p < 0.001$ ). Baseline joint position sense error, gait step-time variability, and inter-joint coordination variability independently predicted functional gains and together explained a substantial proportion of inter-individual variance (adjusted  $R^2 = 0.43$ ; model  $p < 0.001$ ). Higher baseline proprioceptive error and greater movement variability were associated with attenuated improvement ( $p < 0.05$ ). Phenotype stratification demonstrated a graded response pattern. **CONCLUSION:** Exercise responsiveness in pediatric HSD is constrained by baseline sensorimotor control and movement variability rather than uniform exercise exposure, supporting phenotype-informed rehabilitation strategies.

**KEYWORDS:** Joint Hypermobility. Child. Proprioception. Motor Activity.

## 1. Introdução

O transtorno do espectro da hiper mobilidade (TEH) em crianças é caracterizado por hiper mobilidade articular generalizada acompanhada de dor, limitação funcional e redução da participação em atividades físicas<sup>1</sup>. Além da frouxidão musculoesquelética, evidências crescentes<sup>2,3</sup> indicam que o TEH pediátrico está associado a prejuízos na integração sensorio-motora, incluindo redução da acuidade proprioceptiva, alteração da coordenação neuromuscular e variabilidade excessiva de movimento durante tarefas funcionais. Essas características sugerem que o TEH envolve distúrbios fundamentais no controle motor, em vez de instabilidade mecânica isolada.

A fisioterapia baseada em exercícios é amplamente recomendada como tratamento de primeira linha e é considerada segura e benéfica em nível populacional. No entanto, apesar dos protocolos padronizados e da adesão satisfatória, os resultados funcionais após a intervenção com exercícios são altamente heterogêneos<sup>4</sup>. Uma proporção substancial de crianças demonstra melhora limitada ou inconsistente, o que levanta questões sobre a suposição de que todas as crianças com TEH possuem capacidade equivalente de adaptação motora induzida pela reabilitação<sup>5</sup>.

A maioria dos estudos de intervenção em hiper mobilidade pediátrica é projetada com base em uma abordagem de eficácia, examinando se as intervenções com exercícios produzem melhorias nos resultados funcionais<sup>6</sup>. Embora essa abordagem estabeleça um benefício geral, ela é conceitualmente limitada, pois os efeitos médios do tratamento mascaram diferenças interindividuais mecanicamente significativas. Consequentemente, a heterogeneidade na resposta é frequentemente atribuída a fatores não específicos, como motivação ou adesão, em vez de diferenças na organização sensorio-motora<sup>7</sup>.

De uma perspectiva de controle motor, a reabilitação eficaz depende de feedback sensorial confiável e desempenho motor estável<sup>8</sup>. Crianças com TEH frequentemente apresentam prejuízo da propriocepção articular, refletindo precisão proprioceptiva reduzida, juntamente com variabilidade excessiva de movimento temporal e interarticular, indicando coordenação motora instável<sup>9</sup>. Embora alguma variabilidade de movimento seja necessária para a exploração motora, a variabilidade excessiva ou mal estruturada, frequentemente concebida como ruído sensorio-motor, restringe o aprendizado motor, limitando a capacidade do sistema nervoso de extrair informações consistentes e relevantes para a tarefa. Nesses contextos, os programas de exercícios convencionais podem ser menos eficazes, apesar da exposição adequada.

Apesar da relevância desses mecanismos, medidas objetivas de propriocepção e variabilidade de movimento raramente são incorporadas em estudos de intervenção em hipermobilidade pediátrica. Portanto, permanece incerto se essas características simplesmente mudam após o exercício ou restringem ativamente a magnitude da melhora funcional alcançável por meio da reabilitação.

Uma abordagem baseada em fenótipos oferece uma maneira de abordar essa lacuna. Em ciências da reabilitação, um fenótipo representa um padrão reprodutível de organização sensório-motora que restringe a capacidade de aprendizado e a resposta ao tratamento. No TEH pediátrico, a interação entre a precisão proprioceptiva e a variabilidade do movimento pode definir um fenótipo sensório-motor clinicamente significativo, distinto da intensidade da dor ou da frouxidão articular e mais diretamente relacionado à adaptabilidade motora. A infância é um período crítico do desenvolvimento, caracterizado por maior plasticidade neural e sensibilidade às restrições de aprendizado motor<sup>10</sup>. Compreender como o fenótipo sensório-motor basal influencia os resultados da reabilitação pode, portanto, orientar estratégias de intervenção precoces e individualizadas, com implicações funcionais a longo prazo.

Portanto, o objetivo principal deste estudo foi determinar se o controle sensório-motor basal e a variabilidade do movimento predizem a resposta funcional a uma intervenção estruturada de exercícios em crianças com TEH. Um objetivo secundário foi examinar se fenótipos sensório-motores distintos demonstram diferenças graduais na melhora funcional induzida pelo exercício. A hipótese é que um maior erro proprioceptivo basal e uma maior variabilidade do movimento limitariam os ganhos funcionais, resultando em uma resposta dependente do fenótipo.

## 2. Métodos

### 2.1 Desenho do estudo

Este foi um estudo prospectivo, intervencional, de grupo único, com avaliações pré e pós-intervenção realizadas ao longo de um período de intervenção de 18 semanas. O desenho permitiu a avaliação das mudanças intraindividuais no desempenho funcional,

controle sensório-motor e variabilidade do movimento após um programa de exercícios padronizado. O estudo foi relatado de acordo com a lista de verificação TREND (Transparent Reporting of Evaluations with Nonrandomized Designs)<sup>11</sup>.

### 2.2 Aprovação ética e registro do estudo

O protocolo do estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética Institucional do Alva's College of Physiotherapy and Research Centre (Aprovação nº: ACP/OP/IEC/2024122091). O consentimento livre e esclarecido por escrito foi obtido dos pais ou responsáveis legais, e o assentimento por escrito foi obtido de todas as crianças participantes. O ensaio foi registrado prospectivamente no Registro de Ensaio Clínicos da Índia (CTRI nº de registro: CTRI/2024/07/070333). O registro do estudo clínico especificou as alterações pré e pós-intervenção nos desfechos funcionais e sensório-motores. Análises de regressão preditiva e procedimentos de estratificação fenotípica foram conduzidos como análises exploratórias secundárias.

### 2.3 Estimativa do tamanho da amostra

Um cálculo a priori do tamanho da amostra foi realizado utilizando o software G\*Power (versão 3.1). Assumindo um tamanho de efeito moderado a grande ( $d$  de Cohen = 0,6) para a mudança pré-pós no desempenho funcional, 42 participantes foram necessários para atingir um poder de 80% com um nível alfa de 0,05. Considerando uma taxa de desistência de 15%, uma amostra alvo de 50 participantes foi recrutada.

### 2.4 Local do estudo

O estudo foi conduzido no ambulatório de fisioterapia pediátrica e nos laboratórios de análise de movimento do Alva's College of Physiotherapy and Research Centre, Moodbidri, Dakshina Kannada, Karnataka, Índia. As avaliações foram realizadas em um ambiente laboratorial controlado, enquanto as sessões de exercícios foram ministradas em um ambulatório de reabilitação pediátrica dedicado, sob a supervisão de fisioterapeutas licenciados.

### 2.5 Participantes

As crianças foram recrutadas consecutivamente por meio de encaminhamentos ambulatoriais entre dezembro de 2024 e fevereiro de 2025. A triagem foi realizada por um fisioterapeuta pediátrico sênior com

mais de cinco anos de experiência em avaliação de hipermobilidade. Os critérios de inclusão foram: idade entre 9 e 12 anos; diagnóstico de TEH generalizado de acordo com os critérios internacionais de 2017; e hipermobilidade articular generalizada definida por uma pontuação de Beighton  $\geq 5/9$ . Os critérios de exclusão incluíram síndrome de Ehlers-Danlos hiper-móvel, outras doenças hereditárias do tecido conjuntivo, condições neurológicas ou de desenvolvimento que afetam o movimento, doença cardiopulmonar, lesão ou cirurgia recente nos membros inferiores (nos últimos 6 meses) ou participação em fisioterapia estruturada nos 3 meses anteriores.

## **2.6 Medidas de desfecho**

Todos os desfechos foram avaliados na linha de base e após a intervenção por avaliadores treinados que não estavam envolvidos na aplicação da intervenção.

## **2.7 Desfecho primário**

### **2.7.1 Desempenho funcional**

O desempenho funcional foi medido utilizando o Instrumento de Coleta de Dados de Desfechos Pediátricos (PODCI), domínio Esportes e Função Física. O PODCI é uma medida validada, relatada pelos pais, com pontuações que variam de 0 a 100, sendo que pontuações mais altas indicam melhor função. O instrumento demonstra excelente consistência interna ( $\alpha$  de Cronbach = 0,90–0,95), confiabilidade teste-reteste (CCI = 0,86–0,94) e responsividade em populações pediátricas com distúrbios musculoesqueléticos<sup>12</sup>.

## **2.8 Desfechos secundários**

### **2.8.1 Propriocepção articular**

A propriocepção da articulação do joelho foi avaliada utilizando um teste ativo de reposicionamento articular, medido com um goniômetro digital (Halo Medical Devices, Austrália). Os participantes foram vendados para eliminar o estímulo visual. O erro angular absoluto (em graus), calculado como a média de três tentativas, foi utilizado para a análise. Este método demonstra boa confiabilidade em crianças (CCI = 0,78–0,91)<sup>13</sup>.

### **2.8.2 Variabilidade do tempo de passo e da coordenação interarticular da marcha**

Os parâmetros espaço-temporais da marcha e os dados cinemáticos tridimensionais foram capturados utilizando um sistema de captura de movimento Vicon Vero com oito câmeras (Vicon Motion Systems Ltd., Oxford, Reino Unido), operando a uma frequência de amostragem de 100 Hz. Marcadores retrorrefletivos de 16 mm foram colocados em pontos de referência anatômicos padronizados, de acordo com um modelo de corpo inteiro da marcha modificado, e as trajetórias dos marcadores foram reconstruídas utilizando o software Vicon Nexus (versão 2.9). A variabilidade do tempo de passo foi expressa como o coeficiente de variação (%) dos tempos de passo durante a caminhada em solo plano em velocidade autoselecionada. A variabilidade da coordenação interarticular foi quantificada utilizando análise de fase relativa contínua, com a variabilidade calculada como o desvio padrão ao longo dos ciclos da marcha. Essas medidas são bem validadas e demonstram alta confiabilidade em contextos de pesquisa e clínicos (CCI = 0,80–0,92)<sup>14,15</sup>.

### **2.8.3 Nível de Atividade Física**

A atividade física foi avaliada utilizando o Questionário de Atividade Física para Crianças Mais Velhas (PAQ-C), um instrumento de autorrelato validado<sup>16</sup> (CCI = 0,75–0,82).

## **2.9 Treinamento e cegamento dos avaliadores**

Os avaliadores passaram por treinamento padronizado antes da coleta de dados para garantir a consistência. Os avaliadores de desfecho desconheciam o status de adesão e a classificação de respondedores dos participantes. O cegamento dos participantes e terapeutas não foi viável devido à natureza da intervenção.

## **2.10 Intervenção**

Os participantes participaram de um programa de exercícios estruturado de 18 semanas, composto por duas sessões supervisionadas e uma sessão domiciliar por semana, com cada sessão durando de 45 a 60 minutos. Este programa de exercícios estruturado foi desenvolvido pelos autores, com base na literatura

existente, para abordar propriocepção, força muscular, controle neuromuscular e desempenho funcional em crianças hiper móveis. O programa incluiu: treinamento sensorial e proprioceptivo; fortalecimento progressivo da musculatura dos membros inferiores e do tronco; controle neuromuscular e reeducação do movimento; e prática de tarefas funcionais. A progressão foi individualizada com base na tolerância aos sintomas e no desempenho. A dor e a fadiga foram monitoradas usando escalas padronizadas durante as sessões. O programa de exercícios está detalhado no [Anexo](#).

### **2.11 Fidelidade, adesão e segurança da intervenção**

A frequência às sessões foi registrada e a adesão ao programa domiciliar foi monitorada por meio de registros de exercícios. A fidelidade da intervenção foi assegurada por meio de protocolos padronizados e supervisão periódica. A adesão foi definida como a conclusão de  $\geq 80\%$  das sessões prescritas. Os eventos adversos foram documentados ao longo do estudo.

### **2.12 Gerenciamento de dados e controle de qualidade**

Os dados foram digitados duas vezes e verificados quanto à precisão. Valores discrepantes foram examinados para identificar possíveis erros de entrada de dados. Os dados faltantes foram mínimos ( $< 5\%$ ) e tratados por meio de análise de casos completos.

### **2.13 Análise de dados**

As análises estatísticas foram realizadas utilizando o IBM SPSS Statistics (versão 27). A normalidade foi avaliada pelo teste de Shapiro-Wilk. As alterações pré-pós foram analisadas utilizando testes *t* pareados. As associações entre as variáveis fenotípicas basais e a melhora funcional foram avaliadas utilizando os coeficientes de correlação de Pearson. A regressão linear múltipla foi utilizada para identificar preditores independentes dos ganhos funcionais. As variáveis preditoras foram selecionadas a priori com base na relevância teórica e na literatura prévia que apoia as associações entre o controle sensorio-motor e os resultados da reabilitação. O número de preditores incluídos no modelo foi limitado para manter uma proporção aceitável entre sujeitos e variáveis

(aproximadamente 8:1) para reduzir o risco de sobreajuste nesta amostra ( $n = 48$ ). As premissas do modelo foram avaliadas utilizando os fatores de inflação da variância, a inspeção dos resíduos e a estatística de Durbin-Watson. A multicolinearidade foi considerada ausente se  $VIF < 5$ . Além dos preditores incluídos, outros fatores potencialmente relevantes, como flutuação da dor durante a intervenção, características psicossociais e variabilidade individual de adesão, não foram incorporados ao modelo de regressão para limitar a complexidade do modelo, dado o tamanho da amostra. Essas variáveis foram monitoradas descritivamente, mas não foram incluídas na modelagem preditiva. A classificação de respondedor foi definida a priori como uma mudança na pontuação de Esportes e Função Física do PODCI superior a 10 pontos ( $\Delta$  PODCI  $> 10$ ). Esse limiar foi selecionado com base em estimativas de diferença mínima clinicamente importante (DMCI) relatadas anteriormente para domínios do PODCI em populações pediátricas musculoesqueléticas. Na ausência de validação de DMCI específica para TEH, o ponto de corte de 10 pontos foi escolhido para representar uma melhora clinicamente significativa além do erro de medição e para se alinhar com pesquisas anteriores de reabilitação usando critérios semelhantes. A significância estatística foi definida em  $p < 0,05$ .

### **2.14 Procedimento de estratificação fenotípica**

A estratificação fenotípica foi realizada para explorar diferenças graduais na resposta funcional com base nas características basais de variabilidade sensorio-motora e de movimento. O erro basal de propriocepção articular e a variabilidade da coordenação interarticular foram dicotomizados usando os valores medianos específicos da amostra para classificar os participantes como de comprometimento “baixo” ou “alto”.

Os participantes foram então categorizados em quatro grupos fenotípicos:

- (1) Baixo comprometimento sensorio-motor e baixa variabilidade;
- (2) Baixo comprometimento sensorio-motor e alta variabilidade;
- (3) Alto comprometimento sensorio-motor e baixa variabilidade;
- (4) Alto comprometimento sensorio-motor e alta variabilidade.

Essa abordagem de estratificação foi selecionada para permitir comparações equilibradas entre subgrupos e para examinar possíveis padrões de resposta graduais. A classificação fenotípica foi exploratória e não foi utilizada na modelagem de regressão primária. As comparações entre subgrupos foram realizadas utilizando ANOVA de um fator. A estratificação fenotípica não foi pré-especificada no registro do estudo e deve ser interpretada como exploratória.

### 3. Resultados

#### 3.1 Características dos participantes

Um total de 48 crianças com transtorno do espectro da hiper mobilidade foram incluídas na análise. A idade média foi de  $10,6 \pm 1,1$  anos, e 30 participantes (62,5%) eram do sexo feminino. A pontuação média de Beighton foi de  $6,6 \pm 1,1$ , indicando hiper mobilidade articular generalizada. A intensidade da dor basal foi de  $3,7 \pm 1,3$  na escala numérica de classificação da dor, com uma duração média da dor de  $12,4 \pm 5,6$  meses. O desempenho funcional basal, avaliado pelo domínio Esportes e Função Física do PODCI, foi de  $72,1 \pm 9,5$ . A avaliação sensório-motora revelou um erro médio de propriocepção articular de  $4,9 \pm 1,4^\circ$ , variabilidade do tempo de passo da marcha de  $6,5 \pm 2,0\%$  e variabilidade da coordenação interarticular de  $13,9 \pm 4,1\%$ . Os níveis de atividade física, medidos pelo PAQ-C, indicaram atividade moderada ( $2,8 + 0,6$ ) (Tabela 1).

**Tabela 1.** Características demográficas, clínicas e sensório-motoras basais de crianças com transtorno do espectro da hiper mobilidade ( $n = 48$ )

Características demográficas e clínicas basais ( $n = 48$ )	
Variável	Média (DP) / Frequência (Porcentagem)
Idade em anos	10,6 (1,1)
Sexo (Feminino)	30 (62,5%)
Altura em centímetros	142,3 (7,8)
Peso em quilogramas	38,9 (6,5)
Índice de Massa Corporal ( $\text{kg}/\text{m}^2$ )	19,1 (2,2)
Pontuação de Beighton (0 – 9)	6,6 (1,1)
Duração da dor em meses	12,4 (5,6)
Intensidade da dor (NPRS)	3,7 (1,3)
Estado basal sensório-motor, de atividade física e funcional	
Medida	Média (DP)
Erro de propriocepção articular em graus	4,9 (1,4)
Variabilidade do tempo de passo da marcha	6,5 (2,0)
Variabilidade da coordenação interarticular	13,9 (4,1)
PAQ-C	2,8 (0,6)
PODCI Esportes e Função Física	72,1 (9,5)

### 3.2 Efeito da intervenção com exercícios estruturados

Após a intervenção com exercícios estruturados de 18 semanas, observaram-se melhorias significativas em todas as medidas de desfecho primárias e secundárias (Tabela 2). A pontuação do PODCI Esportes e Função Física aumentou de  $72,1 \pm 9,5$  na linha de base para  $82,3 \pm 8,7$  após a intervenção, correspondendo a um aumento médio de  $10,2 \pm 5,4$  pontos ( $t = 13,1, p < 0,001$ ). Melhorias significativas também foram observadas nas medidas de variabilidade sensório-motora e de movimento. O erro de propriocepção articular diminuiu em  $1,3 \pm 0,8^\circ$  ( $p < 0,001$ ). A variabilidade do tempo de passo da marcha diminuiu em  $1,6 \pm 1,0\%$  ( $p < 0,001$ ) e a variabilidade da coordenação interarticular diminuiu em  $3,1 \pm 2,0\%$  ( $p < 0,001$ ). Essas mudanças indicam melhorias estatisticamente e clinicamente significativas no desempenho funcional, propriocepção e controle do movimento após a intervenção.

**Tabela 2.** Diferenças nos resultados funcionais, sensório-motores e de variabilidade de movimento após a intervenção com exercícios estruturados

Resultado	Média basal + desvio padrão	Pós Média + DP	Variação média ( $\Delta$ )	t (gl = 47)	valor p
PODCI Esportes e Função Física	72,1 + 9,5	82,3 + 8,7	10,2 + 5,4	13,1	<0,001
Erro de propriocepção articular ( $^\circ$ )	4,9 + 1,4	3,6 + 1,2	- 1,3 + 0,8	- 11,3	<0,001
Variabilidade do tempo de passo da marcha (%)	6,5 + 2,0	4,9 + 1,7	- 1,6 + 1,0	- 10,8	<0,001
Variabilidade da coordenação interarticular (%)	13,9 + 4,1	10,8 + 3,6	- 3,1 + 2,0	- 10,6	<0,001

\*significância se  $p < 0,05$ .

### 3.3 Associações entre variáveis fenotípicas e ganhos funcionais

O erro de propriocepção articular basal ( $r = - 0,46, p < 0,05$ ), a variabilidade do tempo de passo da marcha ( $r = - 0,59, p < 0,05$ ) e a variabilidade da coordenação interarticular ( $r = - 0,43, p < 0,05$ ) apresentaram correlação negativa com os ganhos funcionais, indicando que maior comprometimento sensório-motor basal e maior variabilidade de movimento estavam associados a menores melhorias. Correlações positivas foram observadas entre  $\Delta$  PODCI e o nível de atividade física basal medido pelo PAQ-C ( $r = 0,28, p < 0,05$ ), a pontuação basal do PODCI ( $r = 0,31, p < 0,05$ ) e a idade ( $r = 0,19, p < 0,05$ ), sugerindo que crianças mais ativas, com melhor desempenho funcional basal e um pouco mais velhas tenderam a demonstrar maior melhora funcional (Tabela 3).

**Tabela 3.** Matriz de correlação entre variáveis fenotípicas basais e ganho funcional

Variável basal	r com $\Delta$ PODCI
Erro de propriocepção articular	-0,46*
Variabilidade do tempo de passo da marcha	-0,59*
Variabilidade da coordenação interarticular	-0,43*
Pontuação PAQ-C	+0,28*
PODCI basal	+0,31*
Idade	+0,19*

\*significância se  $p < 0,05$ .

### 3.4 Preditores de melhoria funcional

O modelo geral de análise de regressão linear múltipla foi estatisticamente significativo ( $F(6,41) = 6,89, p < 0,001$ ) e explicou 50% da variância em  $\Delta$  PODCI ( $R^2$  ajustado = 0,43). Os testes diagnósticos indicaram ausência de multicolinearidade (VIF máximo = 1,64) e autocorrelação aceitável (Durbin-Watson = 2,01).

O erro de propriocepção articular basal ( $\beta = -0,28, p = 0,007$ ), a variabilidade do tempo de passo da marcha ( $\beta = -0,30, p = 0,005$ ) e a variabilidade da coordenação interarticular ( $\beta = -0,26, p = 0,012$ ) emergiram como preditores negativos significativos de melhoria funcional. A pontuação basal do PODCI foi um preditor positivo significativo ( $\beta = 0,22, p = 0,030$ ). A pontuação do PAQ-C ( $p = 0,11$ ) e a idade ( $p = 0,19$ ) não foram preditores significativos no modelo multivariável (Tabela 4).

**Tabela 4.** Regressão linear múltipla predizendo os ganhos funcionais induzidos pelo exercício ( $\Delta$  PODCI) a partir de variáveis sensório-motoras basais, variabilidade de movimento, atividade física e variáveis demográficas

Preditor	B (IC 95%)	EP	$\beta$	t	p	VIF
Erro de propriocepção articular (°)	-1,21 (-2,08; -0,34)	0,43	-0,28	-2,81	0,007*	1,51
Variabilidade do tempo de passo da marcha (%)	-1,38 (-2,31; -0,45)	0,46	-0,30	-3,00	0,005*	1,64
Variabilidade da coordenação interarticular (%)	-0,79 (-1,39; -0,19)	0,30	-0,26	-2,63	0,012*	1,56
Pontuação PODCI basal	+0,27 (0,04; 0,50)	0,12	+0,22	2,25	0,030*	1,39
Pontuação PAQ-C	+0,98 (-0,21; 2,17)	0,61	+0,15	1,61	0,11	1,34
Idade (anos)	+0,42 (-0,22; 1,06)	0,32	+0,12	1,31	0,19	1,28

$R^2 = 0,50, R^2$  ajustado = 0,43,  $F(6,41) = 6,89$ , Durbin-Watson = 2,01, Max VIF = 1,64.

\*significância se  $p < 0,05$ .

### 3.5 Adesão e viabilidade da intervenção

Os participantes completaram, em média,  $31,4 \pm 3,9$  das 36 sessões prescritas, o que corresponde a uma taxa de adesão de  $87,2 \pm 10,8\%$ . Trinta e nove crianças (81,3%) atingiram uma adesão de pelo menos 80%. A conclusão dos exercícios em casa teve uma média de  $84,6 \pm 12,1\%$ . As sessões perdidas foram principalmente devido a dor ou fadiga e foram relatadas por 9 participantes (18,8%) (Tabela 5).

**Tabela 5.** Adesão à intervenção e conclusão dos exercícios domiciliares em crianças com transtorno do espectro da hipermobilidade

Variável	Valor
Sessões prescritas (18 semanas)	36
Sessões concluídas, média $\pm$ DP	$31,4 \pm 3,9$
Taxa de adesão (%)	$87,2 \pm 10,8$
Adesão $\geq 80\%$ , n (%)	39 (81,3%)
Sessões domiciliares concluídas (%)	$84,6 \pm 12,1$
Sessões perdidas devido a dor/fadiga, n (%)	9 (18,8%)

### 3.6 Análise de respondedores

Com base no critério de respondedor predefinido ( $\Delta$  PODCI  $> 10$  pontos), 30 participantes foram classificados como respondedores e 18 como não respondedores. Os respondedores demonstraram erro de propriocepção articular basal significativamente menor ( $p = 0,002$ ), variabilidade do tempo de passo da marcha ( $p = 0,001$ ) e variabilidade da coordenação interarticular ( $p = 0,004$ ), bem como níveis mais elevados de atividade física basal ( $p = 0,03$ ). A idade não diferiu significativamente entre os grupos ( $p = 0,42$ ) (Tabela 6).

**Tabela 6.** Comparação da variabilidade sensório-motora, do movimento, da atividade física e da idade entre respondedores e não respondedores

Variável	Respondedores (n = 30)	Não respondedores (n = 18)	p
Δ PODCI	13,6 ± 4,2	4,9 ± 2,1	0,000*
Erro de propriocepção articular (°)	4,3 ± 1,1	5,8 ± 1,4	0,002*
Variabilidade do tempo de passo da marcha (%)	5,7 ± 1,6	7,9 ± 2,1	0,001*
Variabilidade da coordenação interarticular (%)	12,5 ± 3,4	16,3 ± 4,5	0,004*
Pontuação PAQ-C	3,0 ± 0,6	2,5 ± 0,5	0,03
Idade (anos)	10,7 ± 1,0	10,4 ± 1,2	0,42

\*significância se  $p < 0,05$ .

### 3.7 Diferenças fenóticas nos ganhos funcionais

Os participantes foram categorizados em quatro fenótipos de variabilidade sensório-motora. A ANOVA de uma via revelou um efeito significativo do fenótipo sobre o Δ PODCI ( $p < 0,001$ ). O grupo baixo comprometimento sensório-motor e baixa variabilidade demonstrou os maiores ganhos funcionais, seguido pelos grupos com baixo comprometimento sensório-motor e alta variabilidade, alto comprometimento sensório-motor e baixa variabilidade, e alto comprometimento sensório-motor e alta variabilidade. Análises post hoc indicaram melhorias significativamente maiores no grupo com baixo comprometimento sensório-motor e baixa variabilidade em comparação com o grupo com alto comprometimento sensório-motor e alta variabilidade (Tabela 7).

**Tabela 7.** Ganhos funcionais induzidos pelo exercício (Δ PODCI) em diferentes fenótipos de variabilidade sensório-motora

Fenótipo	Δ PODCI Média DP	ANOVA
Baixo comprometimento sensório-motor e baixa variabilidade	14,1 + 4,6	0,000*
Baixo comprometimento sensório-motor e alta variabilidade	9,8 + 4,9	
Alto comprometimento sensório-motor e baixa variabilidade	8,6 + 4,1	
Alto comprometimento sensório-motor e alta variabilidade	5,2 + 3,0	

\*significância se  $p < 0,05$ .

### 3.8 Segurança e eventos adversos

A intervenção foi bem tolerada. Dor transitória pós-exercício foi relatada por 11 participantes (22,9%) e exacerbação temporária da dor com duração superior a 24 horas foi relatada por 4 participantes (8,3%). Seis sessões (12,5%) necessitaram de modificação devido à fadiga ou desconforto. Nenhum participante interrompeu a intervenção e nenhum evento adverso grave foi relatado (Tabela 8).

**Tabela 8.** Eventos adversos relatados durante a intervenção com exercícios estruturados

Evento	n (%)
Dor muscular transitória após o exercício	11 (22,9%)
Agravamento temporário da dor (>24 h)	4 (8,3%)
Modificação da sessão necessária	6 (12,5%)
Interrupção do exercício	0
Eventos adversos graves	0

## 4. Discussão

Este estudo demonstra que uma intervenção estruturada de exercícios com duração de 18 semanas esteve associada a melhorias clinicamente significativas no desempenho funcional, propriocepção e controle do movimento em crianças com TEH. Embora estudos anteriores<sup>17,18</sup> tenham estabelecido o exercício como um pilar do tratamento da hipermobilidade pediátrica, os presentes achados ampliam as evidências existentes, demonstrando que as características sensório-motoras e de variabilidade do movimento na linha de base previram significativamente a magnitude da melhora funcional nesta amostra. Esses achados apoiam uma perspectiva informada pelo fenótipo, que vai além das investigações anteriores focadas na eficácia.

### 4.1 Melhorias funcionais após a intervenção com exercícios

A melhora observada de 10,2 pontos no domínio Esportes e Função Física do PODCI excede os limiares comumente relatados para mudanças clinicamente significativas e é comparável ou superior às melhorias relatadas em estudos anteriores de intervenção em hipermobilidade pediátrica<sup>19,20</sup>. Estudos randomizados e de coorte<sup>21-23</sup> em crianças com hipermobilidade articular e síndrome de Ehlers-Danlos hipermóvel geralmente relataram ganhos funcionais modestos a moderados após programas de fortalecimento e exercícios neuromusculares, com substancial variabilidade interindividual nos resultados. Uma limitação notável desta pesquisa é sua dependência de dados médios de grupo, o que ignora os fatores que impulsionam as diversas respostas observadas em crianças individualmente.

Em contraste, o presente estudo não apenas confirma a eficácia do exercício estruturado, mas também fornece evidências de que a variabilidade na resposta ao tratamento está sistematicamente relacionada às características sensório-motoras e de controle de movimento basais. Isso aborda uma lacuna crítica na literatura, onde resultados heterogêneos têm sido frequentemente atribuídos à baixa adesão, à gravidade da dor ou a fatores psicossociais sem um perfil objetivo de controle motor.

### 4.2 Adaptações sensório-motoras e de variabilidade do movimento

Em consonância com trabalhos anteriores<sup>24,25</sup>, as crianças deste estudo demonstraram reduções significativas no erro de propriocepção articular após a intervenção. A propriocepção prejudicada tem sido bem documentada em crianças e adolescentes com hipermobilidade articular generalizada, e estudos anteriores mostraram que o treinamento focado na propriocepção pode melhorar parcialmente a propriocepção articular. No entanto, a maioria das investigações anteriores avaliou a propriocepção como um desfecho isolado e não examinou sua relação com os ganhos funcionais.

Os presentes achados ampliam essa evidência, demonstrando que a melhora proprioceptiva ocorre juntamente com reduções na variabilidade do tempo de passo da marcha e na variabilidade da coordenação interarticular. A variabilidade excessiva do movimento tem sido relatada em populações hipermóveis e acredita-se que reflita um controle neuromuscular prejudicado e uma estabilidade de movimento reduzida. Ao mostrar melhorias simultâneas nas medidas proprioceptivas e de variabilidade, este estudo apoia o conceito de que o exercício facilita uma reorganização sensório-motora mais ampla, em vez de uma adaptação sensorial isolada.

### 4.3 Fenótipo basal como preditor de responsividade

Uma contribuição central e inédita deste estudo é a demonstração de que o comprometimento sensório-motor basal e a variabilidade do movimento foram preditores negativos significativos da melhora funcional. Crianças com maiores erros de propriocepção articular e maior variabilidade da marcha e interarticular na linha de base apresentaram ganhos menores nos escores do PODCI. Esses achados são consistentes com a literatura sobre aprendizagem motora e neuroreabilitação<sup>26,27</sup>, que sugere que a variabilidade excessiva e o feedback sensorial não confiável podem estar associados à redução da eficiência da aprendizagem.

É importante ressaltar que essa relação não havia sido demonstrada anteriormente em crianças com hipermobilidade articular. Ensaio anteriores de exercícios<sup>28,29</sup> em hipermobilidade não incorporaram medidas objetivas de controle motor em modelos preditivos, limitando a compreensão dos fatores associados à responsividade diferencial. Os resultados atuais fornecem evidências empíricas de que o fenótipo sensório-motor esteve mais fortemente associado à resposta ao tratamento do que a idade ou o nível geral de atividade nessa coorte.

#### **4.4 Atividade física, idade e influência relativa**

Embora o nível de atividade física basal e a idade tenham apresentado associações positivas com a melhora funcional em análises univariadas, nenhuma das variáveis permaneceu significativa no modelo multivariável. Dentro da faixa etária pediátrica relativamente restrita examinada, as características sensório-motoras basais demonstraram associações mais fortes com os ganhos funcionais do que os fatores demográficos. Isso pode explicar os achados inconsistentes em estudos anteriores<sup>30,31</sup> que não levaram em consideração o fenótipo motor basal.

#### **4.5 Análise de respondedores e estratificação de fenótipos**

A análise de respondedores reforça o papel preditivo do controle sensório-motor basal. Os respondedores demonstraram melhor propriocepção basal e menor variabilidade de movimento do que os não respondedores. A análise de subgrupos baseada em fenótipos revelou um padrão de resposta gradual, com maiores ganhos funcionais observados em crianças com menor comprometimento basal. Esse padrão estratificado sugere que crianças com TEH podem apresentar fenótipos distintos de controle motor associados a diferentes respostas a exercícios estruturados. No entanto, considerando o desenho do estudo, esses achados devem ser interpretados como associativos, e não causais, e necessitam de confirmação em ensaios controlados.

#### **4.6 Implicações clínicas e comparação com a prática atual**

As recomendações clínicas atuais para hipermobilidade pediátrica enfatizam a terapia com exercícios,

mas oferecem orientações limitadas sobre a estratificação das intervenções. Os presentes achados sugerem que a avaliação sensório-motora basal pode ajudar a identificar crianças com maior ou menor probabilidade de demonstrar melhora funcional após programas de exercícios padronizados. Crianças que apresentam déficits sensório-motores mais pronunciados podem se beneficiar de intervenções direcionadas ou em etapas.

#### **4.7 Segurança e viabilidade no contexto da literatura existente**

As altas taxas de adesão e a baixa incidência de eventos adversos observadas são consistentes com estudos anteriores sobre exercícios de hipermobilidade pediátrica e confirmam que o exercício estruturado é seguro e aceitável quando monitorado adequadamente. A ausência de eventos adversos graves reforça as evidências existentes de que o exercício progressivo não exacerba os sintomas nessa população e apoia sua implementação clínica mais ampla.

#### **4.8 Pontos fortes, limitações e direções para pesquisas futuras**

Um dos principais pontos fortes deste estudo é a integração de medidas objetivas de variabilidade sensório-motora e de movimento com desfechos funcionais, permitindo a análise da responsividade ao tratamento com base no fenótipo. No entanto, o delineamento intervencional de grupo único, sem grupo controle, impede a inferência causal. As relações observadas entre o fenótipo basal e a melhora funcional devem, portanto, ser interpretadas como associativas e preditivas dentro da amostra estudada.

Embora o tamanho da amostra tenha sido adequado para as análises de regressão planejadas, a inclusão de múltiplos preditores em uma coorte relativamente pequena aumenta o risco potencial de sobreajuste do modelo e instabilidade dos coeficientes. Embora os testes diagnósticos não tenham indicado multicolinearidade ou violações importantes das premissas, o modelo preditivo deve ser considerado preliminar e requer validação em amostras maiores e independentes. O tamanho da amostra também pode limitar a generalização para populações pediátricas mais amplas com TEH.

O limiar de resposta foi derivado de estimativas de MCID publicadas em populações pediátricas com distúrbios musculoesqueléticos, em vez de validação específica para TEH, e, portanto, deve ser interpretado com cautela até que seja feita a validação específica para a população estudada. Variáveis psicossociais não foram avaliadas e podem interagir com fenótipos sensório-motores, influenciando potencialmente a responsividade à intervenção.

Futuros ensaios randomizados devem avaliar se intervenções de exercícios adaptadas ao fenótipo produzem resultados superiores em comparação com programas padronizados e devem examinar a estabilidade a longo prazo das melhorias sensório-motoras. A incorporação de marcadores neurofisiológicos ou biomecânicos pode esclarecer ainda mais os mecanismos subjacentes à responsividade.

## 5. Conclusão

Um programa de exercícios estruturado de 18 semanas foi associado a uma melhora funcional clinicamente significativa em crianças com transtorno do espectro da hiper mobilidade, acompanhada por reduções significativas no erro proprioceptivo e na variabilidade do movimento. As medidas basais de variabilidade sensório-motora e de movimento previram independentemente os ganhos funcionais, sugerindo que a heterogeneidade na resposta ao exercício está associada a características subjacentes de controle sensório-motor, e não a fatores demográficos nesta amostra. Esses achados apoiam a consideração de abordagens informadas pelo fenótipo para a prescrição de exercícios. A incorporação de avaliações sensório-motoras objetivas pode auxiliar na individualização de estratégias de reabilitação; no entanto, ensaios controlados são necessários para determinar se intervenções adaptadas ao fenótipo produzem resultados clínicos superiores.

## Agradecimentos

Gostaríamos de agradecer sinceramente ao Sr. Vivek Alva, Administrador Fiduciário (Management Trustee) da Alva's Education Foundation, Moodbidri, Dakshina Kannada, Karnataka, Índia, por seu valioso apoio e orientação.

## Contribuições dos autores

Os autores declararam ter contribuído substancialmente para o trabalho em termos de concepção ou planejamento da pesquisa; aquisição, análise ou interpretação dos dados; e redação ou revisão crítica do conteúdo intelectual relevante. Todos os autores aprovaram a versão final a ser publicada e concordaram em assumir a responsabilidade pública por todos os aspectos do estudo.

## Conflitos de interesses

Não foram declarados conflitos de interesse financeiros, legais ou políticos envolvendo terceiros (governo, empresas privadas, fundações, etc.) em relação a qualquer aspecto do trabalho submetido (incluindo, entre outros, bolsas e financiamento, participação em conselho consultivo, planejamento do estudo, preparação do manuscrito, análise estatística, etc.).

## Indexadores

A *Revista Pesquisa em Fisioterapia* é indexada no [DOAJ](#), [EBSCO](#), [LILACS](#) e [Scopus](#).



## Referências

1. Akaras E, Deniz G, Eymir M, Sönmez M. The effects of joint hypermobility on strength, proprioception, and functional performance. *Sci Rep.* 2025;15(1):40529. <https://doi.org/10.1038/s41598-025-24199-x>
2. Romeo DM, Venezia I, De Biase M, Ascione F, Lala MR, Arcangeli V, et al. Developmental coordination disorder and joint hypermobility in childhood: a narrative review. *Children.* 2022;9(7):1011. <https://doi.org/10.3390/children9071011>
3. Nicholson LL, Chan C, Tofts L, Pacey V. Hypermobility syndromes in children and adolescents: Assessment, diagnosis and multidisciplinary management. *Aust J Gen Pract.* 2022;51(6):409-14. <https://doi.org/10.31128/AJGP-03-21-5870>
4. Gauduel T, Blondet C, Gonzalez-Monge S, Bonaiuto J, Gomez A. Alteration of body representation in typical and atypical motor development. *Dev Sci.* 2024;27(3):e13455. <https://doi.org/10.1111/desc.13455>

5. Hornsby EA, Tucker K, Johnston LM. Reproducibility of hypermobility assessment scales for children when performed using telehealth versus in-person modes. *Phys Occup Ther Pediatr.* 2023;43(4):446-62. <https://doi.org/10.1080/01942638.2022.2151393>
6. Chew MT, Ilhan E, Nicholson LL, Kobayashi S, Pacey V, Hakim A, et al. HOPE for hypermobile Ehlers-Danlos syndrome (hEDS) and hypermobility spectrum disorder (HDS)-a pilot randomised controlled trial of feasibility, acceptability and appropriateness. *Eur J Pain.* 2025;29(6):e70030. <https://doi.org/10.1002/ejp.70030>
7. De Baets S, Cruyt E, Calters P, Dewandele I, Malfait F, Vanderstraeten G, et al. Societal participation in Ehlers-Danlos syndromes and hypermobility spectrum disorder, compared to fibromyalgia and healthy controls. *PLoS One.* 2022;17(6):e0269608. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0269608>
8. Ospina PA, McComb A, Pritchard-Wiart LE, Eisenstat DD, McNeely ML. Physical therapy interventions, other than general physical exercise interventions, in children and adolescents before, during and following treatment for cancer. *Cochrane Database Syst Rev.* 2021;8(8):CD012924. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD012924.pub2>
9. Wang TJ, Stecco A, Hakim AJ, Schleip R. Fascial pathophysiology in hypermobility spectrum disorders and hypermobile Ehlers-Danlos syndrome: a review of emerging evidence. *Int J Mol Sci.* 2025;26(12):5587. <https://doi.org/10.3390/ijms26125587>
10. Mualem R, Morales-Quezada L, Farraj RH, Shance S, Bernshtein DH, Cohen S, et al. Econeurobiology and brain development in children: key factors affecting development, behavioral outcomes, and school interventions. *Front Public Health.* 2024;12:1376075. <https://doi.org/10.3389/fpubh.2024.1376075>
11. Haynes AB, Haukoos JS, Dimick JB. TREND reporting guidelines for nonrandomized/quasi-experimental study designs. *JAMA Surg.* 2021;156(9):879-80. <https://doi.org/10.1001/jamasurg.2021.0552>
12. Murali CN, Cuthbertson D, Slater B, Nguyen D, Turner A, Harris G, et al. Pediatric outcomes data collection instrument is a useful patient-reported outcome measure for physical function in children with osteogenesis imperfecta. *Genet Med.* 2020;22(3):581-9. <https://doi.org/10.1038/s41436-019-0688-6>
13. Busch A, Bangerter C, Mayer F, Baur H. Reliability of the active knee joint position sense test and influence of limb dominance and sex. *Sci Rep.* 2023;13(1):152. <https://doi.org/10.1038/s41598-022-26932-2>
14. Matsuzaka D, Wagatsuma K, Shimada T, Ikushima K, Fujisawa H. Reliability and validity of observational gait analysis by physical therapists: possibility of verifying accuracy and improving technology in visual measurement of joint angles. *Phys Ther Res.* 2025;28(2):129-36. <https://doi.org/10.1298/ptr.E10342>
15. Ito T, Noritake K, Ito Y, Tomita H, Mizusawa J, Sugiura H, et al. Three-dimensional gait analysis of lower extremity gait parameters in Japanese children aged 6 to 12 years. *Sci Rep.* 2022;12(1):7822. <https://doi.org/10.1038/s41598-022-11906-1>
16. Baddou I, El Harchaoui I, Benjeddou K, Reilly JJ, El Menchawy I, El Hamdouchi A. Cut-point values for classifying active children and validity and reliability of physical activity questionnaire for children in Morocco. *Child Care Health Dev.* 2023;49(6):1058-65. <https://doi.org/10.1111/cch.13116>
17. Palmer S, Davey I, Oliver L, Preece A, Sowerby L, House S. The effectiveness of conservative interventions for the management of syndromic hypermobility: a systematic literature review. *Clin Rheumatol.* 2021;40(3):1113-29. <https://doi.org/10.1007/s10067-020-05284-0>
18. Higo A, Palmer S, Liaghat B, Tallis J, Silvester L, Pearce G. The effectiveness of conservative interventions on pain, function, and quality of life in adults with hypermobile Ehlers-Danlos syndrome/hypermobility spectrum disorders and shoulder symptoms: a systematic review. *Arch Rehabil Res Clin Transl.* 2024;6(3):100360. <https://doi.org/10.1016/j.arrct.2024.100360>
19. Maarj M, Coda A, Tofts L, Williams C, Santos D, Pacey V. Outcome measures for assessing change over time in studies of symptomatic children with hypermobility: a systematic review. *BMC Pediatr.* 2021;21(1):527. <https://doi.org/10.1186/s12887-021-03009-z>
20. Shotwell C, Moore ES. Assessing reliability and validity of a functional outcome measure for adolescents with hypermobility spectrum disorder. *Disabil Rehabil.* 2022;44(7):1123-8. <https://doi.org/10.1080/09638288.2020.1788177>

21. Buryk-Iggers S, Mittal N, Santa Mina D, Adams SC, Englesakis M, Rachinsky M, et al. Exercise and rehabilitation in people with Ehlers-Danlos Syndrome: a systematic review. *Arch Rehabil Res Clin Transl*. 2022;4(2):100189. <https://doi.org/10.1016/j.arrct.2022.100189>
22. Liaghat B, Skou ST, Søndergaard J, Boyle E, Søgaard K, Juul-Kristensen B. A randomised controlled trial of heavy shoulder strengthening exercise in patients with hypermobility spectrum disorder or hypermobile Ehlers-Danlos syndrome and long-lasting shoulder complaints: study protocol for the Shoulder-MOBILEX study. *Trials*. 2020;21(1):992. <https://doi.org/10.1186/s13063-020-04892-0>
23. Schubert-Hjalmarsson E, Fridolfsson J, Arvidsson D, Börjesson M, Lundberg M. Exploring physical activity patterns in adolescents with hypermobility spectrum disorder or hypermobile Ehlers-Danlos syndrome. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2025;23(1):69. <https://doi.org/10.1186/s12969-025-01124-0>
24. Pacey V, Adams RD, Tofts L, Munns CF, Nicholson LL. Proprioceptive acuity into knee hypermobile range in children with joint hypermobility syndrome. *Pediatr Rheumatol Online J*. 2014;12:40. <https://doi.org/10.1186/1546-0096-12-40>
25. Peterson B, Coda A, Pacey V, Hawke F. Physical and mechanical therapies for lower limb symptoms in children with hypermobility spectrum disorder and hypermobile Ehlers-Danlos syndrome: a systematic review. *J Foot Ankle Res*. 2018;11(1):59. <https://doi.org/10.1186/s13047-018-0302-1>
26. Akizuki K, Takeuchi K, Yabuki J, Yamaguchi K, Yamamoto R, Kaneno T. Effects of self-control of feedback timing on motor learning. *Front Psychol*. 2025;16:1638827. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2025.1638827>
27. Azim E, Seki K. Gain control in the sensorimotor system. *Curr Opin Physiol*. 2019;8:177-87. <https://doi.org/10.1016/j.cophys.2019.03.005>
28. Garreth Brittain M, Flanagan S, Foreman L, Teran-Wodzinski P. Physical therapy interventions in generalized hypermobility spectrum disorder and hypermobile Ehlers-Danlos syndrome: a scoping review. *Disabil Rehabil*. 2024;46(10):1936-53. <https://doi.org/10.1080/09638288.2023.2216028>
29. Bennett SE, Walsh N, Moss T, Palmer S. Developing a self-management intervention to manage hypermobility spectrum disorders (HSD) and hypermobile Ehlers-Danlos syndrome (hEDS): an analysis informed by behaviour change theory. *Disabil Rehabil*. 2022;44(18):5231-40. <https://doi.org/10.1080/09638288.2021.1933618>
30. Ituen OA, Duysens J, Ferguson G, Smits-Engelsman B. Age- and sex-related changes in children with and without generalized joint hypermobility: a two-year follow-up study. *BMC Musculoskelet Disord*. 2025;26(1):693. <https://doi.org/10.1186/s12891-025-08684-y>
31. Williams CM, Welch JJ, Scheper M, Tofts L, Pacey V. Variability of joint hypermobility in children: a meta-analytic approach to set cut-off scores. *Eur J Pediatr*. 2024;183(8):3517-29. <https://doi.org/10.1007/s00431-024-05621-4>

## Anexo - Programa de exercícios sensório-motores integrados para crianças com Transtorno do Espectro da Hiperatividade

**Tabela A1.** Fase 1: Estabilização sensório-motora (Semanas 1–6)

Componentes	Exercícios	Dose	Estratégia de progressão	Mecanismo Alvo
Propriocepção articular	Reposicionamento articular (joelho/tornozelo), alinhamento dos membros, reposicionamento guiado por laser	2 × 10 repetições	Privação visual	Acuidade proprioceptiva
Equilíbrio estático	Apoio unipodal, apoio tandem, isometria em agachamento parcial	3 × 30 segundos	Base de apoio estreita	Estabilidade postural
Equilíbrio dinâmico	Teste de alcance e transposição de obstáculos	2 × 8 repetições	Aumento da distância de alcance	Integração sensorial
Perturbação	Desequilíbrios manuais, puxões com elástico	2 × 6 perturbações	Direção imprevisível	Controle reativo

Nota: Estabelecer confiabilidade proprioceptiva básica, estabilidade postural e controle neuromuscular com baixa carga.

**Tabela A2.** Fase 2: Integração Neuromuscular (Semanas 7–12)

Grupo muscular	Exercícios	Carga inicial	Progressão	Mecanismo alvo
Tronco	Prancha frontal, prancha lateral, perdigueiro	20–30 segundos	Superfícies instáveis	Estabilidade do tronco
Quadril	Subidas em degraus, caminhadas laterais com faixa elástica	Peso corporal	Faixas elásticas	Controle proximal
Joelho	Agachamentos unilateral, afundos	Peso corporal	Maior profundidade	Controle sagital
Tornozelo	Flexão plantar unipodal, transferência de peso na prancha de equilíbrio	2 × 12 repetições	Apoio de mão reduzido	Controle distal

Nota: Integrar a entrada proprioceptiva com a produção coordenada de força e o controle interarticular durante tarefas multissegmentares.

**Tabela A3.** Fase 3: Variabilidade funcional e transferência (Semanas 13–18)

Componente	Exercícios	Dose	Estratégia de progressão	Mecanismo alvo
Equilíbrio em dupla tarefa	Equilíbrio com arremesso de bola, tarefas cognitivas	3 × 30 segundos	Maior complexidade	Divisão da atenção
Tarefas multidirecionais	Passos laterais, cones de agilidade	2 × 10 repetições	Variação de velocidade	Adaptabilidade motora
Transferência funcional	Sentar e levantar, subir e descer escadas, transposição de obstáculos	2 × 8 repetições	Variabilidade ambiental	Transferência para o cotidiano

Nota: Promover a robustez do controle motor em condições variáveis e de dupla tarefa e facilitar a transferência para atividades funcionais diárias.